



Universitat Autònoma de Barcelona

ADVERTIMENT. L'accés als continguts d'aquesta tesi queda condicionat a l'acceptació de les condicions d'ús establertes per la següent llicència Creative Commons:  http://cat.creativecommons.org/?page_id=184

ADVERTENCIA. El acceso a los contenidos de esta tesis queda condicionado a la aceptación de las condiciones de uso establecidas por la siguiente licencia Creative Commons:  <http://es.creativecommons.org/blog/licencias/>

WARNING. The access to the contents of this doctoral thesis it is limited to the acceptance of the use conditions set by the following Creative Commons license:  <https://creativecommons.org/licenses/?lang=en>



UNIVERSIDAD AUTÓNOMA DE BARCELONA

FACULTAD DE MEDICINA- DEPARTAMENTO DE CIRUGÍA

PROGRAMA DE DOCTORADO: CIRUGÍA Y CIENCIAS MORFOLÓGICAS

Relación entre las contracturas glenohumerales y la funcionalidad en pacientes afectos de parálisis braquial obstétrica

Memoria presentada por

Sergi Alabau Rodríguez

para la obtención del grado de Doctor en Medicina y Cirugía

Directores:

Francisco Soldado Carrera

Sergi Barrera Ochoa

Tutor:

Xavier Mir Bulló

Barcelona, Junio 2020

Tesis doctoral – Sergi Alabau Rodríguez

Agradecimientos

A la Universidad Autónoma de Barcelona (UAB) por colaborar y apoyar la investigación.

Al Dr. Francisco Soldado, por su orientación y planificación en la realización de este trabajo, por su dedicación, entusiasmo y, en general, por transmitirme unos valores y su gran pasión hacia la cirugía del plexo braquial y la microcirugía. Por enseñarme a simplificar aquello que en un principio puede parecer complejo.

Al Dr. Sergi Barrera, por tantas cosas ya desde que nuestros caminos se cruzaron, primero cómo adjunto, después compañero y excelente amigo. Por sembrar en mi la pasión por la cirugía de la mano y la microcirugía. Por transmitirme la importancia de la investigación, el esfuerzo constante y la superación día a día. Y, sobretodo, por convencerme de que todo es posible.

Al profesor Xavier Mir, uno de mis mejores maestros. Por todo lo que me ha enseñado, por todos los consejos que me ha mandado, y por la confianza y las oportunidades que siempre me ha ofrecido.

Al profesor Enric Cáceres, por sus aportaciones y sugerencias en la realización del trabajo y por sus muchas enseñanzas. Por transmitirme su capacidad de trabajo, la planificación y la organización.

Al Dr. Felipe Hodgson, por su ayuda en el desarrollo del trabajo y en la recolecta de datos.

Al Dr. Gorka Knörr, por apoyar la investigación en su servicio de ortopedia infantil.

Al Dr. Joan Carles Monllau, por convencerme de la importancia de una investigación de calidad para el progreso de la ciencia. Por transmitirme excelencia clínica, quirúrgica e investigadora.

Al Dr. Pablo Gelber por sus recomendaciones en los proyectos científicos y por demostrarme que el trabajo bien hecho tiene su recompensa.

Al Dr. Carlomagno Cárdenas y a la Dra. Gemma Vilà, por sus consejos y su dedicación cómo tutores de residencia.

A todo el equipo de icatMA por su confianza y por dejarme crecer a su lado.

A mis compañeros de residencia.

A mis amigos.

A toda mi familia.

A mis queridos padres Nuri y Manel.

Y a Nuri.

“El físico no puede nunca someter al control de la experiencia una hipótesis aislada, solamente todo un conjunto de hipótesis. Cuando la experiencia está en desacuerdo con sus previsiones, ella le enseña que al menos una de las hipótesis que constituyen el conjunto es inaceptable y debe ser modificada, pero no indica cuál debe ser cambiada”

Duhem (1906)

Índice

Índice

	<u>Pág.</u>
1. Justificación del trabajo.....	16
2. Introducción.....	19
2.1. Anatomía del plexo braquial.....	21
2.2. Parálisis Braquial Obstétrica (PBO).....	22
2.2.1. Historia.....	22
2.2.2. Epidemiología.....	22
2.2.3. Etiología y factores de riesgo.....	23
2.2.4. Tipos de PBO.....	24
2.2.4.1. Parálisis braquial alta (o de Erb).....	24
2.2.4.2. Parálisis braquial baja y parálisis braquial intermedia.....	25
2.2.4.3. Parálisis braquial completa.....	26
2.2.5. Aproximación diagnóstica.....	27
2.2.6. Exploraciones complementarias.....	27
2.2.7. Escalas de medición.....	29
2.2.8. Diagnóstico diferencial.....	30
2.2.9. Pronóstico de la PBO.....	31
2.2.10. Deformidades y lesiones asociadas a la PBO.....	32
2.2.10.1. Co-contracciones musculares.....	33
2.2.10.2. Contracturas articulares glenohumerales.....	34
2.2.10.3. Displasia glenohumeral. Subluxación y luxación posterior.....	36
2.2.10.4. Discinesia escapular.....	37
2.2.11. Tratamiento de la PBO.....	38
2.2.11.1. Cronología de actuación.....	38
2.2.11.2. Tratamiento quirúrgico de la PBO	38
2.2.11.2.1. Cirugía primaria microquirúrgica.....	39
2.2.11.2.2. Cirugías secundarias en PBO.....	42

2.2.11.2.2.1.	Procedimientos sobre el hombro.....	42
2.2.11.2.2.2.	Procedimientos sobre el codo.....	45
2.2.11.2.2.3.	Procedimientos sobre el antebrazo, muñeca y mano.....	46
2.2.11.3.	Tratamiento rehabilitador	47
3.	Hipótesis de trabajo.....	51
4.	Objetivos de la tesis.....	55
5.	Material y métodos.....	59
5.1.	Estudio I.....	61
5.1.1.	Pacientes.....	61
5.1.1.1.	Criterios de inclusión.....	61
5.1.1.2.	Criterios de exclusión.....	62
5.1.2.	Diseño del estudio.....	63
5.2.	Estudio II.....	69
5.2.1.	Pacientes.....	69
5.2.1.1.	Criterios de inclusión.....	70
5.2.1.2.	Criterios de exclusión.....	70
5.2.2.	Diseño del estudio.....	71
5.3.	Material de medición.....	74
5.4.	Análisis estadístico	77
5.4.1.	Estudio I.....	77
5.4.1.1.	Tamaño muestral.....	78

5.4.1.2.	Estudio descriptivo.....	78
5.4.1.3.	Evaluación comparativa. Evaluación intra-/ interobservador.....	79
5.4.2.	Estudio II.....	79
5.4.2.1.	Estudio descriptivo.....	79
5.4.2.2.	Estudio comparativo.....	80
6.	Resultados	87
6.1.	Estudio I.....	89
6.2.	Estudio II.....	94
7.	Discusión	118
7.1.	Estudio I.....	120
7.2.	Estudio II.....	127
8.	Conclusiones	142
9.	Utilidad práctica.....	147
10.	Anexos.....	152
10.1.	Consideraciones éticas. Conflictos de interés.....	154
10.2.	Hojas de información al paciente.....	155
10.3.	Hoja de consentimiento informado.....	157
11.	Bibliografía	159

1. Justificación del trabajo



1. Justificación del trabajo

La parálisis braquial obstétrica (PBO) es una patología prevalente y con grandes repercusiones funcionales en la calidad de vida (Foad SL et al., 2008). La pérdida de la movilidad de la articulación glenohumeral (GH) que padecen los pacientes se debe a la combinación de la lesión nerviosa inicial, al desarrollo anormal de la musculatura y a un patrón de movimiento restringido, compensado por la articulación escapulotorácica en la mayoría de los pacientes (Eismann E et al., 2015; Gharbaoui I et al., 2015). Y todo esto puede traducirse con la aparición de contracturas articulares GH en muchos pacientes, tanto operados cómo no operados, incluso en aquellos con recuperación motora completa (Russo S et al., 2014; Waters P et al, 1999). Por esto, la prevención de la contractura GH es uno de los pilares fundamentales en el tratamiento de la PBO.

La mayoría de autores hace referencia a la aparición de contracturas del hombro en rotación interna y aducción (Hoeksma AF et al., 2000; Hultgren T et al., 2000). En cambio, muy pocos autores hacen referencia a las contracturas GH en abducción y rotación externa (Eismann E et al., 2015; Gharbaoui I et al., 2015; Nath R et al., 2007; Sabapathy R et al., 2017). Además, no existen series publicadas que evalúen la prevalencia ni que caractericen la deformidad de las contracturas, el grado de afectación ni su repercusión funcional. Desde nuestra experiencia, creemos que todas estas contracturas son muy frecuentes en la mayoría de los pacientes, incluso apareciendo de forma combinada (contracturas multidireccionales).

Otro problema que se presenta al estudiar las contracturas GH es el método de medición, existiendo una alta variabilidad en los resultados obtenidos. No existe un método fácil y reproducible que permita determinar la movilidad activa y pasiva de la articulación GH independientemente de la escapulotorácica.

Con este proyecto, se pretende cuantificar la frecuencia de cada tipo de contractura GH, caracterizar su deformidad y, al mismo tiempo, poder relacionar la funcionalidad de la extremidad en función del tipo de contractura. Además, se pretende describir un método fácil y reproducible para cuantificar el balance articular (BA) GH sin influencia del escapulotorácico. Y todo esto, con el objetivo de ayudar a comprender mejor las secuelas funcionales de los pacientes con PBO y, en definitiva, de mejorar su tratamiento, tanto a nivel quirúrgico como rehabilitador.

2. Introducción



2. Introducción

2.1. Anatomía del plexo braquial

El plexo braquial se encuentra ubicado en el triángulo posterior del cuello y está formado por las raíces cervicales C5-C6-C7-C8 y la primera torácica (T1). Su estructura inicial, la raíz, se agrupa en troncos, seguidamente se bifurca en divisiones, luego en fascículos y, finalmente, en las ramas o nervios terminales.

La convergencia de las raíces ventrales (motoras) y dorsales (sensitivas) forma el nervio raquídeo, el cual se divide en una rama dorsal, y en una rama ventral que formará el plexo. El tronco superior está formado por la unión de C5 y C6; el medio, por C7; y el inferior, por C8 y T1. Cada tronco se bifurca en una división anterior, que inervará a los músculos flexo-pronadores y otra posterior, que inervará a los extenso-supinadores. El tronco inferior destina sus fibras principalmente a la división anterior, encargándose de la inervación de la musculatura intrínseca de la mano. El fascículo lateral está formado por la unión de las divisiones anteriores de los troncos superior y medio; el fascículo medial, por la división anterior del tronco inferior; y el fascículo posterior, por la unión de las divisiones posteriores de los tres troncos primarios. De los fascículos emergen múltiples ramas terminales que inervan la extremidad superior (Llusá M et al., 2013).

2.2. Parálisis Braquial Obstétrica (PBO)

2.2.1. Historia

La PBO es una enfermedad resultado de una o más lesiones nerviosas a nivel del plexo braquial que se producen antes, durante o incluso después del parto. Las primeras descripciones de PBO (Smellie W et al., 1764; Duchenne et al, 1972) fueron parálisis altas o de Erb (C5-C6) (Erb et al., 1874). Posteriormente Klumpke describió la parálisis braquial baja (C8 y T1) y también el signo de Horner (ptosis, miosis, enoftalmos y anhidrosis en la hemicara ipsilateral) en lesiones de plexo braquial que afectaban la raíz T1 (Klumpke A et al., 1885).

2.2.2. Epidemiología

La incidencia oscila entre el 0.4 y el 5.1 por cada 1000 nacimientos vivos (Hoeksma A et al., 2000; Adler JB et al., 1967). Sin embargo, el mayor estudio poblacional y reciente observó una incidencia de 1.5 casos por 1000 nacimientos vivos y una disminución de los nuevos casos durante un periodo de 3 años (Foad SL et al., 2008). Esto podría explicarse por la mejoría en las técnicas obstétricas, la identificación de la desproporción cefalopélvica (Adler JB et al., 1967), la disminución de bebés de alto peso o el incremento de las inducciones y las cesáreas (Martin JA et al., 2004). La lateralidad mas frecuente es la derecha y, en algunos casos, puede ser bilateral.

2.2.3. Etiología y factores de riesgo

Mientras que la mayoría de PBOs están relacionadas con el parto, existen causas menos frecuentes como hemangiomas, tumores o fracturas de la extremidad superior (Alfonso DT et al., 2011). La mayoría de las lesiones relacionadas con el parto son debidas a una tracción lateral sobre la cabeza del bebé para que pueda salir el hombro. La presencia de macrosomía fetal, la distocia de hombros, la presentación de nalgas o un alto peso del bebé (>4Kg) se han considerado factores de riesgo mecánicos. Asimismo, la instrumentación (fórceps o vacuum) y la prolongación del parto también aumentan la incidencia de la enfermedad. Factores maternos como la multiparidad o la diabetes gestacional también se han relacionado con la PBO (Van Ouwerkerk WJ et al., 2000; Waters PM, 1997). Sin embargo, la distocia de hombros resulta el mayor factor de riesgo, aumentado cien veces el riesgo de PBO (Foad SL et al., 2008; Mollberg M et al., 2005). Esta es más frecuente en bebés de más de 4 kg de peso (Chauhan SP et al., 2005; Nocon JJ et al., 1993), pero el mejor predictor de la distocia es el antecedente de una distocia de hombros previa (Donnelly V et al., 2002; Gonik B et al., 1991). La presentación de nalgas suele generar lesiones severas y, frecuentemente, provoca lesiones bilaterales. En cambio, el alto peso del bebé suele provocar lesiones menos graves (Ubuchs JMH et al., 1995). Aun así, solamente el 46% de los niños presenta uno o más factores de riesgo (Foad SL et al., 2008).

Contrariamente el parto gemelar, la primiparidad y la cesárea tienen un efecto

protector (Foad SL et al., 2008). Aunque esta última tenga un efecto protector, no representa una garantía para evitar la enfermedad (Al-Qattan MM et al., 2003).

2.2.4. Tipos de PBO

La severidad de la lesión nerviosa es muy variable según el mecanismo lesional. Puede oscilar desde una lesión nerviosa por estiramiento hasta una avulsión de una raíz espinal (Johnson EO et al., 2013). Asimismo, el nivel lesional puede variar, diferenciándose lesiones altas, bajas y completas. Según la localización, se diferencian lesiones supraclaviculares, que afectan raíces y troncos; y lesiones infraclaviculares, que afectan fascículos y ramas terminales. Las lesiones más proximales son las preganglionares y son las de peor pronóstico.

2.2.4.1. Parálisis braquial alta (o de Erb)

Es la más frecuente y afecta las raíces C5 y C6 o el tronco superior. En ocasiones, existen lesiones altas extendidas con afectación desde C5 a C7. El mecanismo lesional durante el parto suele ser por una flexión lateral excesiva del cuello. Se trata de la PBO con mejor pronóstico, con altas probabilidades de recuperación completa de forma espontánea.

La presentación clínica es con la típica postura en “propina de camarero”, es decir, el brazo en rotación interna, aducción del hombro, el codo extendido y el antebrazo pronado con la muñeca flexionada. La lesión de C5 produce parálisis del

deltoides y del redondo menor (n. axilar), del supraespinoso e infraespinoso (n. supraescapular), así como del bíceps y del braquial (n. musculocutáneo). La lesión de C6 también debilita el braquiorradial y el supinador (n. radial). A nivel somatosensorial suelen presentar anestesia en la cara externa del hombro y a veces en la cara externa del brazo, antebrazo y pulgar, siguiendo la metámera de C6. Los reflejos bicipital y estilo-radial se encuentran abolidos.

2.2.4.2. Parálisis braquial baja y parálisis braquial intermedia

Ambos tipos son poco frecuentes y excepcionales desde la aparición de las técnicas modernas de obstetricia (Brunnelli GA et al., 1991; Al-Qattan MM et al., 1995; El-Sayed AAF et al., 1996). Las lesiones bajas (síndrome de Aran-Duchenne) afectan a las raíces C8 y T1 o al tronco inferior. Suelen producirse por una tracción axial craneal con el brazo en hiperabducción y es frecuente que se produzcan avulsiones de raíces. Suelen asociarse con una lesión del sistema simpático, manifestándose con un síndrome de Horner asociado (síndrome de Dejerine-Klumpke). Su manifestación clínica es en forma de parálisis de la musculatura flexora de la muñeca y los dedos (n. mediano y cubital), así como de la intrínseca de la mano (n. cubital), produciéndose una mano en garra. A nivel sensorial, aparece anestesia del borde interno del brazo, antebrazo y mano, y abolición del reflejo cubito-pronador.

En cambio, la parálisis braquial intermedia (o síndrome de Remack) solamente afecta a la raíz C7 o el tronco medio y se presenta con debilidad de extensores del

codo, la muñeca y dedos, exceptuando el braquiorradial, que puede estar indemne ya que suele depender de C6. A nivel somatosensorial aparece anestesia en la región dorsal media del antebrazo y la mano, y el reflejo tricipital se encuentra abolido.

2.2.4.3. Parálisis braquial completa

Es el segundo tipo más frecuente, afecta a todas las raíces (C5-T1) y el mecanismo lesional durante el parto es parecido al de la parálisis de Erb, pero con mayor energía. Los niños presentan una parálisis flácida de toda la extremidad, incluyendo la mano. Su pronóstico es peor y habitualmente no se recupera espontáneamente. Además, suelen presentar anestesia de todo el miembro, trastornos tróficos simpáticos (anhidrosis y/o alteraciones cutáneas) y dolor neuropático.

Lesiones preganglionares:

Las lesiones preganglionares se producen por avulsión de las raíces y suelen presentar atrofia de la musculatura paravertebral. Además, pueden asociarse a un síndrome de Horner, que suele indicar la presencia de una lesión preganglionar, sobretodo por avulsión de la raíz T1 (Yang LJ-S et al., 2014), aunque este no siempre traduce una avulsión. Si sospechamos una lesión preganglionar debe evaluarse la función del hemidiafragma correspondiente ya que su parálisis indica una lesión del nervio frénico y, de forma indirecta, una lesión alta (de C4 y/o C5) preganglionar. Las lesiones del nervio frénico son mas frecuentes en las presentaciones de nalgas. Por otro lado, las lesiones preganglionares pueden manifestarse con una escápula

alada, debido a una lesión del nervio dorsal de la escapula (romboides y elevador escapular) y/o el torácico largo (serrato anterior).

2.2.5. Aproximación diagnóstica

La evaluación del niño con PBO debe ser multidisciplinar, mediante un equipo formado por un cirujano ortopédico, un neonatólogo, un obstetra, un terapeuta ocupacional, un fisioterapeuta y un psiquiatra (Al-Qattan MM et al., 2003). Dicha evaluación debe incluir una anamnesis completa sobre el parto, así como la historia familiar y de la madre (Berry PO et al., 2017). Asimismo, debe registrarse mensualmente el BA de cada articulación (activo y pasivo), así como la utilización de escalas funcionales durante el primer año. También debe cuantificarse la fuerza muscular y la estabilidad del hombro. Es frecuente que el recién nacido presente un BA pasivo completo ya que las contracturas no se desarrollan hasta los 2-3 meses de edad (Berry PO et al., 2017). En cambio, la limitación del BA activo ya se presenta desde edades tempranas, manifestando asimetría en los reflejos primitivos.

2.2.6. Exploraciones complementarias

La prueba con mayor sensibilidad para detectar una lesión del plexo braquial es la anamnesis y el examen clínico. Sin embargo, para mejorar la especificidad, determinar la etiología y la localización, podemos ayudarnos de pruebas de imagen:

- **MieloTAC y Resonancia Magnética Nuclear (RMN)**

La Tomografía Computarizada con contraste (MieloTAC) y la RMN de alta resolución (Sloof et al., 1995) son las de mayor utilidad. Sin embargo, constituye un reto radiológico debido a la compleja anatomía y al escaso calibre del plexo. Ambas permiten diferenciar una lesión preganglionar de una postganglionar, objetivando hematomas en el canal medular y pseudomeningoceles. Sin embargo, la RMN se considera superior ya que no irradia y evalúa la médula espinal y los tejidos blandos (Miller SF et al., 1993; Bauer AS et al., 2017). Aún así, se cuestiona la utilidad de estas pruebas para diferenciar las lesiones pre- y postganglionares en pacientes con PBO (Al-Qattan MM et al., 2003). Por otro lado, la RMN del plexo es de utilidad para evaluar la presencia de displasia y/o luxación GH posterior.

- **Ecografía de nervio periférico**

La ecografía de alta resolución se considera la prueba de mejor calidad para evaluar el nervio periférico. Además, es rápida, económica y no invasiva. Y al ser dinámica, permite correlacionar la sintomatología con la anatomía. Sin embargo, la RMN supera a la ecografía a nivel del plexo braquial. En cambio la ecografía es de gran utilidad para estudiar la presencia de displasia y/ o luxación GH.

- **Estudios electroneurofisiológicos**

La electromiografía (EMG) y los estudios de conducción nerviosa no presentan una fiabilidad elevada (baja sensibilidad y especificad) en la PBO y pueden

infraestimar la severidad de la lesión (Heise CO et al., 2007; Al-Qattan MM et al., 2003). En los niños, la denervación aparece y desaparece de forma más temprana, empezando a los pocos días y desapareciendo a los cuatro meses aproximadamente, incluso en lesiones graves (Vredeveld JW et al., 2001). Además, en la PBO suele aparecer una inervación o “sprouting” colateral masivo de los músculos denervados.

- **Registros peroperatorios**

Como el 60% de los nervios con continuidad macroscópica durante la exploración quirúrgica presentan un déficit funcional, podemos ayudarnos de estudios electrofisiológicos peroperatorios para comprobar su funcionalidad y su potencial de recuperación espontáneo. Los de mayor fiabilidad son el potencial de acción nervioso intraoperatorio, la electromiografía intraoperatoria y los potenciales evocados somatosensoriales. En cambio, para evaluar lesiones supraclaviculares y preganglionares deben utilizarse los potenciales evocados somatosensoriales, valorando la continuidad de la raíz con el SNC y evitando disecciones complejas. Sin embargo, su fiabilidad en PBO tampoco es elevada (Al-Qattan MM et al., 2003).

2.2.7. Escalas de medición

Una de las escalas más utilizadas para evaluar la funcionalidad motora del miembro superior en PBO es la de *Mallet Muscle Grading System for Shoulder Function* (Mallet J et al., 1972). Evalúa la habilidad de mantener una posición

funcional de la extremidad afectada, centrándose en la abducción y la rotación externa del hombro afectado.

La evaluación sensorial en niños pequeños es difícil de realizar. Por esto, la medición más fiable es la respuesta al estímulo doloroso y la clasificación más utilizada en niños con PBO es la de Narakas (Narakas AO, 1986).

2.2.8. Diagnóstico diferencial

Cuando se sospecha una PBO debe descartarse una fractura de húmero y/o de la clavícula ipsilateral, ya que pueden provocar una pseudoparálisis con una presentación similar a la PBO. Se producen por un mecanismo de compresión del plexo por el hueso fracturado, el edema o el hematoma o incluso tras la utilización de algún inmovilizador que produzca presión sobre la zona. Sin embargo, también pueden deberse al dolor causado por una fractura o una infección. Contrariamente, la pseudoparálisis tiene una resolución rápida y completa (Clarke HM et al., 1995).

Asimismo, debe hacerse el diagnóstico diferencial con la hemiplejía, la cual presentará hiperreflexia (Berry PO et al., 2017), y con enfermedades neuromusculares, las cuales presentaran debilidad en varias extremidades. Asimismo, para diferenciar una parálisis cerebral de una PBO se debe confirmar que es de tipo espástica y no flácida, como sería esperable en una PBO. Las plexopatías bilaterales deben ser evaluadas para descartar lesiones medulares espinales, especialmente si presentan dificultad respiratoria o debilidad en las piernas (Berry

PO et al., 2017). Otros diagnósticos diferenciales menos frecuentes son la compresión intrauterina nerviosa por el cordón umbilical o por bandas amnióticas (Ross D et al., 1983) o incluso algunas enfermedades congénitas como la varicela (Al-Qattan MM et al., 1995) o la aplasia congénita de raíces (Gilbert A et al., 1993).

2.2.9. Pronóstico de la PBO

Entre el 66% y el 92% de niños con PBO se recupera espontáneamente sin ningún gesto quirúrgico añadido (Hale HB et al., 2010; Greenwald AG et al., 1984; Sjoberg K et al., 1988). Esta recuperación puede producirse hasta los dos primeros años tras la lesión y depende de la severidad y el nivel de la lesión nerviosa. Las neuroapraxias suelen recuperarse rápido, en 1-2 meses, ya que son lesiones por estiramiento, de baja energía. Por esta razón, suele haber una menor proporción de avulsiones y lesiones graves, ofreciendo un mejor pronóstico que las lesiones del adulto. En la PBO es frecuente la formación de neuromas en continuidad en la zona lesionada, permitiendo el paso de algunos axones hasta el segmento distal del nervio (Malessy MJA et al, 2009; Birch R et al., 2011). Sin embargo, en algunas PBOs pueden combinarse avulsiones con lesiones completas por estiramiento.

El factor pronóstico positivo más importante es la recuperación espontánea de la función del bíceps alrededor de los 4 meses de edad (Al-Qattan MM et al., 2003). Por el contrario, un signo de Horner es un factor pronóstico negativo en las parálisis completas, ya que menos del 10% se recuperará (Hale HB et al., 2010). Las lesiones

por avulsión son las más severas ya que no presentan potencial de recuperación motor, debido a la separación de la raíz nerviosa de la célula motora del canal medular. Para poder predecir la funcionalidad final a los pocos meses de edad, diversos autores han creado unas puntuaciones que ayudan a decidir la necesidad de exploración quirúrgica y el tiempo de actuación ideal (Gilbert A et al., 1993; Al-Qattan MM et al., 2003; Zancolli EA et al., 1988; Laurent JP et al., 1993).

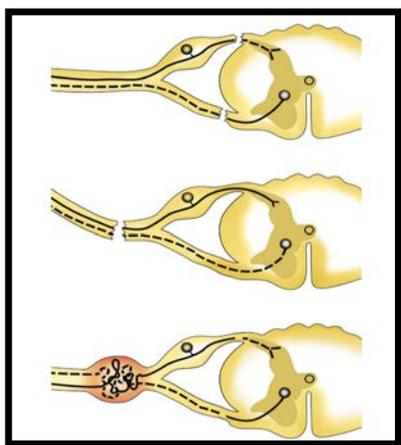


Figura 1. Arriba: rotura preganglionar (avulsión); centro: rotura postganglionar; abajo: neuroma en continuidad. (Socolovsky M et al., 2015).

2.2.10. Deformidades y lesiones asociadas a la PBO

Los pacientes con PBO no solamente padecen déficits motores, sino que también presentan desbalances y co-contracciones musculares, deformidades articulares y contracturas articulares que pueden aparecer de forma precoz alrededor de los tres meses y que progresan con la edad (van der Sluijs JA et al., 2001).

2.2.10.1. Co-contracciones musculares

Durante la regeneración nerviosa a través del neuroma en continuidad, algunos axones pueden equivocarse y dirigirse hacia músculos cercanos (van Dijk JG et al., 2001), produciendo una reinervación de músculos antagonistas y la aparición de co-contracciones (Anguelova et al., 2017) que causaran rigideces articulares y problemas funcionales, incluso de mayor gravedad que la propia debilidad primaria (van Dijk JG et al., 2007). Así pues, para realizar la misma fuerza de flexión que una persona sana, los pacientes con co-contracciones de bíceps y tríceps requieren un incremento de la activación muscular del bíceps para superar la co-contracción tricipital, generando una mayor rigidez del codo. Estas co-contracciones pueden producirse tanto con tratamiento conservador, cómo después de una cirugía de reconstrucción nerviosa, pero las probabilidades son mayores cuando existe un neuroma en continuidad (Socolovsky M et al., 2015).

El diagnóstico de las co-contracciones puede hacerse por palpación de los músculos agonistas y antagonistas, notándose la contracción de un músculo sin una adecuada función motora pero manteniendo un buen balance articular pasivo. Sin embargo, la exploración física no siempre permite distinguir entre debilidad de un músculo y la co-contracción de su antagonista (Anguelova GV et al., 2017). Por esto, la EMG puede favorecer una exploración más objetiva. Aún así, es difícil cuantificar la contribución de las co-contracciones en la limitación motora, ya que aparecen potenciales electromiográficos cruzados o “cross-talk” debidos a la actividad involuntaria de los músculos vecinos (van Dijk JG et al., 2001). Otro método de

evaluación es el “Short Range Stiffness” (SRS) o rigidez de rango corto. Se trata de un sistema de medición que evalúa la funcionalidad mecánica de la extremidad, incluyendo las co-contracciones y la debilidad muscular mediante un motor eléctrico servo-controlado y un software que registra el cambio de angulación según la fuerza aplicada (Schouten et al., 2006; van Eesbeek S et al., 2010).

2.2.10.2. Contracturas articulares glenohumerales

La mayoría (56%) de PBOs con recuperación incompleta presentan secuelas funcionales y pérdida de movilidad debido a la aparición de contracturas articulares del hombro (Hoeksma AF et al., 2003). Incluso aparecen en el 30% de los pacientes con recuperación neurológica completa, aunque retardada (más de 3 semanas) (Hoeksma AF et al., 2004). La aparición de las contracturas es progresiva a medida que el niño realiza el crecimiento musculoesquelético (Gharbaoui I et al., 2015). Las más estudiadas son en rotación interna y aparecen con más frecuencia en lesiones del tronco superior con recuperación incompleta (Einarsson F et al., 2008; Hogendoorn S et al., 2010; van Gelein Vitranga VM et al., 2011).

Existen dos hipótesis sobre el origen de las contracturas articulares GH: la teoría de la denervación y la del desbalance muscular, principalmente entre rotadores internos y externos del hombro. La primera hipotetiza que la denervación del músculo subescapular causa atrofia, fibrosis y acortamiento del músculo; y como consecuencia, se establece una contractura articular (Pöyhiä TH et al., 2005;

Nikolaou S et al., 2011). Teóricamente, como el subescapular recibe inervación segmentaria de C5, C6 y C7, en lesiones del tronco superior debería permanecer parcialmente inervado (Waters PM et al., 1998). Sin embargo, se ha evidenciado que la porción inferior (y también la superior) del subescapular se atrofia a pesar de la inervación (Hogendoorn S et al., 2010; van Gelein Vitranga VM et al., 2011; Pöyhiä TH et al., 2005). Además, estudios con RMN han evidenciado una pérdida de grosor muscular. Sin embargo, las biopsias del subescapular no han evidenciado atrofia ni fibrosis muscular, aunque sí adelgazamiento muscular (Einarsson F et al., 2008; van Gelein Vitranga VM et al., 2011; Pöyhiä TH et al., 2005).

De hecho, la mayoría de autores dan soporte a la teoría del desbalance muscular (Hultgren T et al., 2010; Li Z et al., 2008). Esto sugiere que las contracturas GH en rotación interna se deben a la incompleta o retardada reinervación de los rotadores externos del hombro (Waters PM et al., 1998), generando una dominancia de los rotadores internos sobre los rotadores externos y, por lo tanto, una posición mantenida en rotación interna que, asociada a la falta de estiramiento pasivo y al poco uso del músculo subescapular, genera un acortamiento progresivo y una hipoplasia muscular (Einarsson F et al., 2008; Hultgren T et al., 2010). Soldado demostró en un estudio murino que la teoría del desbalance muscular se cumplía de forma aislada, produciéndose atrofia del subescapular y contracturas articulares en rotación interna al denervar solamente los músculos supraespinoso e infraespinoso tras seccionar el nervio supraescapular (Soldado F et al., 2014).

2.2.10.3. Displasia glenohumeral. Subluxación y luxación posterior

Los pacientes con PBO también suelen presentar deformidades osteoarticulares (Rogers MH et al., 1916; Gurewitsch ED et al., 2006; Waters PM et al., 1998; Troum S et al., 1993; Liebolt FL et al., 1953), apareciendo displasia glenohumeral (DGH) entre el 33% y el 74% de los pacientes (Hoeksma AF et al., 2003). La hipótesis inicial sobre el origen de la DGH apuntaba a la rotación interna mantenida por las contracturas en rotación interna, causando un estrés excesivo sobre la cabeza y la glenoides durante el crecimiento del niño (Pearl ML et al., 1998, Kozin SH et al., 2004). Sin embargo, estudios posteriores no observaron correlación entre estas contracturas y la DGH (Pearl ML et al., 2009; Iorio ML et al., 2015; Waters P et al., 2009; Van Gelein Vitranga VM et al., 2011). Además, en algunos casos se ha diagnosticado la DGH previamente a la aparición de la contractura articular. Por esto, la teoría más aceptada apunta al desbalance muscular entre los rotadores internos y los externos, así como entre los abductores y los aductores del hombro (Waters P et al., 2009; Nixon M et al., 2014; Kozin SH et al., 2004; Pöyhiä TH et al., 2005). Este desbalance genera fuerzas sobre la capsula y los huesos del hombro, provocando un crecimiento asimétrico de las partes blandas, la aparición de contracturas articulares y cambios estructurales en la superficie articular de la glena y la cabeza humeral. Como las parálisis parciales provocan más desbalance muscular que las totales, la frecuencia o severidad de la DGH es mayor en estas lesiones (Iorio ML et al., 2015). Sin embargo, otros autores no han podido establecer dicha relación (van der Sluijs JA et al., 2001; Hoeksma AF et al., 2003).

La DGH se traduce en forma de contracturas capsulo-ligamentosas progresivas, retroversión de la glenoides o formación de una pseudoglena, subluxación posterior de la cabeza humeral, aplanamiento de la cabeza humeral y, en última instancia, en una luxación GH (Waters PM et al., 1998; Van Gelein Vitranga VM et al., 2009). En la mayoría de los pacientes, estas deformidades suelen desarrollarse tempranamente, durante el primer año de vida (van der Sluijs JA et al., 2001, Hale HB et al., 2010).

2.2.10.4. Discinesia escapular

Prácticamente todos los pacientes afectados de PBO presentan un aleteo escapular compensatorio debido a que la inervación de los romboides y el serrato anterior es proximal al nivel de lesión habitual; y la inervación del trapecio es independiente del plexo braquial. Así pues, todos los músculos escapulotorácicos tienen una correcta función y, por lo tanto, pueden compensar la pérdida de movilidad GH, exceptuando los pocos casos de avulsiones de C5 y C6 (Russo S et al., 2014; Malessy MJA et al., 2009). Así pues, el aumento de la movilidad escapulotorácica puede ser la compensación combinada del desbalance muscular, la deformidad esquelética y la adaptación neuromuscular (Duff SV et al., 2007).

2.2.11. Tratamiento de la PBO

El tratamiento debe individualizarse, dependiendo de la etiología, el nivel, la severidad, y el tiempo de evolución. Aproximadamente, el 30% de los pacientes con PBO requiere de un tratamiento quirúrgico (Pondaag W et al., 2014) y, como norma general, se establece que la flexión del codo es la función más importante y prioritaria a recuperar; la segunda es la del hombro; y, por último, la de la mano.

2.2.11.1. Cronología de actuación

Escoger el momento adecuado para la intervención quirúrgica es primordial. Si esperamos más de 12 meses, habrá atrofia muscular y la recuperación motora será limitada debido a fenómenos histológicos y bioquímicos sobre las fibras musculares y la placa motora (Sunderland et al., 1950). En PBOs completas con síndrome de Horner asociado, debe realizarse una cirugía primaria de forma precoz (3 meses de edad). En cambio, para las lesiones altas sin avulsiones se recomienda la cirugía si no se ha conseguido la flexión del codo contra gravedad entre los 3-6 meses (Shah A et al., 2019).

2.2.11.2. Tratamiento quirúrgico de la PBO

El tratamiento quirúrgico comprende desde cirugías primarias (microcirugía reconstructiva o transferencias nerviosas) durante los primeros meses de vida, hasta procedimientos secundarios para tratar las secuelas funcionales.

2.2.11.2.1. Cirugía primaria microquirúrgica

Durante la exploración quirúrgica primaria del plexo se pueden identificar avulsiones de las raíces, roturas completas, neuromas en continuidad o incluso combinaciones de estas. Si se objetiva un neuroma en continuidad, debe seccionarse y reponerse el defecto mediante un injerto nervioso. En cambio, si se trata de una lesión proximal o preganglionar que no permite su reconstrucción, se deberá realizar una transferencia nerviosa.

Reconstrucción microquirúrgica. Resección del neuroma e injerto nervioso:

La resección del neuroma e injerto nervioso se considera el gold estándar ya que ofrece muy buenos resultados, con recuperación de la abducción del hombro y la flexión del codo (Gilbert A et al.,1987). Además, los pacientes operados no suelen presentar tantas co-contracciones y, al recuperar parcialmente la musculatura, se obtienen mejores resultados al realizar cirugías secundarias (Gilbert A et al.,1987).

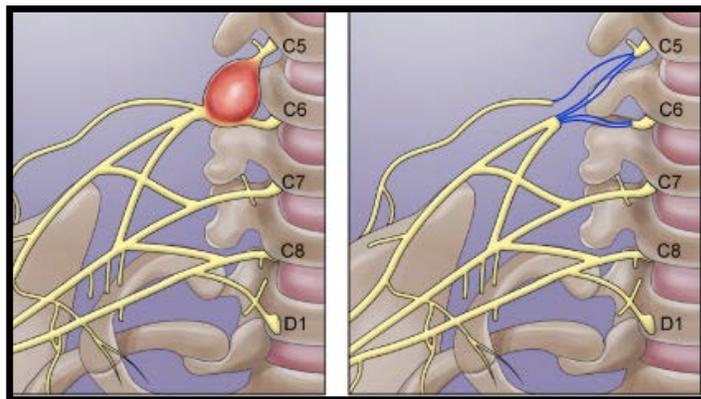


Figura 2. Resección del neuroma de C5 y C6 e interposición de injerto de nervio sural hacia el tronco superior y hacia el n. supraescapular (Socolovksy et al., 2015).

Si no existen avulsiones de raíces, la reconstrucción suele hacerse con neurotizaciones intraplexuales. Como casi siempre la raíz de C5 y C6 se encuentra íntegra, se conecta la raíz de C5 al nervio supraescapular, a la división anterior, al fascículo lateral o incluso al nervio musculocutáneo. La raíz C6, en cambio, se suele conectar a la división posterior, al cordón posterior o al nervio axilar y radial.

Neurolisis:

La neurolisis no se recomienda como tratamiento aislado de la PBO ya que los neuromas en continuidad distorsionan la anatomía del nervio y no se consigue mejoría tras la cirugía (Clarke HM et al., 1996).

Transferencia nerviosa o neurotización:

La transferencia nerviosa consiste en seccionar un nervio (nervio donante), sacrificando su función, para unirlo al cabo distal de otro nervio (nervio receptor), el cual ha perdido su función. Se indica cuando el nervio lesionado no tiene un extremo proximal al que pueda unirse el extremo distal, es decir, cuando la lesión es muy proximal o se avulsiona la raíz. Dependiendo de la cantidad de raíces disponibles se recurre a transferencias de nervios extraplexuales, como el nervio espinal accesorio (NEA) o los nervios intercostales. Sin embargo, en la PBO casi nunca se utilizan las transferencias nerviosas puras, ya que habitualmente existe alguna raíz funcionante, de forma que se combinan injertos y neurotizaciones.

Existen múltiples transferencias nerviosas para recuperar el nervio musculocutáneo y la flexión de codo. Las más utilizadas son mediante nervios intercostales (Seddon HJ, 1963), NEA (Oberlin C et al., 1994; Birch R et al., 1998) o mediante la rama medial del pectoral (Simic V et al., 2018). Sin embargo, para lesiones altas, una de las mejores es la transferencia de Oberlin, mediante fascículos del nervio cubital (técnica de Oberlin I) (Oberlin C et al., 1994) y/o fascículos del mediano (técnica de Oberlin II) (Nath R et al., 2010; Mackinnon SE et al., 2015).

Para recuperar la funcionalidad del hombro existen múltiples transferencias nerviosas hacia el nervio supraescapular y el axilar. Algunas de las más utilizadas son la de la rama motora de la cabeza medial del tríceps (nervio radial) hacia el nervio axilar (Lurje A et al., 1948; Zuckerman SL et al., 2014; Bertelli JA et al., 2010) o hacia el supraescapular (Terzis JK et al., 2008). De todas formas, la recuperación del hombro es mayor cuando se reinervan conjuntamente el nervio supraescapular y el nervio axilar (Hou Z et al., 2002) y, por este motivo, se suele realizar una neurotización combinada del NEA hacia el supraescapular, juntamente con la del tríceps medial hacia el axilar.

Para los pocos casos de avulsiones bajas (C8-T1 +/- C7), donde existen secuelas funcionales de la mano, se suelen recomendar cirugías secundarias. Sin embargo, las neurotizaciones distales son alternativas cada vez más utilizadas. Una de las más frecuentes es la del nervio interóseo anterior a la rama motora del nervio cubital, o incluso a la rama tenar del nervio mediano (Wood MB, 2004).

2.2.11.2.2. Cirugías secundarias en PBO

Se trata de procedimientos sobre el hueso, el músculo o las partes blandas para mejorar la funcionalidad de la extremidad tras las secuelas por la lesión nerviosa, el desbalance muscular, las contracturas articulares y las deformidades osteoarticulares. Las más empleadas son las osteotomías, las transferencias musculotendinosas, las liberaciones de partes blandas y, en último lugar, las artrodesis. Pueden realizarse secuencialmente, empezando a nivel del hombro y siguiendo caudalmente hacia el codo, el antebrazo o la mano, dependiendo del nivel afectado.

2.2.11.2.2.1. Procedimientos secundarios sobre el hombro

Una técnica para tratar las contracturas en rotación interna es la de Sever-L'Episcopo y consiste en la transferencia tendinosa del dorsal ancho y del redondo mayor a la tuberosidad mayor del húmero (L'Episcopo JB et al., 1939, Strecker WB et al., 1990). Aunque se incrementa la rotación externa, puede generar pérdidas en la rotación interna. Por esto, se desarrolló el procedimiento de Hoffer, que transfiere ambos tendones hacia el manguito rotador y, además, asocia la reducción de la articulación GH en caso de subluxación (Phipps GJ et al., 1995; Edwards TB et al., 2000; Ozben H et al., 2011; Murabit A et al., 2013). La mejoría en la rotación externa del hombro es esencial ya que contribuye a la elevación del brazo, previniendo el impingement húmero-coracoacromial y estabilizando el hombro. La realización temprana de esta cirugía, entre los 2-4 años de edad o incluso antes, es

esencial ya que existe menor limitación de la movilidad (Gilbert A et al 1988; Terzis JK et al., 2008; Pagnotta A et al., 2004). Además, en niños <5 años se ha observado reintegración cortical, disminución de la progresión de la displasia e incluso remodelación de la articulación GH tras la cirugía (Waters PM et al., 1998).

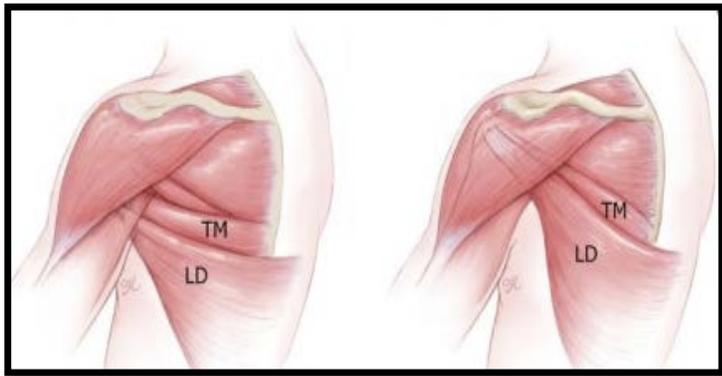


Figura 3. Procedimiento de Hoffer: transferencia del dorsal ancho (LD) y del redondo mayor (TM) al manguito rotador (Brogan D et al., 2019).

Si existe un déficit de rotación externa pasiva por la contractura articular, pueden realizarse liberaciones tendinosas y/o capsulares de forma precoz, como la tenotomía del subescapular o la liberación de la cápsula anterior y del músculo subescapular. Algunas alternativas son el alargamiento o la tenotomía del pectoral mayor, aunque suelen provocar deformidades en rotación externa y reducción de la rotación interna (van der Sluijs JA et al., 2001).

Para ganar abducción y mejorar la estabilidad del hombro puede realizarse una transferencia del trapecio (Saha AK et al., 1967; Vekris et al., 2019), aunque se recomienda en niños mayores que puedan cooperar con la rehabilitación. Por otro lado, muchos pacientes presentan una neuropatía compresiva del nervio axilar secundaria a la deformidad del hombro. Por esto, algunos autores realizan una

cirugía cuádruple (“Modified Quad Procedure”), donde se asocia la transferencia del dorsal ancho para la rotación externa y la abducción, la transferencia del redondo mayor para estabilizar la escápula, la liberación de las contracturas del subescapular, el pectoral mayor y el menor, así como una descompresión del nervio axilar (Nath R et al., 2007; Adelson PD., 2005). A diferencia del procedimiento de Hoffer, las transferencias tendinosas se insertan a nivel del redondo menor, para evitar presión en el nervio axilar y para mejorar la eficacia de los abductores debilitados a expensas de destensar los aductores contraídos y/o co-contracturados (Nath R et al., 2007; Sabapathy R et al., 2017). De esta forma, se mejora la abducción y la rotación externa activa del hombro y se produce un reequilibrio muscular, retrasando, aunque no revertiendo, la inestabilidad GH (Waters PM and Bae DS, 2006).

En niños de hasta 4 años de edad con deformidades severas y luxación GH posterior se recomienda la reducción abierta de la articulación para evitar la progresión e intentar un remodelado articular. Sin embargo, en niños mayores de 4 años es mejor optar por una osteotomía derotativa del húmero para incrementar la rotación externa, mejorar la posición del brazo, y conseguir llevar la mano a la boca y a la cabeza sin perder la habilidad de llevarla a los genitales, el abdomen o a la mano contralateral (Kirkos JM et al., 1998). Aunque mejora la congruencia articular GH (Waters PM and Bae DS, 2006), no trata la elevación ni la rotación de la escápula y, por esto, la recidiva de la contractura en rotación interna es frecuente.

Para tratar las contracturas en aducción asociadas a una elevación y rotación interna de una escápula hipoplásica (“Scapular Hipoplasia, Elevation and Rotation-

SHEAR”) (L’Episcopo JB et al., 1939; Terzis JK et al., 2003) existe el procedimiento de “Tilt triangle” (Nath R et al., 2007). Se trata de una osteotomía de la clavícula, del acromion y de la escápula para liberar el triangulo acromioclavicular de la espina escapular, mejorando la deformidad escapular, evitando el impingement contra la cabeza humeral y realineándose la articulación GH.

2.2.11.2.2.2. Procedimientos secundarios sobre el codo

Existen diferentes estrategias para mejorar la flexión de codo. La flexoplastia de Steindler (transposición de la musculatura flexopronadora epitrocLEAR a nivel proximal) es uno de los mas utilizados (Gilbert A et al., 2014; Al-Qattan MM et al., 2005; van Egmond C et al., 2001). Otra opción es la transferencias del pectoral mayor (Cambon-Binder A et al., 2018). También puede transferirse el tríceps al bíceps o incluso el dorsal ancho, utilizándose como injerto muscular pediculado (Azab AA et al., 2017). Si no existen músculos locales disponibles, puede hacerse una transferencia funcional libre del músculo gracilis (Doi K et al., 1999).

Para tratar contracturas severas (>60°) en flexión de codo también pueden indicarse cirugías secundarias. Se suele utilizar una Z-plastia en la piel de la fosa antecubital asociada a un alargamiento en Z del tendón bicipital. Además, también suele ser necesaria una liberación del lacertus fibrosus, el braquial (alargamiento fraccionado) y la cápsula anterior (Price AE et al., 1995). Sin embargo, la tasa de recurrencia es alta debido al disbalance muscular. Por esto, Chuang propuso la

transferencia del bíceps o del braquial al tríceps (Chuang DC et al, 2002).

2.2.11.2.2.3. Procedimientos sobre el antebrazo, muñeca y mano.

La deformidad en pronación es la mas frecuente a nivel del antebrazo y suele ser tolerable si la función del hombro se ha restablecido. Si persiste discapacidad, puede realizarse un “re-routing” del pronador redondo (Amrani A et al., 2009). Sin embargo, algunos pacientes presentan una deformidad en supinación que inicialmente puede ser corregible, pero pasado los 2 años puede generarse una contractura de la membrana interósea, así como una luxación radio-cubital distal. Para corregir las contracturas en supinación antes del desarrollo de estos cambios osteoarticulares, puede realizarse un “re-routing” del tendón bicipital (Zancolli EA et al, 1988) o una transferencia del Flexor Carpi Ulnaris (FCU) al braquiorradial (Zancolli EA et al, 1988). Y, en caso de no preservarse la pronación pasiva, puede realizarse una osteotomía pronadora del antebrazo.

A nivel de la muñeca, las deformidades mas frecuentes son la desviación cubital y la muñeca caída. Pueden tratarse mediante transferencias tendinosas o artrodesis de muñeca. La transferencia más utilizada para recuperar la extensión de la muñeca es la del pronador redondo al Extensor Capri Radialis Brevis (ECRB) (Duclos L et al., 1999), aunque también puede transferirse el Extensor Carpi Ulnaris (ECU) hacia el ECRB, o hacia el abductor largo del pulgar (APL). Sin embargo, si existe una muñeca caída y desviación cubital simultáneas, la mejor técnica es la

transferencia del FCU al ECRB. Por último, se ha descrito la transferencia funcional libre del braquial hacia los extensores del antebrazo (pronador redondo, ECRB o Extensor Carpi Radialis Longus (ECRL)), mejorando tanto la extensión activa como la pronación (Bertelli JA et al., 2006).

La recuperación de la mano en la PBO es compleja y su objetivo es colocar la mano en una posición útil. La deformidad en aducción del pulgar se puede restablecer mediante una transferencia del extensor propio del índice (EPI) o del ECRL al APL. La caída de las metacarpofalángicas se puede recuperar mediante la transferencia del Flexor Carpi Radialis (FCR) o FCU al extensor común de los dedos (2° a 5°). Y la mano en garra se puede mejorar mediante el avance distal del aparato extensor de los dedos o mediante la reconstrucción de los lumbricales. Para que las transferencias funcionen, primero debe fusionarse la muñeca para eliminar el efecto tenodesis. Asimismo, pueden realizarse artrolisis, capsulodesis y tenodesis (Haerle M et al., 2004) o incluso transferencias musculares libres de gracilis para restablecer extensión de muñeca y flexión de dedos (Bahm J et al., 2008; Zuker RM et al., 2007).

2.2.11.3. Tratamiento rehabilitador

Los objetivos de rehabilitación son prevenir las contracturas articulares, facilitar la movilidad activa y pasiva, estimular la fuerza muscular y estimular el sistema sensorial. Se recomienda que durante las dos primeras semanas el niño no empiece la rehabilitación para reducir el discomfort; pero los padres deben

posicionar la mano del niño cerca de su cara para que la experience, así como tocarle el brazo y jugar con los dedos para estimular la sensibilidad. A partir de entonces, se empieza la rehabilitación con los especialistas y los padres deben continuar los ejercicios en casa, sobretodo la rotación externa pasiva para evitar la retracción del subescapular.

Durante las etapas iniciales, cuando las contracturas aún son corregibles, deben tratarse con rehabilitación y/o ortesis. La rehabilitación debe incluir movimientos activos y pasivos así como estiramientos con relajación miofascial (Degliute R et al., 2004) para mejorar la rotación externa y la extensión del hombro, la extensión del codo y la muñeca, la supinación del antebrazo y la extensión de los dedos. Asimismo, es fundamental la movilización GH pasiva en todos los planos. También debe limitarse la movilidad escapulotorácica compensatoria, evitando las adaptaciones neuronales y los patrones de movimiento deficientes durante el crecimiento del niño. Para hacerlo, pueden utilizarse cintas estabilizadoras a tiempo completo (niños <3 años) o chalecos ortopédicos en niños mayores (particularmente para la corrección de contracturas GH superiores). Asimismo, la electroterapia con corrientes galvánicas puede favorecer la recuperación muscular y articular (Yilmaz V et al., 2018). Las ortesis seriadas de empleo nocturno pueden utilizarse para evitar la progresión de las contracturas en flexión de codo menores de 40°, pero no corrigen las contracturas ya establecidas. Si son mayores a 40° se recomiendan yesos seriados en extensión de codo; y si son mayores a 60°, cirugía al terminar el crecimiento.

La quimiodenervación con toxina botulínica (tipo A) ofrece resultados positivos y sin efectos adversos graves, incluso en niños menores de 2 años (Bourseul J et al., 2017; Teddrof K et al., 1992; Oleszek JL et al., 2005). Se inyecta la toxina en los músculos dominantes para reducir el desbalance muscular, intentar evitar la subluxación de la articulación y aumentar el balance articular pasivo. Algunas series reportan una mejoría de la rotación externa pasiva (DeMatteo C et al., 2006), evitando contracturas articulares graves y una reducción de la necesidad quirúrgica del 58.3% (Michaud LJ et al., 2014). Incluso, en algunos niños se ha observado una reversión de la luxación GH posterior (Ezaki M et al., 2010).

El tratamiento de las co-contracciones es controvertido. Algunos autores prefieren técnicas quirúrgicas como la transferencia del tendón tricipital hacia el bíceps o incluso transferencias nerviosas de los intercostales hacia el musculocutáneo para potenciar la flexión de codo (Semaya AE et al., 2019). Sin embargo, la tendencia actual es hacia la inyección repetida de toxina botulínica en el músculo antagonista. De esta forma se reduce significativamente el desbalance muscular y se mejora la funcionalidad de la extremidad (Rollnik JD et al., 2000).

3. Hipótesis de trabajo

3 Hipótesis de trabajo

- 1- La parálisis braquial obstétrica genera contracturas glenohumerales en todas las direcciones del espacio.

- 2- Las contracturas glenohumerales repercuten sobre la funcionalidad de la extremidad superior afectada.

- 3- La espina de la escápula es una referencia anatómica válida y reproducible para realizar mediciones objetivas del balance articular glenohumeral, independientemente del balance escapulotorácico.

4. Objetivos de la tesis



4 Objetivos de la tesis

- 1- Estudiar si las PBOs generan contracturas glenohumerales en todas las direcciones del espacio.
- 2- Desarrollar un nuevo método de medición del balance articular glenohumeral independientemente del escapulotorácico para detectar contracturas superiores, inferiores y posteriores en pacientes con PBO.
- 3- Realizar un estudio de variabilidad intra – interobservador para validar la reproducibilidad de esta nueva técnica de medición del balancer articular glenohumeral.
- 4- Describir la prevalencia y los valores absolutos de balance articular glenohumeral en las contracturas glenohumerales superiores, inferiores y posteriores en una gran cohorte de pacientes afectos de PBO.
- 5- Correlacionar el papel de las contracturas glenohumerals con la funcionalidad de la extremidad superior en niños con PBO.

5. Material y métodos



5 Material y métodos

El trabajo se realiza en dos fases independientes mediante dos estudios:

5.1 Estudio 1: Mediciones clínicas con un nuevo método de medición del balance articular glenohumeral para detectar contracturas superiores, inferiores y posteriores en pacientes con PBO. Estudio de variabilidad intra-interobservador.

5.1.1 Pacientes

El estudio se realizó con 25 pacientes diagnosticados de PBO que acudieron a las consultas externas del Dr Soldado durante el año 2017.

5.1.1.1 Criterios de inclusión

Como criterios de inclusión, los pacientes debían cumplir:

- Edad infantil (4- 17 años) y capacitado para realizar el test de Mallet.
- PBO unilateral.
- PBO: alta (C5-C6), alta extendida (C5-C7) o completa (C5-T1).
- Sin alteraciones funcionales / anatómicas en la extremidad contralateral.
- Intervenidos o no de la extremidad afectada mediante reconstrucción

primaria nerviosa.

5.1.1.2 Criterios de exclusión

Se excluyeron todos los pacientes con:

- PBO bilateral.
- Alteraciones funcionales de la extremidad contralateral a la de la PBO, debidas a otra enfermedad o secuela.
- Pacientes con antecedentes de fractura humeral, fractura de escápula o de antebrazo en alguna de las extremidades superiores.
- Pacientes intervenidos previamente mediante cirugía secundaria de PBO.
- Pacientes no capacitados o no colaboradores durante la exploración en el momento de aplicar el test de Mallet (habitualmente menores a 4 años).
- Pacientes que no acudían al control para realizar las segundas mediciones al mes de la primera medición.
- Pacientes que los padres rechazaron participar en el estudio y/o no signaron el consentimiento informado.

5.1.2 Diseño del estudio

Se trata de un estudio prospectivo observacional transversal realizado en 25 pacientes con diagnóstico de PBO. La selección de los pacientes fue consecutiva durante las visitas programadas de seguimiento de PBO en las consultas externas.

Tres cirujanos ortopédicos midieron el BA de la articulación GH dos veces seguidas el mismo día, tanto en la extremidad lesionada como en la sana (grupo control). Al cabo de un mes de la primera medición, los mismos evaluadores realizaron una segunda tanda de mediciones realizadas de la misma forma. A todos los pacientes se les realizaron 4 mediciones de la movilidad GH en diversas direcciones. Para cada medición, se requirieron dos examinadores. El primero de ellos se encargaba de situar la extremidad superior en su máximo rango de movimiento pasivo, mientras que el segundo realizaba la medición mediante un goniómetro. Al final de cada examinación, los valores fueron anotados por una tercera persona ajena al estudio en una base de datos, sin tener acceso a los resultados del resto de investigadores.

A	B	C	D	E	F	G	H	I	J	K	L
Fecha eval	NHC	Fecha Nac	Edad	Lado	Evaluador	Nº eval	SHABD (P)	SH ABD (A)	peADD	IRABD	Cross Body
20/4/17	1131128	24/2/07	10	Afectado	A	1	30	-10	5	40	20
					A	2	25	-10	-5	40	35
					B	1	20	-20	0	40	40
					B	2	20	-20	-5	40	30
					C	1	10	-20	-10	40	50
					C	2	20	-10	-10	35	40
20/4/17	1131128	24/2/07	10	Sano	A	1	30	-10	5	40	20
					A	2	25	-10	-5	40	35
					B	1	20	-20	0	40	40
					B	2	20	-20	-5	40	30
					C	1	10	-20	-10	40	50
					C	2	20	-10	-10	35	40
25/5/17	1131128	24/2/07	10	Afectado	A	1	30	-10	5	40	20
					A	2	25	-10	-5	40	35
					B	1	20	-20	0	40	40
					B	2	20	-20	-5	40	30
					C	1	10	-20	-10	40	50
					C	2	20	-10	-10	35	40
25/5/17	1131128	24/2/07	10	Sano	A	1	30	-10	5	40	20
					A	2	25	-10	-5	40	35
					B	1	20	-20	0	40	40
					B	2	20	-20	-5	40	30
					C	1	10	-20	-10	40	50
					C	2	20	-10	-10	35	40

Figura 4. Muestra de la base de datos con los resultados de BA activo y pasivo GH.

Se consideró la presencia de una contractura GH cuando existía una diferencia igual o mayor a 10° entre la medición de la extremidad afectada y la sana en alguno de los cuatro ángulos siguientes:

1- Ángulo glenohumeral en abducción pasivo (pGHABD):

Es el ángulo formado entre el eje de la espina de la escápula y el húmero cuando el brazo es llevado pasivamente a la posición de máxima abducción, con el codo a 90° de flexión y el hombro en rotación externa. El brazo lateral del goniómetro se alinea sobre el eje longitudinal del húmero, utilizando el acromion y el epicóndilo lateral como referencias anatómicas; asimismo, el brazo medial del goniómetro se alinea con el eje longitudinal de la espina de la escápula, referenciado con el dedo índice del primer examinador.

Se considera un valor de 0° cuando el húmero está alineado con la espina

escapular. Si el ángulo es superior a 0° , se considera un valor positivo; si el ángulo es inferior a 0° , se considera un valor negativo.

Así pues, una disminución de este ángulo indica la presencia de una contractura GH inferior (o en aducción).



Figura 5. Medición de la abducción GH pasiva mediante el ángulo pGHABD.

2- Ángulo glenohumeral en aducción pasivo (pGHADD):

Es el ángulo formado entre el eje de la espina escapular y el húmero, cuando el brazo es llevado pasivamente en aducción máxima. Para evitar el choque de la extremidad superior con el tórax durante la maniobra, debe realizarse extensión GH. En este caso, el codo se mantiene en extensión máxima. El brazo lateral del goniómetro se alinea con el eje posterior del húmero, utilizando el acromion y el olecranon como referencias; el brazo medial del goniómetro se alinea con el eje de

la espina escapular, referenciada con el índice del primer examinador.

Se considera valor de 0° cuando el ángulo entre el húmero y la escápula es de 90° .

Cuando el ángulo es medial al valor de 0° se considera un valor positivo; si el ángulo es más lateral al valor 0° , se considera un valor negativo. Así pues, un incremento de este ángulo indica una contractura GH en abducción (o superior).



Figura 6. Medición de la aducción GH pasiva mediante el ángulo pGHADD.

3- Ángulo cross-body en aducción pasivo (pCBADD):

Se trata del ángulo ya propuesto anteriormente por Russo (Russo S et al., 2014), que forman el eje de la espina escapular con el húmero cuando el brazo es llevado a 90° de abducción y aducción horizontal máxima en el eje transversal. El brazo anterior del goniómetro se alinea sobre el eje longitudinal lateral del húmero, utilizando como referencia el acromion y el epicóndilo lateral; mientras que el brazo

posterior del goniómetro se alinea con el eje longitudinal de la espina, utilizando las prominencias medial y lateral como referencias. Se considera valor 0° cuando el húmero y la espina están alineados. Si el ángulo obtenido es ventral a 0° , se considera un valor positivo; si el ángulo se encuentra dorsal al valor 0° , se considera un valor negativo. Una disminución del ángulo pCBADD indica una contractura GH posterior.

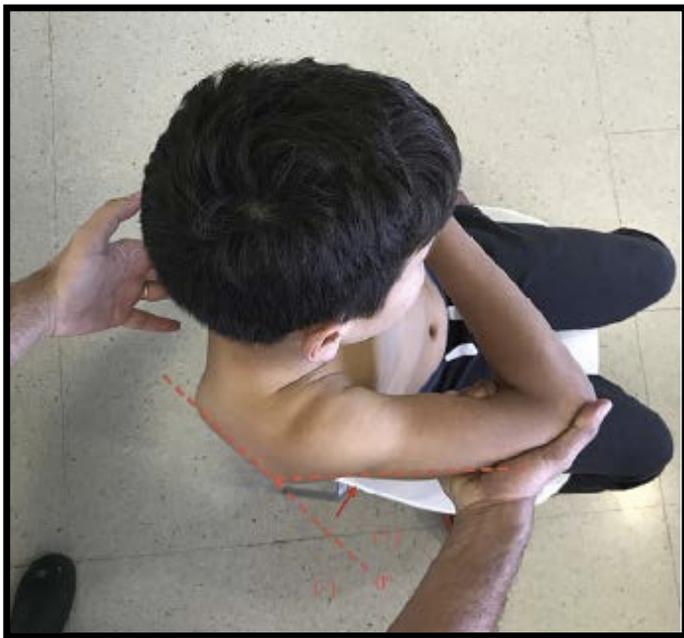


Figura 7. Medición del ángulo pasivo cross-body (pCBADD).

4- Ángulo en rotación interna y abducción pasivo (pIRABD)

Se trata del ángulo entre el eje del antebrazo y el plano horizontal cuando ponemos el hombro a 90° de abducción, el codo a 90° de flexión y aplicamos rotación interna máxima de forma pasiva mientras mantenemos la escápula estabilizada contra el tórax. Un brazo del goniómetro se alinea paralelo al suelo,

mientras que el otro se alinea con el eje longitudinal del antebrazo, utilizando la punta del olecranon y la cabeza del cúbito como referencias anatómicas. Se define el valor 0° cuando el antebrazo se encuentra paralelo al suelo. Si el ángulo obtenido se encuentra más craneal a 0°, se considera un valor negativo; si el ángulo está más caudal se considera un valor positivo. Una disminución de este ángulo también traducirá, al igual que el cross body-aducción, una contractura GH posterior.

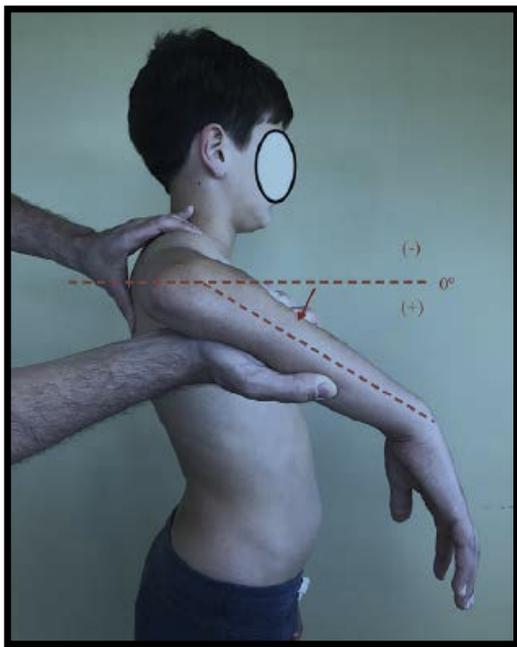


Figura 8. Medición del ángulo en rotación interna y abducción pasivo (pIRABD).

Por último, se calculó la funcionalidad de la extremidad afectada de cada uno de los pacientes mediante la aplicación de la escala modificada de Mallet.

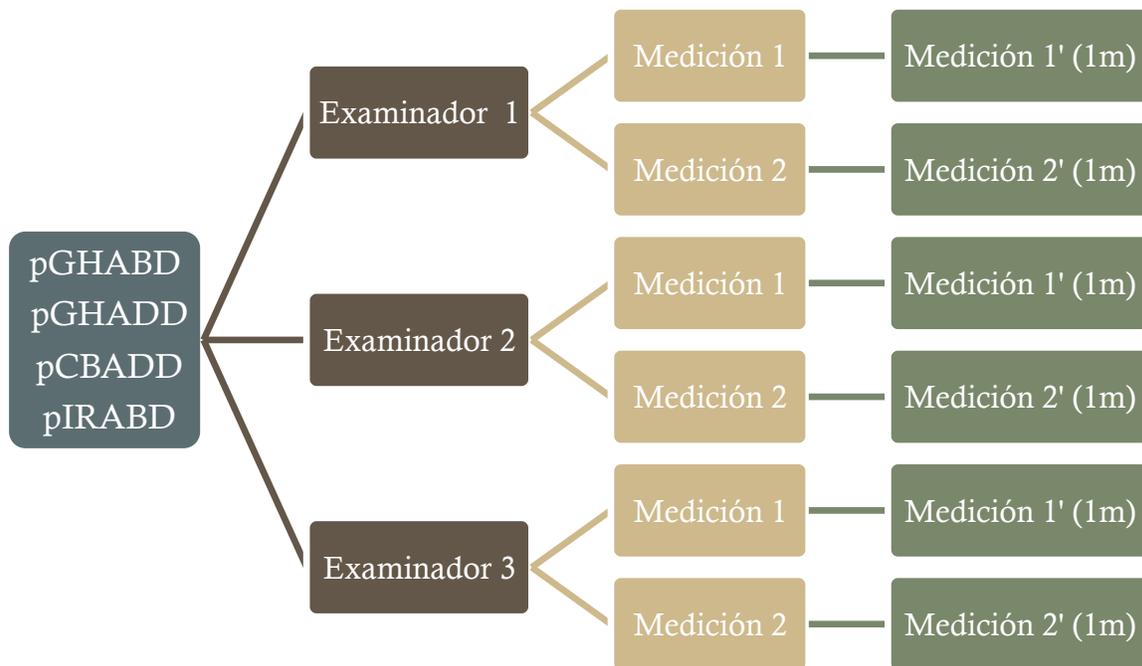


Figura 9. Esquema de las mediciones. Se registra la medición de cuatro ángulos GH (pGHABD, pGHADD, pCBADD, pIRABD) por tres examinadores diferentes. Cada examinador realiza dos mediciones seguidas (Medición 1 y 2). Al cabo de un mes, los mismos examinadores vuelven a realizar una doble medición de los mismos ángulos (Medición 1' y 2').

5.2 Estudio 2: Descripción de la prevalencia de contracturas glenohumerales superiores, inferiores y posteriores en pacientes afectos de PBO. Correlación con funcionalidad de la extremidad.

5.2.1 Pacientes

El estudio se realizó con 205 pacientes diagnosticados de PBO que acudieron a las consultas externas de PBO del Dr Soldado durante el periodo 2017-2018.

5.2.1.1 Criterios de inclusión

Los pacientes debían cumplir:

- Edad infantil (4- 17 años) y capacitado para realizar el test de Mallet.
- PBO unilateral.
- PBO de tipo: alta (C5-C6) , alta extendida (C5-C7) o completa (C5-T1).
- Intervenidos o no de la extremidad afectada mediante reparación primaria y/o transferencia nerviosa del plexo braquial y/o procedimientos secundarios (transferencia musculotendinosa – procedimiento de Hoffer / transferencia del trapecio-, liberación capsular del hombro, inyección de toxina botulínica más yeso o osteotomía de glena y/o húmero).

5.2.1.2 Criterios de exclusión

Se excluyeron los pacientes con:

- PBO bilateral.
- Pacientes con antecedentes de fractura humeral, fractura de escápula o de antebrazo en alguna de las extremidades superiores.
- Pacientes con alteraciones funcionales de la extremidad contralateral a la de la PBO debidas a otra enfermedad o secuela.
- Pacientes no capacitados o no colaboradores durante la exploración en

el momento de aplicar el test de Mallet (habitualmente menores a 4 años).

- Pacientes que los padres rechazaron participar en el estudio y/o no signaron el consentimiento informado.

5.2.2 Diseño del estudio

Se trata de un análisis retrospectivo de datos obtenidos de forma prospectiva en 205 pacientes con diagnóstico de PBO, seleccionados de forma consecutiva durante las visitas de control en la consulta externa.

Las variables recolectadas fueron demográficas (nº historia clínica, filiación, edad y sexo), el nivel de la parálisis, la lateralidad y la historia de cirugías previas por la PBO. En función del tipo de cirugía previa los pacientes se clasificaron en cuatro categorías: microcirugía, procedimiento sobre el hombro, microcirugía asociada a procedimiento sobre el hombro y tratamiento conservador sin ninguna intervención quirúrgica.

Para analizar la funcionalidad de la extremidad se utilizó la escala modificada de Mallet (Kozin SH et al., 2011; Abzug JM et al., 2010; Mallet J et al., 1972). Asimismo, se analizó bilateralmente la abducción global activa del hombro (aGSABD). Esta se calcula con el ángulo formado entre el eje de la línea media

(apófisis espinosas raquídeas) y el eje del húmero cuando el paciente está en posición de abducción activa máxima.

Para determinar el balance articular GH y el tipo de contractura articular, se utilizó el nuevo método de medición GH, una vez validada su reproducibilidad en el estudio 1, realizándose siempre mediciones bilaterales. Se determinó la abducción pasiva GH mediante el ángulo GH pasivo en abducción (pGHABD) para diagnosticar las contracturas inferiores (o en aducción); la aducción GH pasiva mediante el ángulo GH pasivo en aducción (pGHADD) para las contracturas superiores (o en abducción); y, finalmente, la rotación interna GH pasiva mediante el ángulo en rotación interna y abducción pasiva (pIRABD), así como el ángulo de cross-body pasivo en aducción (pCBADD) para las contracturas posteriores.

Además, se añadió una nueva medición activa para las contracturas GH inferiores, la abducción GH activa (aGHABD). Esta se determinó con el ángulo GH en abducción (GHABD), pidiendo al paciente que realizara activamente la máxima abducción del hombro. El valor 0° se consideró cuando el eje del húmero se alineaba con el eje de la espina. Los valores por encima de 0° se consideraron positivos; y los que estaban por debajo de 0° , negativos.

El desfase de abducción GH (o abduction lag) se calculó con la diferencia entre el ángulo GH en abducción activo (aGHABD) y el pasivo (pGHABD) de la extremidad ipsilateral.

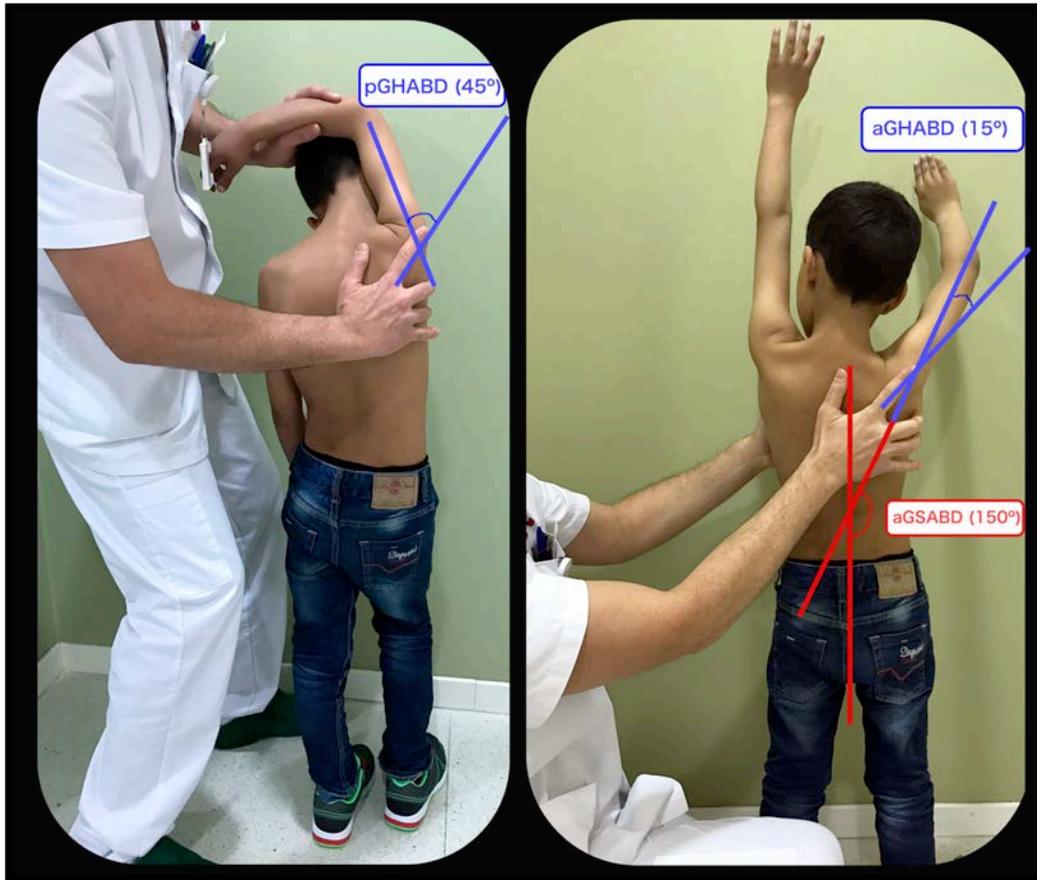


Figura 10. Izquierda. Medición del ángulo pasivo GH en abducción (pGHABD). Derecha: En azul, la medición del ángulo activo GH en abducción (aGHABD); en rojo, el ángulo de abducción activa global (aGSABD). La diferencia entre el pGHABD i el aGHABD determina el abduction lag.

Se definió contractura articular clínicamente significativa cuando la diferencia entre el ángulo GH pasivo (pGHABD, pGHADD, pIRABD, y pCBADD) del hombro sano y el del hombro afectado era igual o mayor a 10°. Asimismo, se definió un abduction lag clínicamente significativo cuando la diferencia entre la abducción GH activa y la pasiva era igual o mayor a 10°.

Los datos se recopilan en una base de datos Microsoft Excel especialmente diseñada para el estudio y para poder realizarse el análisis estadístico correspondiente.

J		K		L		M		N		O		P		Q		R		S	
pIRABD		CBADD				pGHADD				GHABD pasivo (activo)									
Afectado Sano		Afectado Sano		Afectado Sano		Afectado Sano		Afectado pasivo		Afectado activo		Sano pasivo		Sano activo					
60	60	30	45	-30	20	40	30	40	20										
0	45	45	80	20	20	0	-45	40	35										
20	60	20	40	-20	10	30	20	30	20										
0	30	10	60	-10	20	0	-30	30	30										
0	45	30	80	-30	20	50	40	50	50										
0	60	0	5	-20	20	-10	-30	40	30										
0	60	45	70	0	10	30	-15	45	45										
45	60	10	60	-10	10	0	-20	40	30										
45	45	30	60	-30	10	10	0	40	40										
0	45	45	60	-10	20	20	-30	40	40										
30	45	30	45	0	10	30	30	40	40										
20	45	30	90	0	20	20	-20	40	40										
80	60	45	80	0	30	30	30	45	45										
45	60	30	60	0	20	30	30	45	45										

Figura 11. Muestra de la base de datos con los valores de pIRABD, pCBADD, pGHADD y GHABD activo y pasivo.

5.3 Material de medición

5.3.1 Goniómetro

Todas las mediciones se realizaron utilizando un mismo goniómetro universal mediante la metodología y los puntos de referencia recomendados por Gerdhart (Gerdhart JJ et al., 2011). Cada brazo del goniómetro se situó sobre la extremidad siguiendo el eje longitudinal marcado por los puntos de referencia que se han mencionado anteriormente.

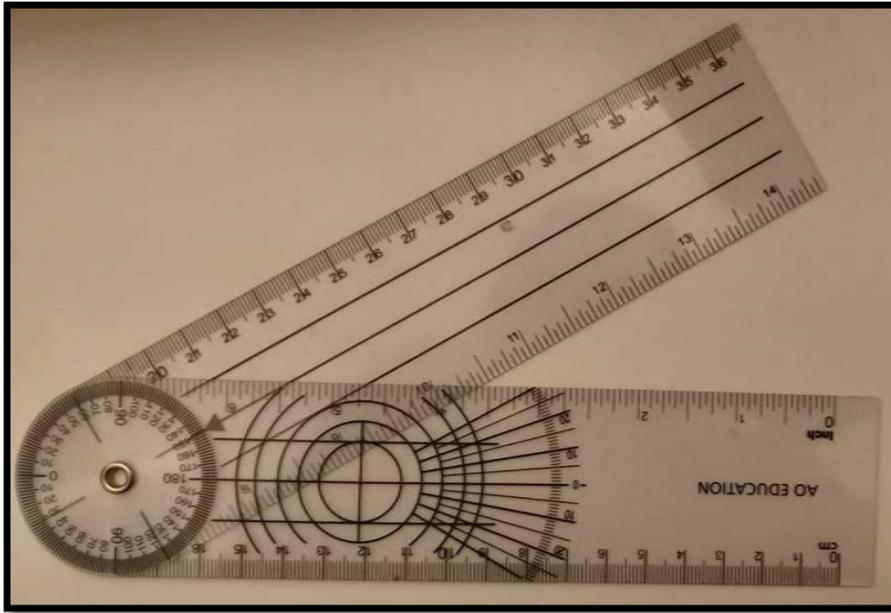


Figura 12. Goniómetro universal utilizado para las mediciones del balance articular GH.

5.3.2 Escala de Mallet

La escala de Mallet modificada es una clasificación ampliamente utilizada para la evaluación de la funcionalidad de la extremidad superior en pacientes con PBO (Mallet J et al., 1972). Incluye las 5 categorías de abducción global, rotación externa, mano-cuello, mano-espalda y mano-boca. Cada categoría tiene una gradación de 1 a 5 puntos, con el grado I significando no función y el grado 5 función normal. Los grados II, III y IV difieren para cada categoría:

- Abducción global: grado II, abducción $< 30^\circ$; III, entre 30 y 90° ; IV, $> 90^\circ$.
- Rotación externa: grado II, rotación externa 0° ; III, entre 0 y 20° ; IV, $> 20^\circ$.
- Mano-cuello: grado II, mano-cuello no posible; III, difícil; IV, fácil.
- Mano-espalda: grado II, mano-espalda no posible; III, hasta vertebra S1 (difícil); IV, hasta T12 (fácil).

- Mano-boca: grado II, signo del trompetista marcado (abducción exagerada del hombro con flexión de codo para compensar el déficit de rotación externa); III, signo del trompetista leve (difícil); IV, realiza abducción $< 40^\circ$ (fácil).

Kozin y Abzug añadieron una sexta categoría, la rotación interna (Abzug JM et al., 2010). El grado I corresponde a no función; el II a imposibilidad para tocarse la barriga; el III llegar a tocarse la barriga pero realizando flexión de muñeca; el IV llegar perfectamente a la barriga sin flexión de muñeca; y el V, funcionalidad normal.

Así pues, cada categoría, por separado, ya tiene un valor funcional objetivo para cada movimiento del hombro.

El sumatorio total de Mallet se calcula sumando los valores de la abducción, rotación externa, mano-cuello, mano-espalda y mano-boca, dando cómo máximo un valor de 25 puntos (utilizando la escala modificada normal) o de 30 puntos (si añadimos la categoría de rotación interna).

Cabe destacar que algunos pacientes no son valorables con esta clasificación ya que requiere la cooperación del niño para poderse ejecutar, así que no suele recomendarse en niños pequeños menores a cuatro años.

Modified Mallet Classification (Grade I = No Function, Grade V = Normal Function)						
	Not Testable	Grade I	Grade II	Grade III	Grade IV	Grade V
Global Abduction	Not Testable	No function	 <30°	 30° to 90°	 >90°	Normal
Global External Rotation	Not Testable	No function	 <0°	 0° to 20°	 >20°	Normal
Hand to neck	Not Testable	No function	 Not possible	 Difficult	 Easy	Normal
Hand to spine	Not Testable	No function	 Not possible	 S1	 T12	Normal
Hand to mouth	Not Testable	No function	 Marked trumpet sign	 Partial trumpet sign	 <40° of abduction	Normal
Internal rotation	Not Testable	No function	 Cannot touch	 Can touch with wrist flexion	 Palm on belly No wrist flexion	Normal

Figura 13. Escala modificada de Mallet con la sexta categoría en rotación interna. Cada posición puede obtener una puntuación del 1 al 5.

5.4 Análisis estadístico

5.4.1 Estudio 1

El análisis estadístico se realizó mediante el software SPSS (versión 21.0; IBM, Armonk, NY, USA), adoptando un nivel de significación clínica del 5%.

5.4.1.1 Tamaño muestral

Lo primero que se realizó en el estudio I fue calcular el tamaño muestral para poder detectar una variabilidad mínima del 10% entre los evaluadores. Se aceptó un nivel de significación del 5% (error tipo 1) y un poder estadístico del 95%.

El modelo estadístico determinó que una muestra de 23 pacientes sería suficiente para detectar diferencias. Por dicho motivo, se utilizó una n final de 25 pacientes.

5.4.1.2 Estudio descriptivo

Se describieron los datos demográficos (edad, género), el nivel lesional, el tipo de contractura y el porcentaje de pacientes que habían requerido tratamiento quirúrgico previo de reparación / transferencia nerviosa primaria. Se analizó el sumatorio de Mallet para cada paciente así como los valores absolutos de los ángulos pGHABD, pGHADD, pCBADD y pIRABD. Para expresar los resultados, se utilizaron la media y el rango como medidas de tendencia central.

Por último, se calculó el porcentaje de contracturas en abducción (superiores), en aducción (inferiores) y en rotación externa (posteriores). La presencia de una contractura se definió por la diferencia igual o mayor a 10° del ángulo respectivo entre la extremidad afectada y la sana.

5.4.1.3 Evaluación comparativa. Evaluación intraobservador e interobservador.

Para realizar el estudio comparativo de los ángulos pGHABD, pGHADD, pCBADD y pIRABD entre el lado lesionado y el lado sano se utilizó el test de T-Student para datos apareados, considerando una significación estadística $p < 0.05$.

Para el análisis de la concordancia intraobservador e interobservador de las mediciones, se utilizó el coeficiente de correlación intraclass para variables cuantitativas. Basándose en estudios previos (Egloff D et al., 1995; Putti V et al., 1932), se estableció que un coeficiente de correlación por debajo de 0.4 representaba poca fiabilidad, valores entre 0.4 y 0.75 representaban una fiabilidad regular y buena, mientras que los valores por encima de 0.75 representaban una fiabilidad excelente. Las comparaciones entre examinadores se basaron en intervalos de confianza del 95%.

5.4.2 Estudio 2

El análisis estadístico de los datos se realizó mediante el software Stata (versión 16.1; StataCorp, Texas, USA), adoptando un nivel de significación clínica del 5%.

5.4.2.1 Estudio descriptivo

Se trata de un estudio descriptivo sobre una población de 205 pacientes. Se

describieron los datos demográficos (edad, género), la lateralidad de la lesión, el nivel de afectación de la parálisis, el tipo y la frecuencia de cirugías previas según cuatro grupos (1-reconstrucción nerviosa primaria / transferencia nerviosa; 2-procedimiento sobre el hombro; 3- Combinación de opción 1 y 2; 4- ningún tratamiento quirúrgico).

Asimismo se determinaron los valores absolutos de cada uno de los ángulos medidos (aGSABD, pGHABD, aGHABD, pGHADD, pCBADD, pIRABD) en el lado afecto y el sano, así como la prevalencia de cada tipo de contractura. Se calculó el valor absoluto y el porcentaje de abduction lag entre abducción activa y pasiva. Para expresar los resultados, se utilizaron la media y la desviación estándar como medidas de tendencia central.

5.4.2.2 Estudio comparativo

Se comparó el sumatorio de la escala de Mallet modificada entre la extremidad lesionada y la sana. Asimismo, se desglosó el sumatorio de Mallet según el nivel afectado (C5-C6; C5-C7; C5-T1) y se compararon los resultados de cada subgrupo en la extremidad lesionada y la sana.

Asimismo, se realizaron estudios comparativos, bilateralmente, basándose en la limitación de la abducción (contracturas inferiores), de la aducción (contracturas superiores) y de la rotación interna (contracturas posteriores):

- **Estudio de la abducción GH. Contracturas inferiores (o en aducción):**

Se comparó la categoría abducción de la escala de Mallet modificada entre el lado afectado y el sano. Asimismo, se desglosó la abducción de Mallet según el nivel afectado (C5-C6; C5-C7; C5-T1) y se compararon los resultados de cada subgrupo en la extremidad lesionada y la sana.

Se comparó la abducción global activa del hombro (aGSABD) entre el lado afectado y el sano. Asimismo, se desglosó la aGSABD según el nivel afectado (C5-C6; C5-C7; C5-T1) y se compararon los resultados de cada subgrupo en la extremidad lesionada y la sana.

Se compararon los valores de la abducción GH pasiva (pGHABD) entre el lado afecto y el sano. También los valores de la abducción GH activa (aGHABD) entre el lado afecto y el sano. Asimismo, se determinó el abduction lag entre el lado afecto y el sano. Se comparó la pGHABD y la aGHABD del lado afecto según el nivel (C5-C6; C5-C7; C5-T1). Asimismo, se comparó el abduction lag según el nivel. También se comparó el porcentaje de contracturas inferiores y también el porcentaje de abduction lag significativo ($>10^\circ$) según el nivel afectado (C5-C6; C5-C7; C5-T1).

Se compararon los parámetros de abducción y funcionalidad (sumatorio de Mallet, aGSABD, abducción de Mallet, pGHABD, aGHABD, abduction lag y el porcentaje de contracturas en aducción) según el tratamiento previamente recibido.

Es decir, entre microcirugía reconstructiva y no tratamiento quirúrgico; entre procedimiento sobre el hombro y no tratamiento quirúrgico ; y entre microcirugía reconstructiva asociada a procedimiento sobre el hombro y no tratamiento quirúrgico.

Se compararon todos los parámetros de abducción activa del hombro (abducción de Mallet, aGSABD y aGHABD) con la abducción GH pasiva (pGHABD) y también con el % de contracturas en aducción.

Por último, se compararon las variables edad y también el sexo con todas las variables estudiadas de la abducción.

Para realizar todas estas comparaciones se utilizaron métodos de estadística inferencial. Los resultados se expresaron mediante la media y la desviación estándar. Las variables continuas se analizaron mediante el test de la T-student. Las variables categóricas frecuencias se compararon mediante el test de chi-cuadrado de Pearson o el test exacto de Fisher. El coeficiente de correlación de Pearson se calculó para determinar la asociación entre los ángulos de abducción activa y la edad de los pacientes; asimismo se utilizó para la asociación entre los ángulos de abducción GH activa y pasiva (pGHABD, aGHABD). Para realizar la comparativa entre pGHADD, y los niveles lesionales, se realizó un modelo de regresión lineal. Para correlacionar el sexo con el resto de variables se utilizó el odds ratio. También se utilizó el coeficiente de determinación (R^2) para comparar pGHADD con los valores de la escala de Mallet. Cualquier p-valor <0.05 se consideró significativo.

- **Estudio de la aducción GH. Contracturas superiores (o en abducción):**

Se compararon los valores de pGHADD entre el lado afecto y el sano. Asimismo, se comparó la pGHADD del lado afecto según el nivel de afectación (C5-C6; C5-C7; C5-T1). Y el porcentaje de contracturas superiores (en abducción) según el nivel afectado.

También se comparó el sumatorio de la escala de Mallet modificada entre la extremidad lesionada y la sana. Se comparó el sumatorio de Mallet del lado afectado según el nivel de afectación (C5-C6; C5-C7; C5-T1).

Asimismo, se comparó el sumatorio de Mallet, la pGHADD, y el porcentaje de contracturas en abducción según el tratamiento previamente recibido. Es decir, entre microcirugía reconstructiva y no tratamiento quirúrgico; entre procedimiento sobre el hombro y no tratamiento quirúrgico; y entre microcirugía reconstructiva asociada a procedimiento sobre el hombro y no tratamiento quirúrgico.

Además, se compararon las variables edad y también el sexo con todas las variables estudiadas de la aducción (pGHADD, porcentaje de contracturas superiores y sumatorio de Mallet).

Por último, se comparó la pGHADD con el sumatorio de Mallet y con cada categoría de Mallet por separado.

Para realizar todas estas comparaciones se utilizaron métodos de estadística

inferencial. Para comparar las frecuencias de variables categóricas se utilizó el test de chi-cuadrado de Pearson. Para realizar comparaciones con variables continuas dependientes (pGHADD y sumatorio de Mallet) se utilizaron modelos de regresión lineales. Para correlacionar el género con todas las variables se utilizó el odds ratio. Para comparar pGHADD con los valores de la escala modificada de Mallet se utilizó el coeficiente de determinación (R^2). Los resultados se expresaron mediante la media y la desviación estándar. Todos los p-valores < 0.05 se consideraron significativos.

- Estudio de la rotación interna GH. Contracturas posteriores (o en rotación externa):

Se compararon los valores de pIRABD y de pCBADD entre el lado afecto y el sano. Asimismo, se comparó la pIRABD y el pCBADD del lado afecto según el nivel de afectación (C5-C6; C5-C7; C5-T1). Y el porcentaje de contracturas posteriores (en rotación externa) según el nivel afectado.

También se comparó el sumatorio de la escala de Mallet modificada entre la extremidad lesionada y la sana. Se comparó el sumatorio de Mallet del lado afectado según el nivel de afectación (C5-C6; C5-C7; C5-T1).

Asimismo, se comparó el sumatorio de Mallet, la pIRABD y el pCBADD, y el porcentaje de contracturas posteriores según el tratamiento previamente recibido. Es decir, entre microcirugía reconstructiva y no tratamiento quirúrgico; entre

procedimiento sobre el hombro y no tratamiento quirúrgico; y entre microcirugía reconstructiva asociada a procedimiento sobre el hombro y no tratamiento quirúrgico.

Además, se compararon las variables edad y también el sexo con todas las variables estudiadas de la aducción (pIRABD y pCBADD, porcentaje de contracturas posteriores y sumatorio de Mallet).

Por último, se comparó la pIRABD y el pCBADD con el sumatorio de Mallet y con cada categoría de Mallet por separado.

Para realizar todas estas comparaciones se utilizaron métodos de estadística inferencial. Para comparar las frecuencias de variables categóricas se utilizó el test de chi-cuadrado de Pearson. Para realizar comparaciones con variables continuas dependientes (pIRABD, pCBADD y sumatorio de Mallet) se utilizaron modelos de regresión lineales. Para correlacionar el género con todas las variables se utilizó el odds ratio. Para comparar la pIRABD y el pCBADD con los valores de la escala modificada de Mallet se utilizó el coeficiente de determinación (R^2). Los resultados se expresaron mediante la media y la desviación estándar. Todos los p-valores < 0.05 se consideraron significativos.

6. Resultados



6 Resultados

6.1 Estudio I

El estudio se realizó en 25 pacientes con una edad media de 9.5 años (rango 5-17). El género predominante fue el femenino, con 10 niños (40%) frente a 15 niñas (60%). En la mayoría de los casos (60%) se trataba de PBOs altas (C5-C6).

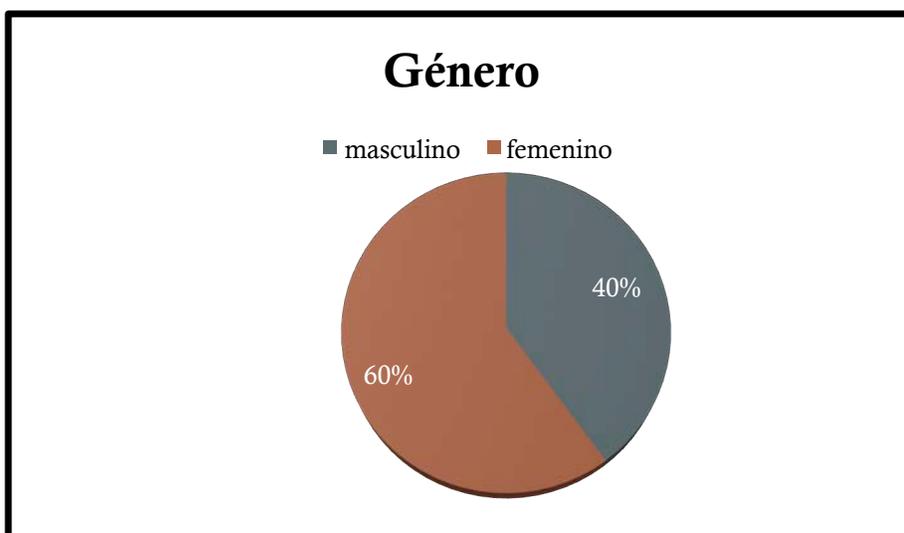


Figura 14. La distribución por sexos de los pacientes con PBO.

Solamente el 36% de los pacientes (9 pacientes) había recibido un tratamiento quirúrgico previo mediante cirugía primaria de reconstrucción nerviosa a la edad de 3-6 meses. Ningún paciente había sido tratado con cirugías secundarias ni con ningún tipo de osteotomía, ya que fueron criterios de exclusión durante la selección de pacientes.

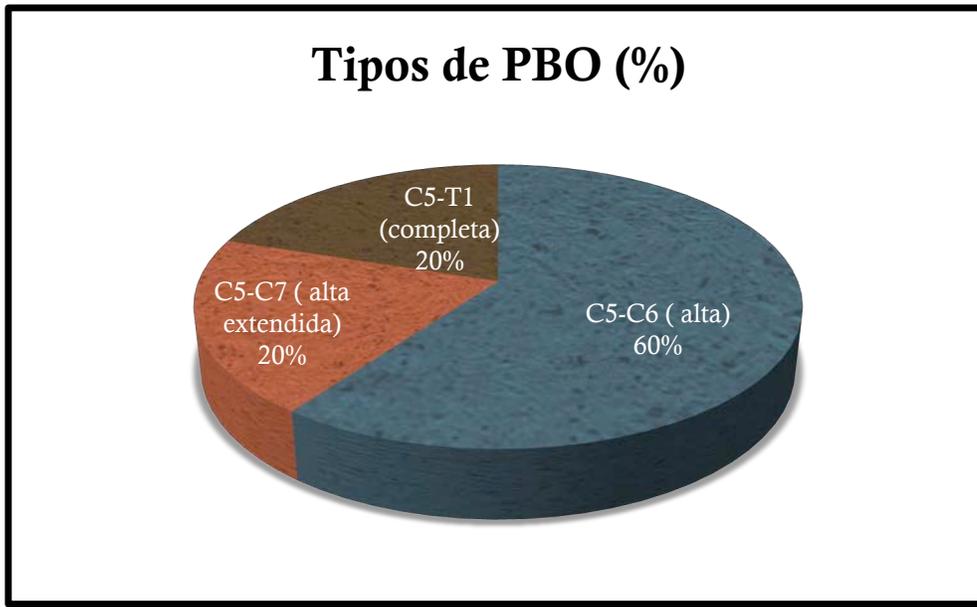


Figura 15. Porcentaje de pacientes con PBO según el nivel lesional.

La puntuación media del sumatorio de la escala de Mallet modificada para la extremidad afectada fue de 19.4 puntos (rango: 15-24 puntos).

Los datos comparativos de las mediciones de la movilidad pasiva GH entre la extremidad sana y la afectado fueron, respectivamente, los siguientes:

- pGHABD: 42° (rango 30° a 60°) y 18 (rango -35° a 45°).
- pGHADD: 14° (rango 0° a 20°) y -1° (rango -30° a 20°).
- pCBADD: 71° (rango 50° a 80°) y 41° (rango 20° a 80°).
- pIRABD: 54° (rango 40° a 75°) y 37° (rango 10° a 60°).

MEDICIÓN	LADO AFECTADO (°)	LADO SANO(°)	T-STUDENT
pGHABD	18 (-35 a 45)	42 (30 a 60)	p <0.001
pGHADD	-1 (-30 a 20)	14 (0 a 20)	p = 0.025
pCBADD	41 (20-80)	71 (50 a 80)	p = 0.286
pIRABD	37 (10-60)	54 (40 a 75)	p <0.001

Figura 16. Tabla del BA pasivo GH. Comparativa entre la extremidad afectada y la sana.

Así pues, se encontraron diferencias estadísticamente significativas entre la extremidad afectada y la sana durante la medición de la abducción GH pasiva (pGHABD), la aducción GH pasiva (pGHADD) y de la rotación interna pasiva en abducción del hombro (pIRABD). Sin embargo, no pudieron encontrarse diferencias significativas al realizarlo con el cross body en aducción pasivo (pCBADD).

Respecto al diagnóstico de contracturas GH y considerando los 10° de diferencia entre la extremidad afectada y la sana cómo punto de corte, el 72% de los pacientes (18 pacientes) presentaron un contractura GH inferior; asimismo, el 64% (16 pacientes) presentaron una contractura GH superior; y, el 88% (22 pacientes) una contractura posterior. Así pues, todas las contracturas fueron muy frecuentes, con predominio de las posteriores y las inferiores.

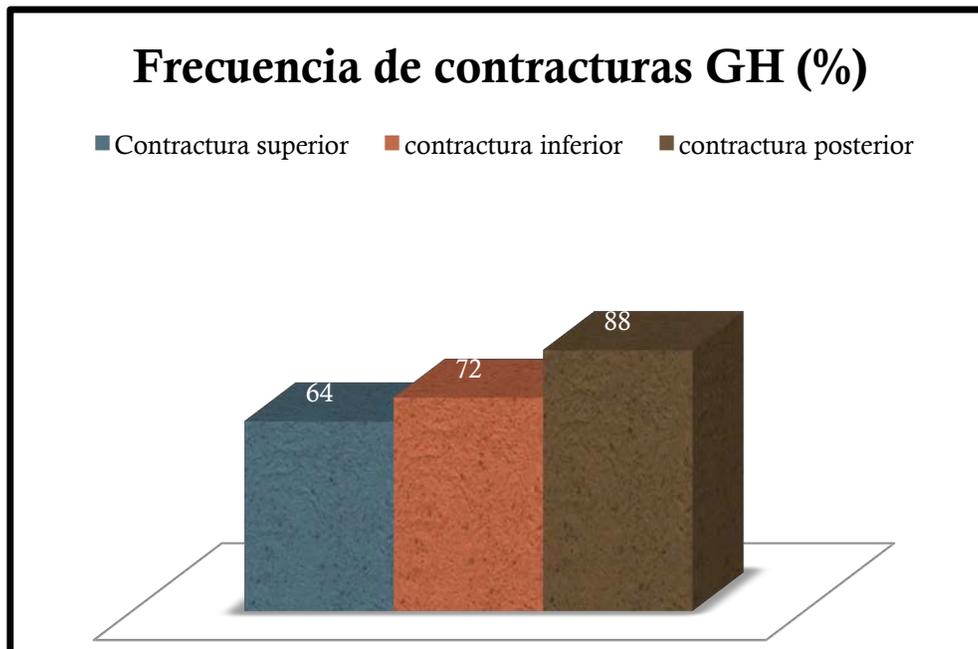


Figura 17. Porcentaje de contracturas GH en los pacientes con PBO.

Fiabilidad interobservador de la técnica de medición del balance articular GH:

La fiabilidad interobservador se valoró utilizando el coeficiente de correlación intraclass (ICC), considerándose excelente si es > 0.75 y poco fiable si < 0.4 . Como se puede observar en la tabla siguiente, la fiabilidad fue excelente en prácticamente todas las categorías. Es decir, distintos exploradores obtuvieron resultados muy similares en la mayoría de mediciones. Igualmente, la variabilidad interobservador global fue excelente, obteniendo un valor del ICC de 0.91 (0.90- 0.93, intervalo de confianza del 95%).

MEDICIÓN	ICC	IC: 95%	FIABILIDAD
GLOBAL	0.91	0.90-0.93	Excelente
LADO AFECTADO	0.90	0.87-0.92	Excelente
LADO SANO	0.89	0.86-0.92	Excelente
pGHABD	0.91	0.87-0.94	Excelente
pGHADD	0.63	0.51-0.74	Buena
pCBADD	0.86	0.80-0.91	Excelente
pIRABD	0.67	0.56-0.78	Buena

Figura 18. Tabla que resume la fiabilidad interobservador del nuevo método de medición del BA GH pasivo. ICC: coeficiente de correlación intraclase; CI: intervalo de confianza.

Fiabilidad intraobservador de la técnica de medición del balance articular GH:

La fiabilidad intraobservador también se valoró utilizando el ICC. Como se puede observar en la tabla siguiente, la fiabilidad intraobservador fue aún mejor que la interobservador, consiguiendo valores excelentes en todas las categorías. Es decir, un mismo explorador obtuvo resultados muy similares y fiables al realizar mediciones repetidas en el tiempo. En este caso, la variabilidad intraobservador global fue también excelente, obteniendo un valor del ICC de 0.96 (0.94- 0.96, intervalo de confianza del 95%).

MEDICIÓN	ICC	IC: 95%	FIABILIDAD
GLOBAL	0.96	0.94-0.96	Excelente
LADO AFECTADO	0.96	0.94-0.97	Excelente
LADO SANO	0.92	0.89-0.95	Excelente
pGHABD	0.94	0.90-0.97	Excelente
pGHADD	0.87	0.77-0.92	Excelente
pCBADD	0.92	0.86-0.95	Excelente
pIRABD	0.89	0.81-0.94	Excelente

Figura 19. Tabla que resume la fiabilidad intraobservador del nuevo método de medición del balance GH pasivo. ICC: coeficiente de correlación intraclase; CI: intervalo de confianza.

6.2 Estudio II

Se incluyeron 205 pacientes diagnosticados de PBO en el estudio. La edad media fue de 9.6 años (rango 4 – 17 años). La proporción de géneros fue equitativa, con 97 (47%) pacientes de género masculino y 108 (53%) de género femenino.

La mayoría de lesiones se presentaron en la extremidad superior izquierda (120 pacientes, 58,5%); en cambio, 85 pacientes (41,5%) presentaron la lesión en la extremidad derecha.

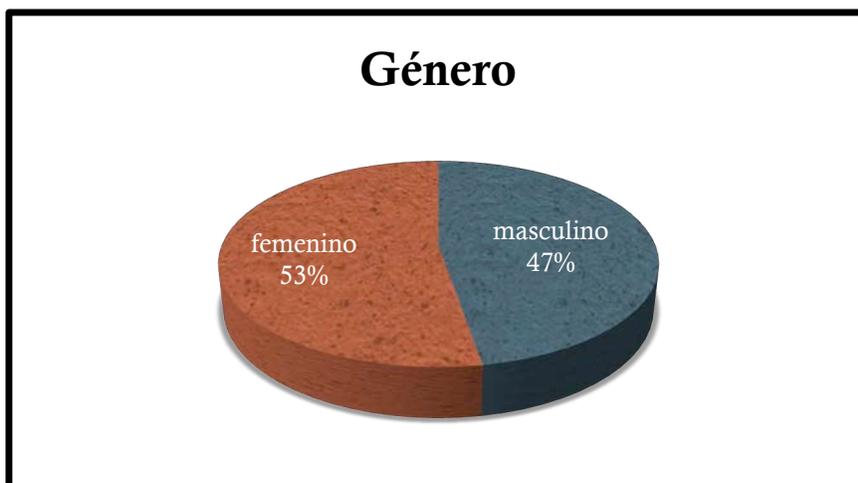


Figura 20. Distribución de los pacientes con PBO según el género.



Figura 21. Distribución de las PBOs según la lateralidad de la lesión.

Respecto al nivel lesional de la plexopatía, el 57.6% (118 pacientes) de los pacientes presentaron una lesión a nivel de C5-C6; el 28.8% (59 pacientes) a nivel de C5-C7; y el 13.7% (28 pacientes) una lesión completa de C5-T1.

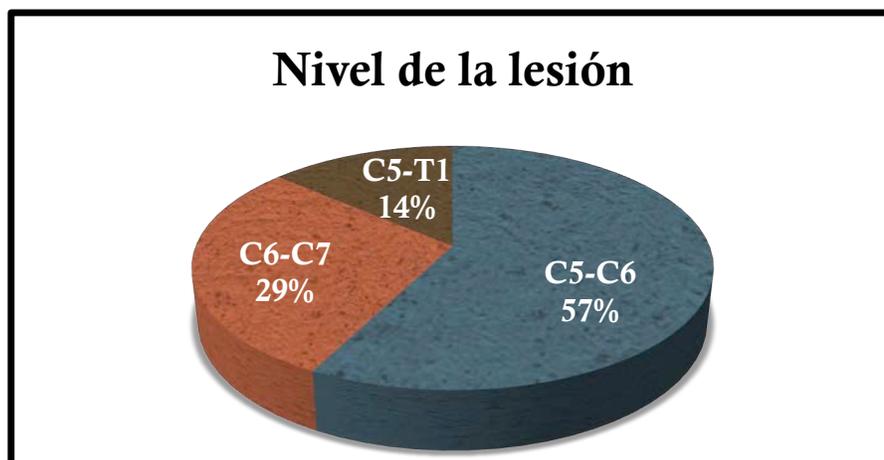


Figura 22. Nivel lesional de las PBOs.

En cuanto a las intervenciones quirúrgicas previas, 60 pacientes (29%) habían sido sometidos a una reconstrucción primaria microquirúrgica, 56 (28%) a algún procedimiento sobre el hombro, 56 (27%) a la asociación de reconstrucción primaria más un procedimiento sobre el hombro y 33 (16%) pacientes no se habían tratado quirúrgicamente.

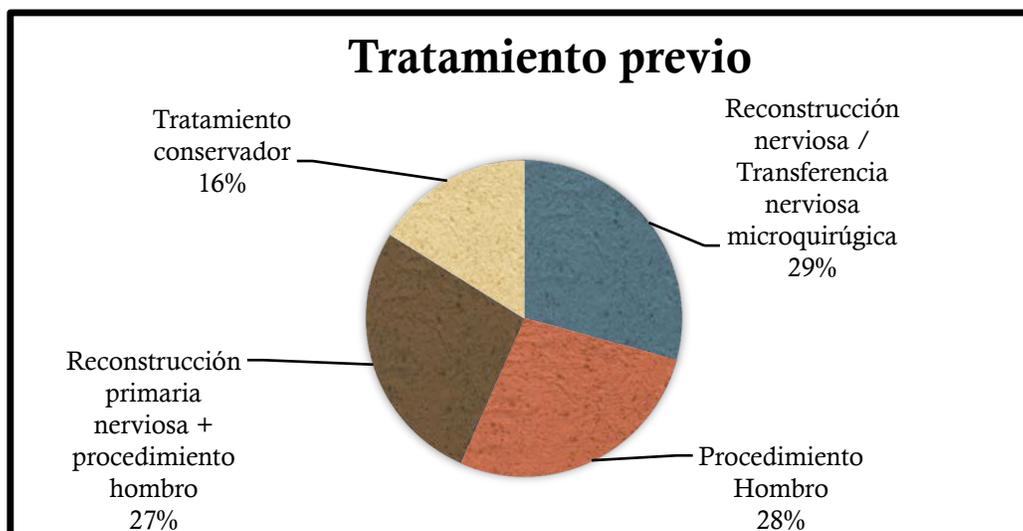


Figura 23. Distribución de los pacientes según el tratamiento previo que habían recibido.

El sumatorio de la escala modificada de Mallet fue de 20.6 ± 0.2 puntos para la extremidad lesionada y de 30 ± 0 puntos para la extremidad sana, encontrándose diferencias estadísticamente significativas entre ambos lados.

Analizando los resultados del sumatorio de Mallet según el nivel lesional observamos una puntuación de 20.6 ± 0.2 puntos para el nivel C5-C6; de 19.1 ± 0.3 puntos para C5-C7; y de 17.4 ± 0.5 puntos par las lesiones completas. Se encontraron diferencias estadísticamente significativas entre todos los grupos ($p < 0.001$).

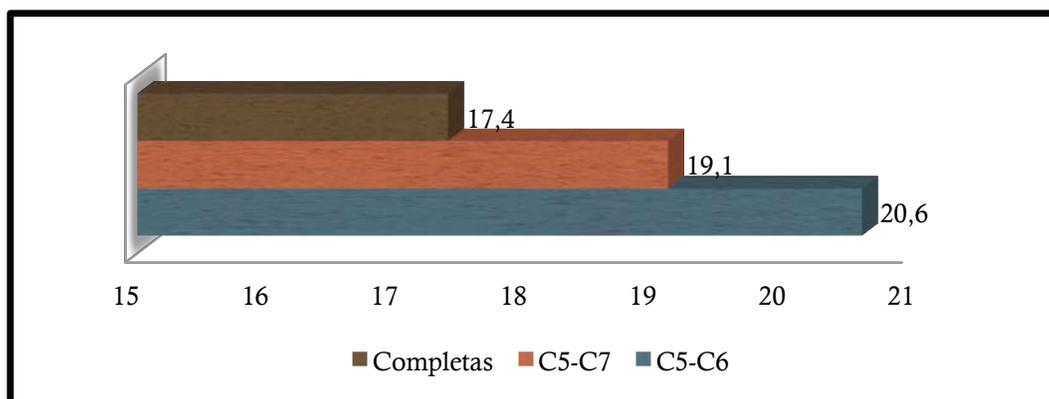


Figura 24. Puntuación de Mallet según el nivel afectado.

- Estudio de la abducción GH. Contracturas inferiores (o en aducción):

La puntuación media de la categoría abducción de la escala modificada de Mallet modificada fue de 3.6 ± 0.5 puntos en la extremidad lesionada y de 5 ± 0 puntos en la sana, encontrándose diferencias estadísticamente significativas entre ambos lados.

Asimismo, la puntuación media de la categoría abducción de la escala de

Mallet fue de 3.8 ± 0.0 puntos a nivel C5-C6; de 3.4 ± 0.1 a nivel C5-C7; y de 3.1 ± 0.1 en las lesiones completas. En este caso, se encontraron diferencias significativas entre C5-C6 y C5-C7, así cómo entre C5-C6 y las completas ($p < 0.001$). Sin embargo, no se encontraron diferencias entre C5-C7 y las completas ($p = 0.56$).

La abducción global activa (aGSABD) media fue de $115.4^\circ \pm 39.8^\circ$ en el hombro lesionado de PBO y de $179^\circ \pm 5^\circ$ en el hombro sano, encontrándose diferencias estadísticamente significativas entre ambos lados.

Desglosando la aGSABD por nivel lesional se encontró un promedio de $133.2^\circ \pm 34.8^\circ$ para el nivel C5-C6; de $96.7^\circ \pm 36.8^\circ$ a nivel C5-C7; y de $80.2^\circ \pm 19.7^\circ$ en las completas. Se encontraron diferencias significativas entre todos los grupos ($p < 0.001$).

La abducción GH pasiva media utilizando el ángulo pGHABD fue de $11.7^\circ \pm 22.0^\circ$ en la extremidad afectada y de $37.8^\circ \pm 7.0^\circ$ en la extremidad sana. En cambio, la abducción GH activa (aGHABD) media fue de $-6.4^\circ \pm 31.9^\circ$ en la extremidad afectada y de $38.4^\circ \pm 6.9^\circ$ en la extremidad sana. Todas estas mediciones de la abducción GH, tanto activa como pasiva, fueron menores en el lado afectado ($p < 0.001$).

El abduction lag medio fue de $21.5^\circ \pm 23.3^\circ$ en la extremidad afectada y de $1.1^\circ \pm 3.4^\circ$ en la extremidad sana. Asimismo, el abduction lag fue mayor en el lado

afectado ($p < 0.001$).

MEDICIÓN	LADO AFECTADO (°)	LADO SANO(°)	T-STUDENT
pGHABD	$11.7^\circ \pm 22.0^\circ$	$37.8^\circ \pm 7.0^\circ$	$p < 0.001$
aGHABD	$-6.4^\circ \pm 31.9^\circ$	$38.4^\circ \pm 6.9^\circ$	$p < 0.001$
Abduction Lag	$21.5^\circ \pm 23.3^\circ$	$1.1^\circ \pm 3.4^\circ$	$p < 0.001$

Figura 25. Tabla que resume la disminución significativa de la abducción, tanto activa como pasiva, del lado lesionado respecto al sano. Asimismo, los pacientes con PBO presentan un aumento significativo del abduction lag.

Así pues, el 73.7% (151 casos) de los pacientes presentaron un abduction lag GH significativo ($> 10^\circ$) en la extremidad lesionada; y el 84.9% (174 casos) de los pacientes presentaron una contractura GH inferior (o en aducción).

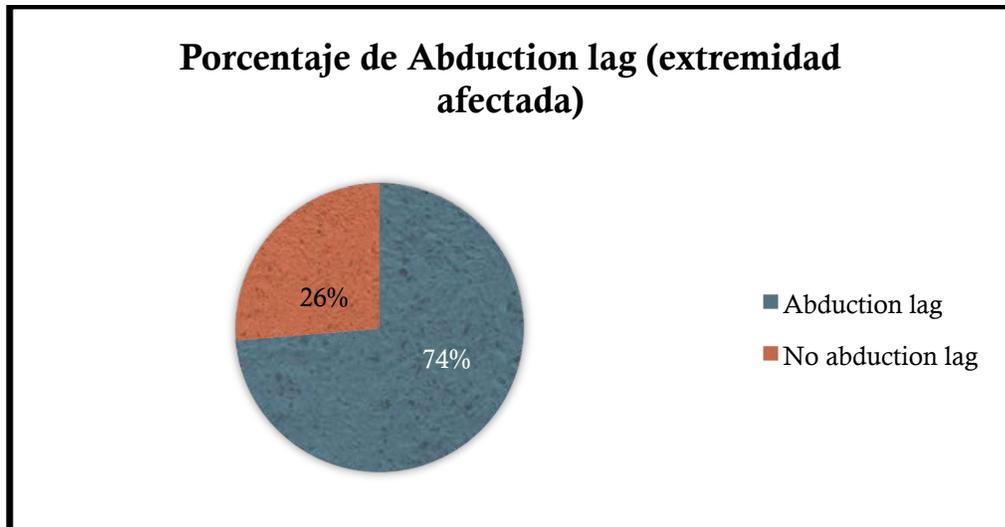


Figura 26. Porcentaje de pacientes que presentaron un abduction lag en la extremidad afectada.

Si analizamos los resultados por nivel lesional podemos observar que la abducción GH pasiva (pGHABD) media fue $19.4^{\circ} \pm 15.9^{\circ}$ para el nivel C5-C6; de $0^{\circ} \pm 22.7^{\circ}$ para C5-C7; y de $3.9^{\circ} \pm 28.9^{\circ}$ para lesiones completas. Las diferencias entre grupos fueron estadísticamente significativas entre C5-C6 y ambos C5-C7 y parálisis completa ($p < 0.001$), pero no entre C5-C7 y parálisis completa ($p = 0,49$).

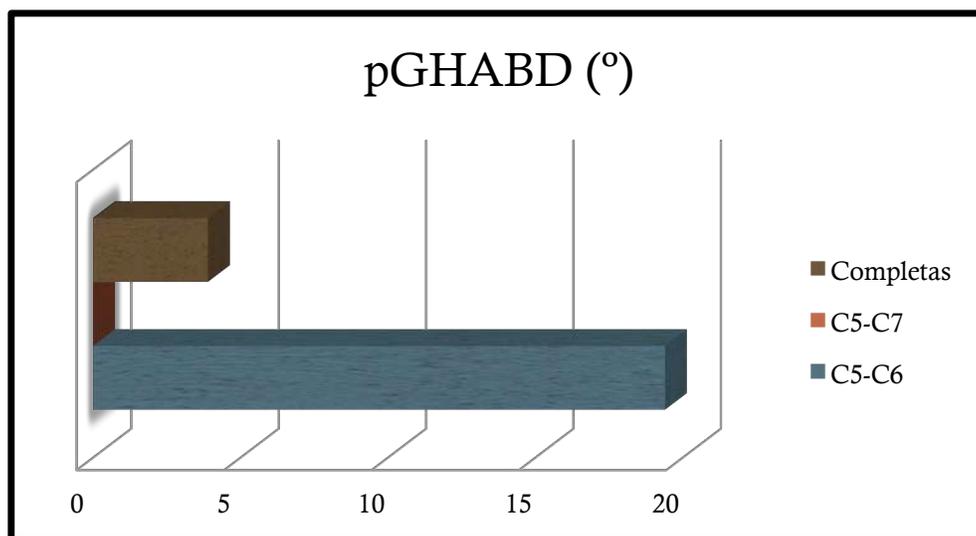


Figura 27. Ángulo pasivo de abducción GH (pGHABD), según el nivel afectado

La abducción GH activa media (aGHABD) fue $1.3^{\circ} \pm 25.4^{\circ}$ para el nivel C5-C6; de $-28.1^{\circ} \pm 33.9^{\circ}$ para C5-C7; y de $-28.2^{\circ} \pm 28.6^{\circ}$ para las lesiones completas. Las diferencias fueron nuevamente estadísticamente significativas entre C5-C6 y los otros dos grupos ($p < 0.001$), pero no entre C5-C7 y la parálisis completa ($p = 0.998$).

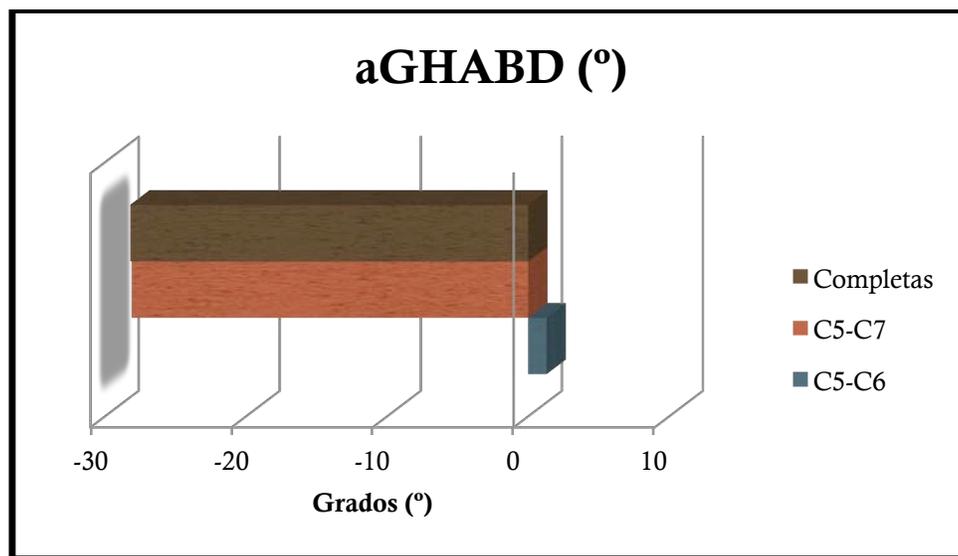


Figura 28. Ángulo activo de abducción glenohumeral (aGHABD), según el nivel afectado.

El abducción lag GH medio fue de $17.9^{\circ} \pm 17.5^{\circ}$ para el grupo C5-C6; de $28.8^{\circ} \pm 26.7^{\circ}$ para C5-C7; y $33.3^{\circ} \pm 24.1^{\circ}$ para las lesiones completas. Las diferencias fueron de nuevo estadísticamente significativas entre C5-C6 y los otros dos grupos ($p = 0.015$), pero no entre C5-C7 y parálisis completa ($p = 0.998$).

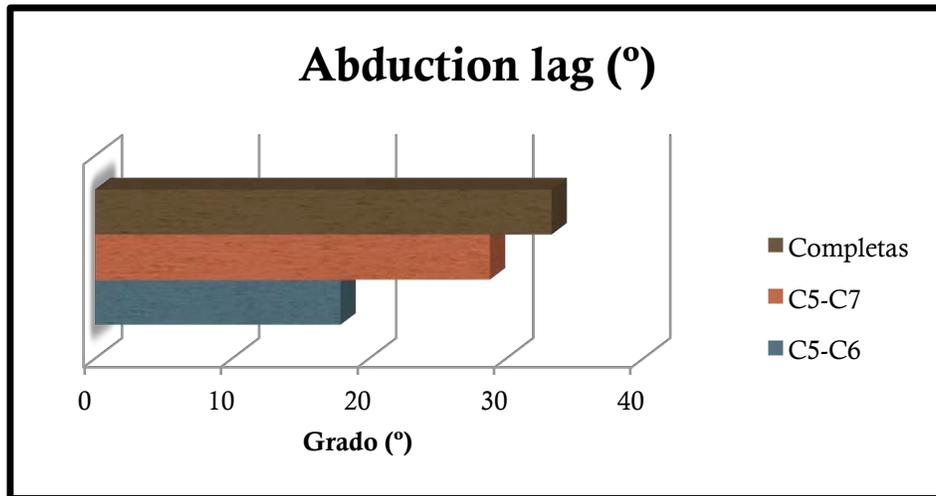


Figura 29. Abduction lag según el nivel afectado.

De los pacientes con un patrón C5-C6, el 79.7% exhibió una contractura GH en aducción, mientras que los porcentajes fueron del 96.6% y 82.1% para los niveles C5-C7 y parálisis completa, respectivamente. Las diferencias fueron estadísticamente significativas entre C5-C6 y los otros dos (C5-C7 y completas) ($p = 0.001$ y 0.033 , respectivamente), pero no entre C5-C6 y C5-7 ($p = 0.999$).

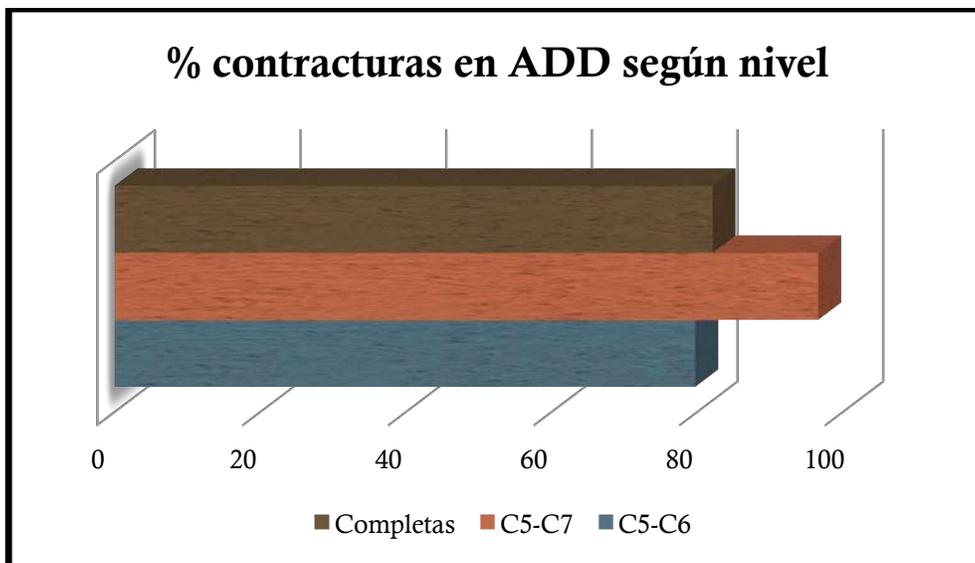


Figura 30. Porcentaje de contracturas en aducción (inferiores) según el nivel de la parálisis.

Del mismo modo, el 66,9% de los pacientes con un patrón C5-C6 mostraron un abduction lag GH clínicamente significativo ($>10\%$); mientras que el porcentaje fue del 83.1% para C5-C7 y del 82.1% en las parálisis totales. Las diferencias fueron nuevamente estadísticamente significativas entre ambos C5-C6 y C5-C7 y parálisis completa ($p = 0.04$), pero no entre C5-6 y C5-C7 ($p = 0.56$).

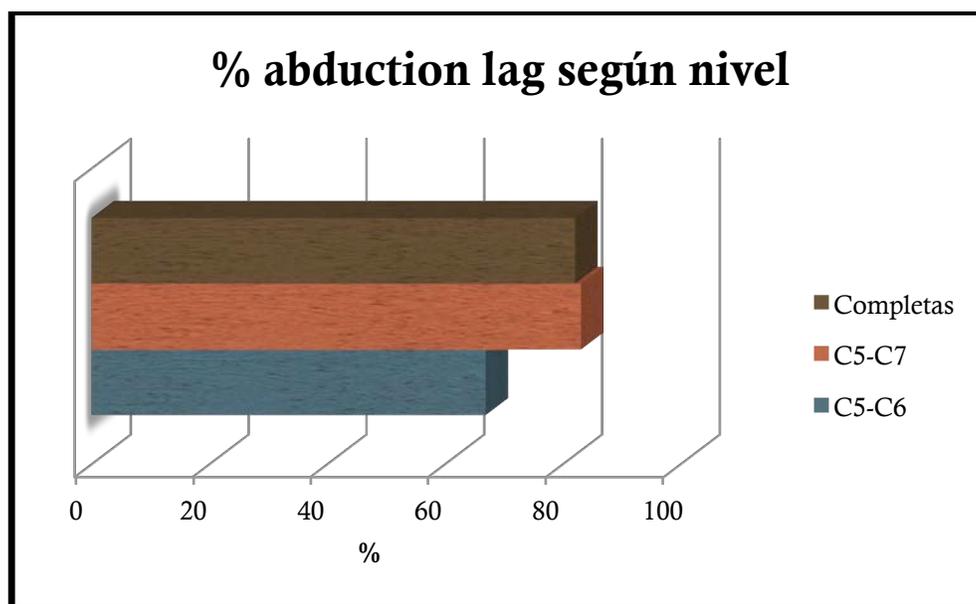


Figura 31. Porcentaje de abduction lag significativo ($>10^\circ$) según el nivel de la parálisis.

Se analizó la influencia de alguna intervención quirúrgica previa sobre los resultados de Mallet, la abducción activa y pasiva y el porcentaje de contracturas en aducción. Los pacientes sometidos a microcirugía reconstructiva en comparación con aquellos no tratados quirúrgicamente solamente exhibieron diferencias estadísticamente significativas para el sumatorio de Mallet (3.8 ± 0.5 puntos versus 3.5 ± 0.6 puntos) y para la aGSABD ($135.6^\circ \pm 40.58^\circ$ versus $106.8^\circ \pm 39.7^\circ$) ($p=0.002$ y $p < 0.001$, respectivamente). No se encontraron diferencias

estadísticamente significativas para la categoría abducción de la escala de Mallet, la pGHABD, la aGHABD, el abduction lag ni para el porcentaje de contracturas en aducción. Tampoco se encontraron diferencias significativas entre los pacientes no intervenidos y aquellos sometidos a cirugía de hombro para cualquiera de las variables estudiadas. Por el contrario, los pacientes sometidos a microcirugía reconstructiva asociada a cirugía de hombro, presentaron diferencias estadísticamente significativas con los no operados para todos los parámetros estudiados, excepto para la abducción GH pasiva y para el porcentaje de contracturas en aducción.

Hubo una correlación positiva significativa entre los parámetros de abducción activa del hombro (abducción de Mallet, $r = 0.537$; aGSABD, $r = 0.726$; y aGHABD, $r = 0.569$) y los de abducción GH pasiva (pGHABD) ($p < 0.001$). En cambio, hubo una correlación negativa significativa entre los parámetros de abducción activa del hombro (abducción de Mallet, $r = 0.537$; aGSABD, $r = 0.726$; aGHABD, $r = 0.590$) y las contracturas del hombro en aducción ($p < 0.001$).

No hubo correlaciones estadísticamente significativas entre la edad y ninguna de las variables evaluadas. Del mismo modo, no hubo diferencias estadísticamente significativas entre los géneros.

- **Estudio de la aducción GH. Contracturas superiores (o en abducción):**

Comparando el hombro lesionado y el sano, la pGHADD media fue $-2.8^{\circ} \pm 15.2^{\circ}$ versus $17.8^{\circ} \pm 9.8^{\circ}$, respectivamente, siendo estadísticamente menor en la extremidad lesionada ($p < 0,0001$). Y entre los 205 pacientes con PBO, el 68,6% exhibió una contractura GH superior (en abducción).

La media de pGHADD fue $-4.7^{\circ} \pm 15.5^{\circ}$ para el grupo C5-C6, $-1.5^{\circ} \pm 14.1^{\circ}$ para el grupo C5-C7 y de $2.9^{\circ} \pm 14.9^{\circ}$ para lesiones completas (C5-T1). Las diferencias entre grupos mediante una regresión lineal fueron estadísticamente significativas solamente entre C5-C6 y C5-T1 ($p < 0.02$), mientras que no lo fueron entre C5-C7 y C5-T1 ($p > 0.21$) y entre C5-C6 y C5-C7 ($p > 0,18$).

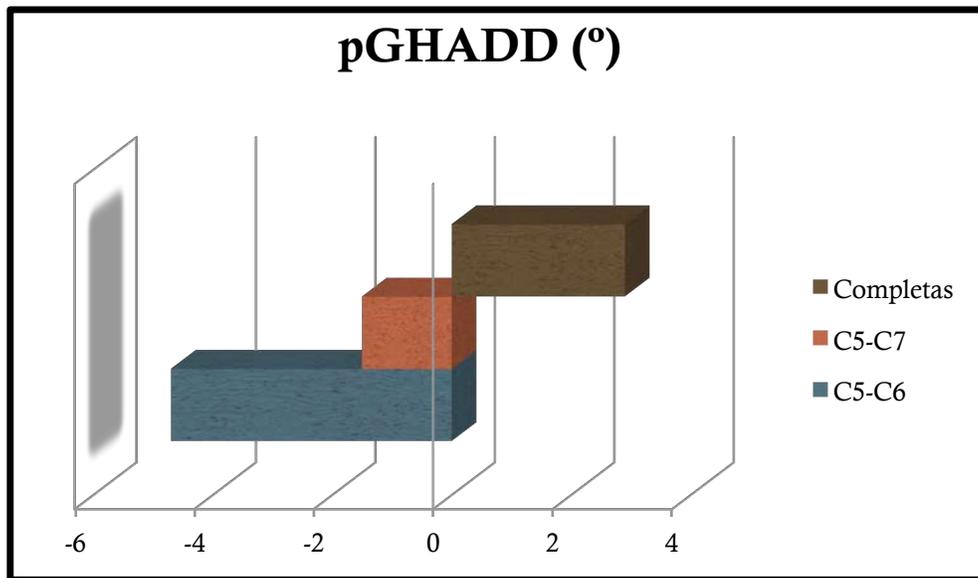


Figura 32. Angulo pasivo de aducción glenohumeral pGHADD, según el nivel afectado.

Entre los pacientes con un patrón C5-C6, el 78.0% exhibió una contractura GH superior, mientras que los porcentajes fueron del 65.6% y del 35.7% para C5-C7 y para la parálisis completa, respectivamente. Las diferencias fueron estadísticamente significativas entre los niveles afectados ($p < 0.001$).

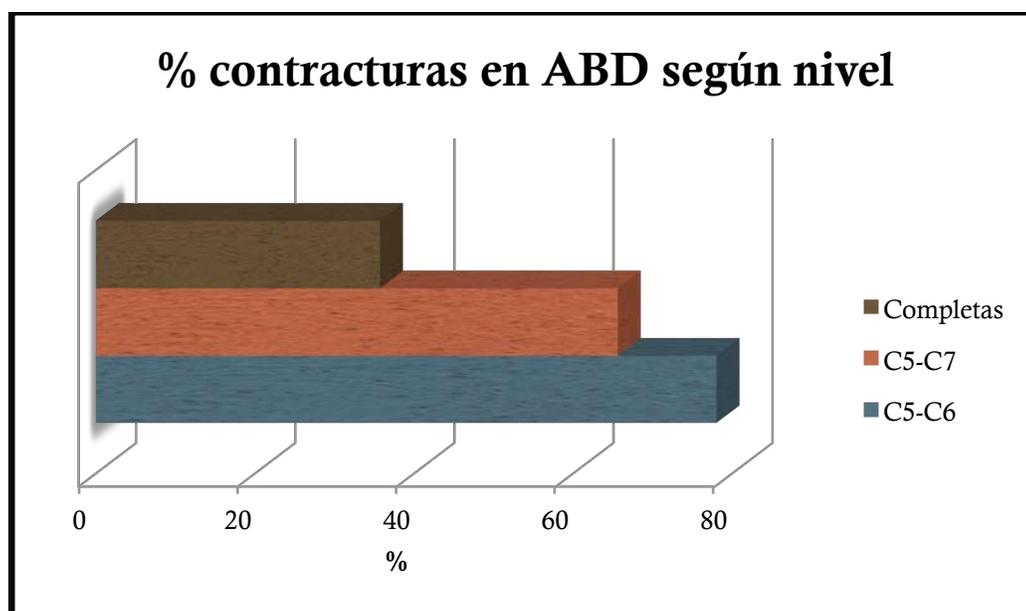


Figura 33. Porcentaje de contracturas en abducción (superiores) según el nivel de la parálisis.

No se encontraron diferencias estadísticamente significativas del sumatorio de Mallet modificado ($p > 0,30$) y de la pGHADD ($p > 0,09$) entre los pacientes sometidos a microcirugía reconstructiva y los pacientes no tratados quirúrgicamente. Tampoco se encontraron diferencias estadísticamente significativas del sumatorio de Mallet modificado ($p > 0,36$) y de la pGHADD ($p > 0,17$) entre los pacientes no tratados quirúrgicamente y los sometidos a cirugía de hombro. Solamente exhibieron diferencias estadísticamente significativas para la pGHADD ($p < 0.01$) los pacientes tratados con microcirugía reconstructiva en comparación con los sometidos a

procedimientos sobre el hombro; aunque no se encontraron diferencias para el sumatorio de Mallet ($p > 0.90$).

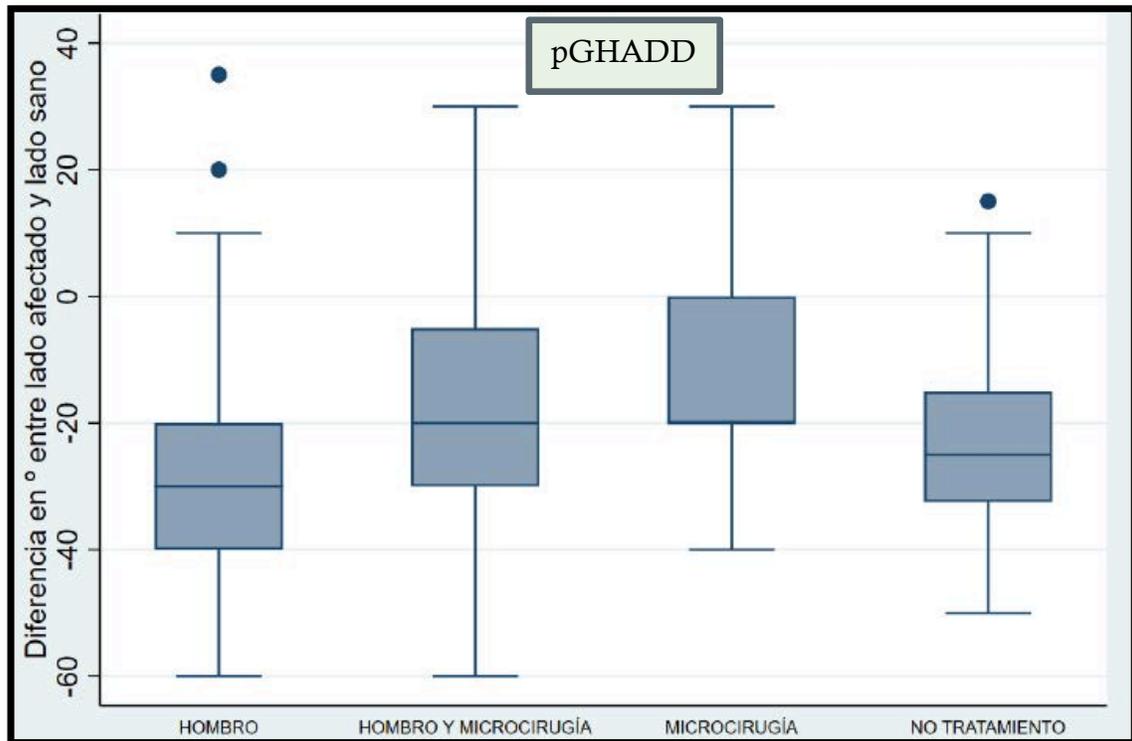


Figura 34. Diferencia de pGHADD (lado afectado y sano) según tratamiento previo.

No se encontraron diferencias estadísticamente significativas en el porcentaje de contracturas superiores entre los pacientes no tratados quirúrgicamente (75%), en comparación con aquellos sometidos a algún procedimiento quirúrgico (67%) ($p > 0.39$).



Figura 35. Porcentaje de contracturas en abducción según el tratamiento previo.

Tampoco se encontró ninguna relación entre la edad de los pacientes y el Mallet ($r= 0.31$), el pGHADD ($r =0.78$) y el porcentaje de contracturas superiores ($r=0.52$). Contrariamente, hubo una relación estadísticamente significativa entre el sexo masculino y el porcentaje de contracturas superiores (odds ratio 0,53), lo que indica una menor probabilidad de sufrir una contractura siendo varón.

Finalmente, no se encontró relación entre pGHADD y el sumatorio de Mallet ($p> 0,69$); ni con las categorías de mano-nuca ($p> 0.13$), mano-espalda ($p> 0.60$), mano-boca ($p>0.68$) y rotación interna ($p> 0.81$) de la escala de Mallet modificada. En cambio, se encontró una relación inversamente significativa entre pGHADD y la

categoría abducción activa ($p < 0.01$, $R^2 = 0.04$); así como una relación directamente significativa entre pGHADD y rotación externa ($p < 0.01$, $R^2 = 0.05$) de la escala de Mallet.

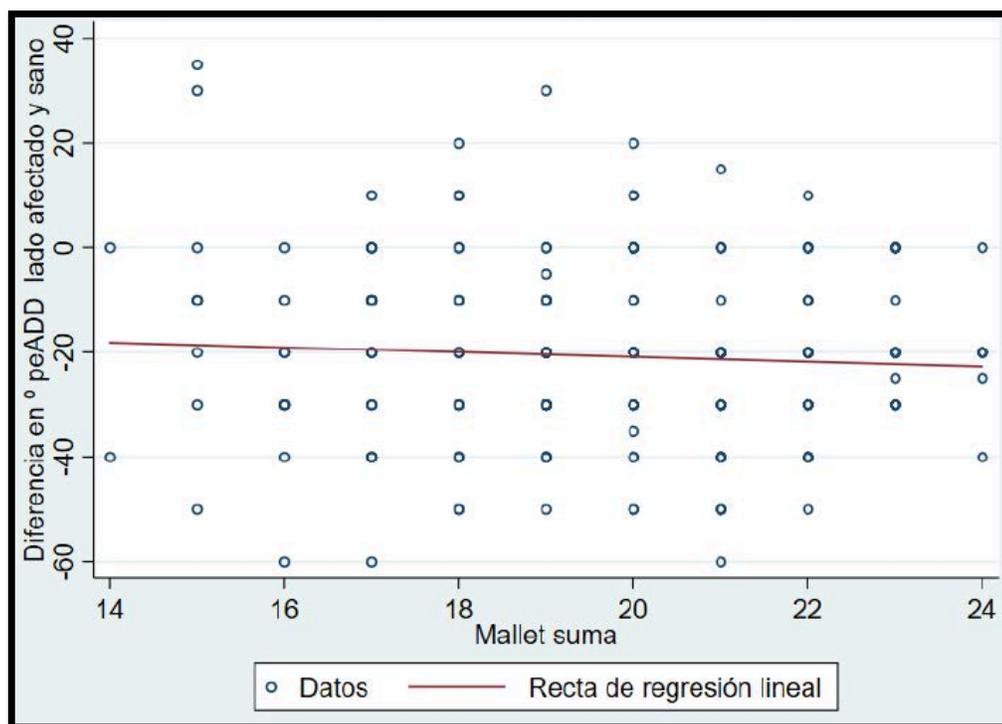


Figura 36. Regresión lineal que no evidencia relación entre pGHADD (lado sano y afecto) con el sumatorio de Mallet.

- **Estudio de la contracturas posteriores (o en rotación externa):**

Comparando el hombro lesionado y el sano, el pCBADD medio fue de $26.9^\circ \pm 22.8^\circ$ versus $61.6^\circ \pm 13.4^\circ$, respectivamente; y la pIRABD media de $12.7^\circ \pm 23.3^\circ$ versus $45.3^\circ \pm 17.0^\circ$. Todos los parámetros fueron estadísticamente significativamente menores en el la extremidad lesionada ($p < 0.0001$).

De los 205 pacientes, el 80.4% exhibió una contractura GH posterior (en rotación externa) utilizando la pIRABD; y el 84.8%, utilizando el pCBADD.



Figura 37. Porcentaje de contracturas superiores, inferiores y posteriores en pacientes con PBO.

La media de pIRABD fue de $16.4^{\circ} \pm 24.1^{\circ}$ para el grupo C5-C6, $7.6^{\circ} \pm 22.3^{\circ}$ para el grupo C5-C7 y de $7.1^{\circ} \pm 18.8^{\circ}$ para lesiones completas (C5-T1). Las diferencias entre grupos mediante una regresión lineal fueron estadísticamente significativas entre C5-C6 y C5-C7 ($p < 0.02$); pero no lo fueron entre C5-C6 y C5-T1 ($p > 0.05$) y tampoco entre C5-C7 y C5-T1 ($p > 0.93$).

La media de pCBADD fue de $27.5^{\circ} \pm 19.7^{\circ}$ para el grupo C5-C6, $21.0^{\circ} \pm 23.5^{\circ}$ para el grupo C5-C7 y de $36.8^{\circ} \pm 29.5^{\circ}$ para las lesiones completas (C5-T1). Las diferencias entre grupos mediante regresión lineal fueron estadísticamente significativas entre C5-C6 y C5-T1 ($p < 0.05$) y entre C5-C7 y C5-T1 ($p < 0.01$); pero no entre C5-C6 y C5-C7 ($p > 0.07$).

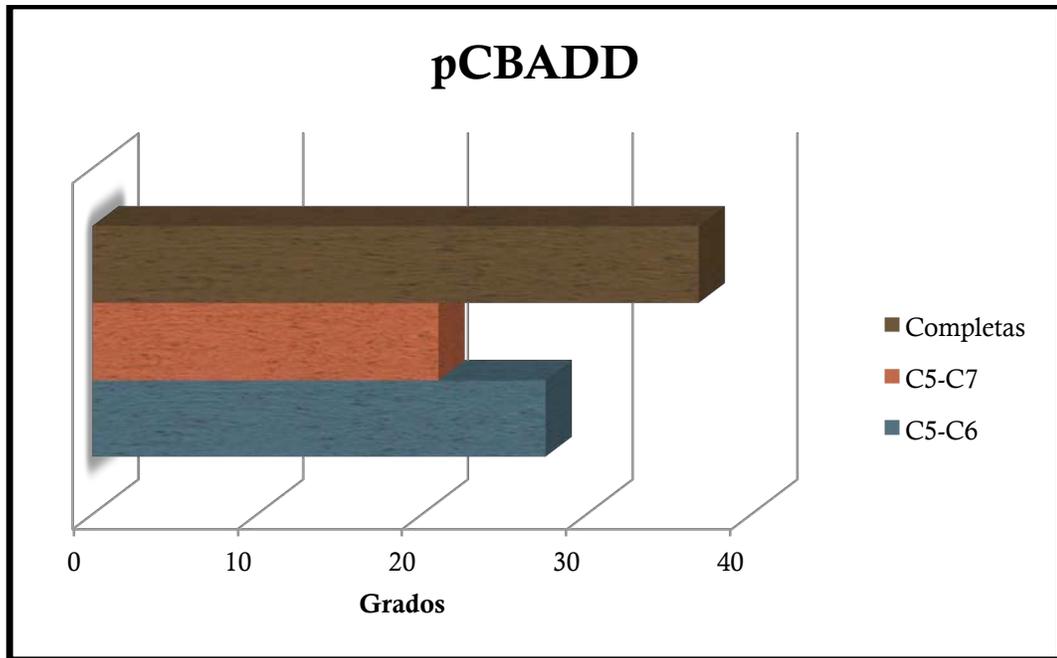


Figura 38. Ángulo pasivo de cross-body en aducción (pCBADD), según el nivel afectado.

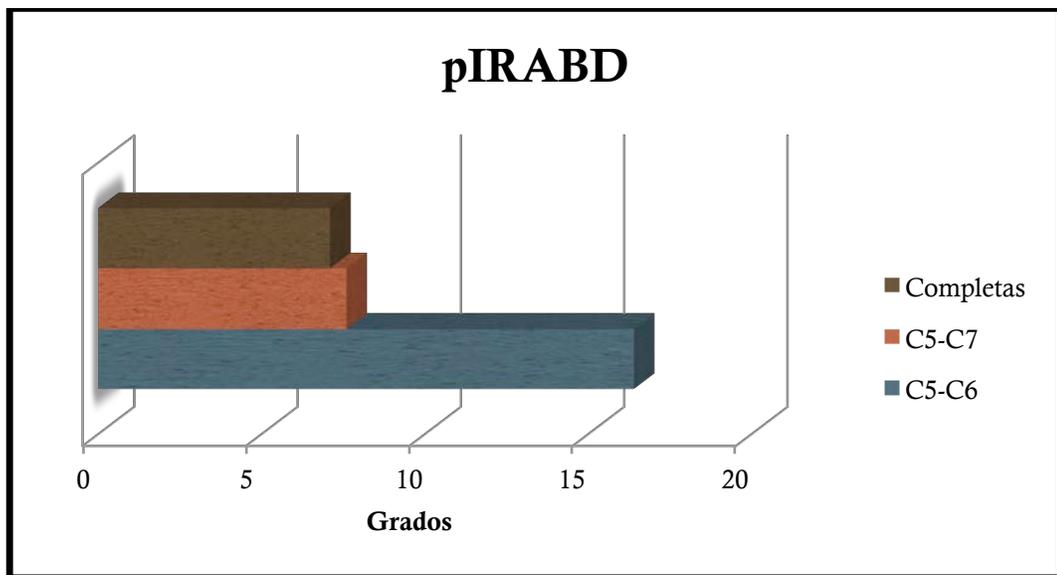


Figura 39. Ángulo pasivo de rotación interna en abducción (pIRABD), según el nivel afectado.

Utilizando la medición de la pIRABD, entre los pacientes con un patrón C5-C6, el 78.0% exhibió una contractura GH posterior, mientras que los porcentajes fueron del 84.5% y del 82.1% para C5-C7 y para la parálisis completa, respectivamente. No se obtuvieron diferencias estadísticamente significativas entre los niveles afectados. En cambio, utilizando el pCBADD, entre los pacientes con un patrón C5-C6, el 87,3% exhibió una contractura GH posterior, mientras que los porcentajes fueron del 89.7% y del 64.3% para C5-C7 y para la parálisis completa, respectivamente. Las diferencias fueron estadísticamente significativas entre lesiones altas (C5-C6 / C5-C7) y lesiones completas.

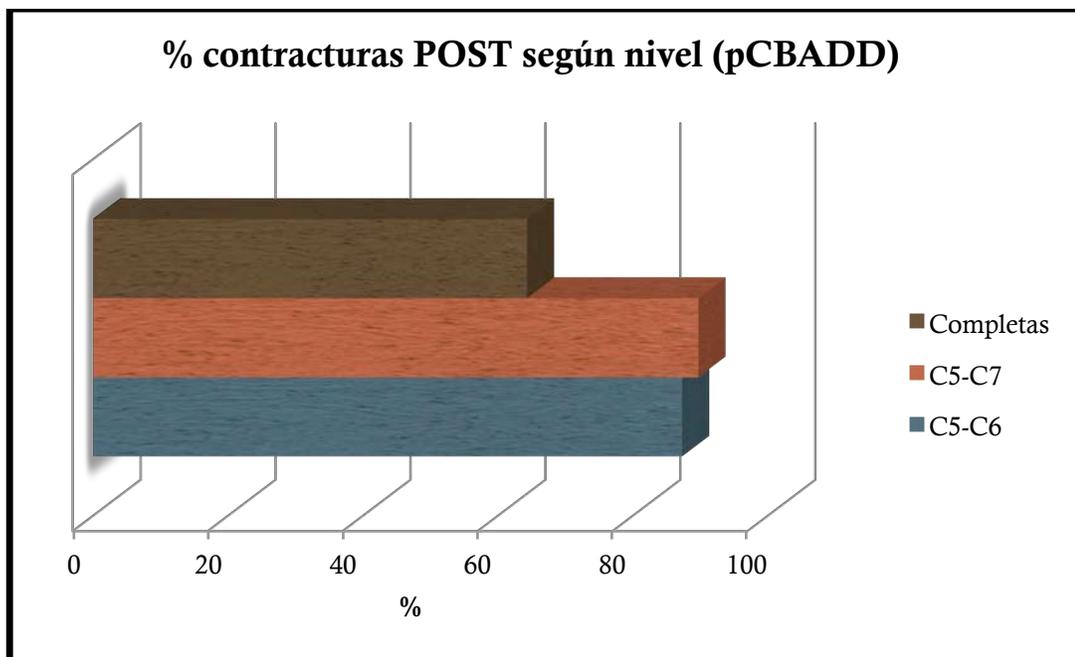


Figura 40. Porcentaje de contracturas posteriores según nivel de parálisis, utilizando el pCBADD.

No se encontraron diferencias estadísticamente significativas en el Mallet ($p>0.36$), el pCBADD ($p>0.81$) ni en la pIRABD ($p>0.81$) entre los pacientes no tratados quirúrgicamente y los sometidos a cirugía de hombro. Tampoco se encontraron diferencias significativas en el sumatorio de Mallet ($p>0.30$), en el pCBADD ($p>0.79$) ni en la pIRABD ($p>0.37$) entre los pacientes sometidos a microcirugía reconstructiva y los pacientes no tratados quirúrgicamente. No se encontraron diferencias entre los pacientes sometidos a microcirugía en comparación con los sometidos a cirugía de hombro para el Mallet ($p>0.90$); pero si para la pIRABD ($p<0.04$) y el pCBADD ($p<0.05$). Los pacientes sometidos a microcirugía más procedimiento de hombro en comparación con los pacientes no tratados quirúrgicamente mostraron diferencias estadísticamente significativas para el sumatorio de Mallet ($p<0.01$); pero no para la pIRABD ($p>0.06$) ni el pCBADD ($p>0.14$).

El porcentaje de contracturas posteriores utilizando el pIRABD fue del 78,1%, 73,2%, 80% y 89,3% para los grupos de no tratamiento quirúrgico, cirugía de hombro, microcirugía y microcirugía mas cirugía de hombro, respectivamente. El porcentaje de contracturas posteriores utilizando el pCBADD fue del 96,9%, 87,5%, 85% y 75% para los grupos de no tratamiento quirúrgico, cirugía de hombro, microcirugía y microcirugía mas cirugía de hombro, respectivamente. No se encontraron diferencias estadísticamente significativas en el porcentaje de contracturas posteriores, utilizando la pIRABD ($p>0.72$) ni el pCBADD ($p>0.07$), entre los pacientes no tratados quirúrgicamente, en comparación con aquellos

sometidos a algún procedimiento quirúrgico.

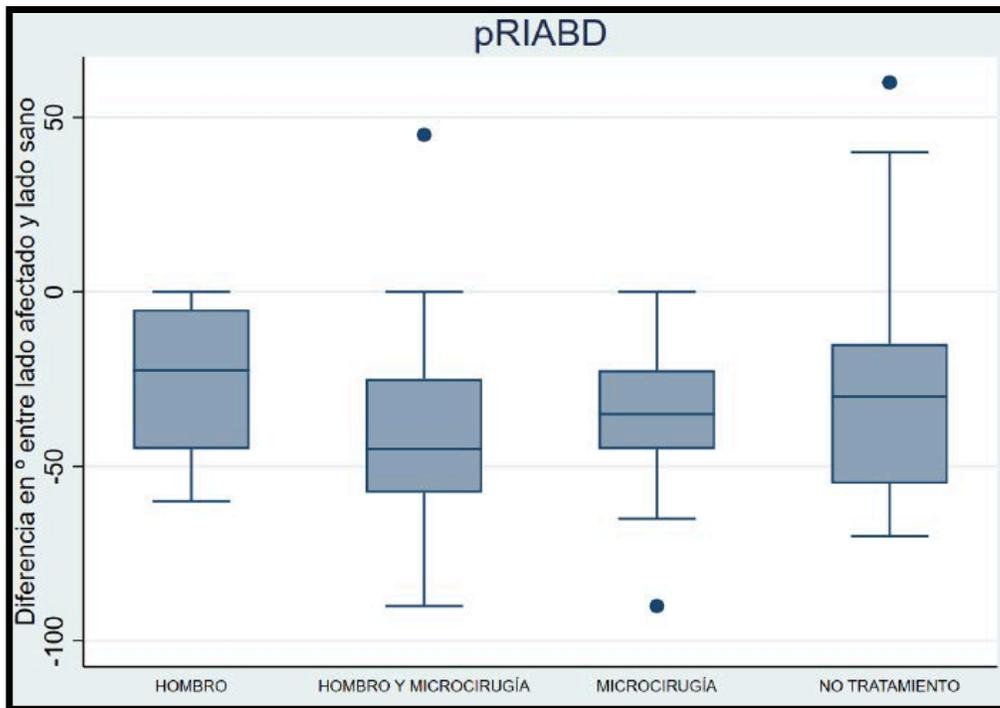


Figura 41. Diferencia de pIRABD (lado afectado y sano) según tratamiento previo.

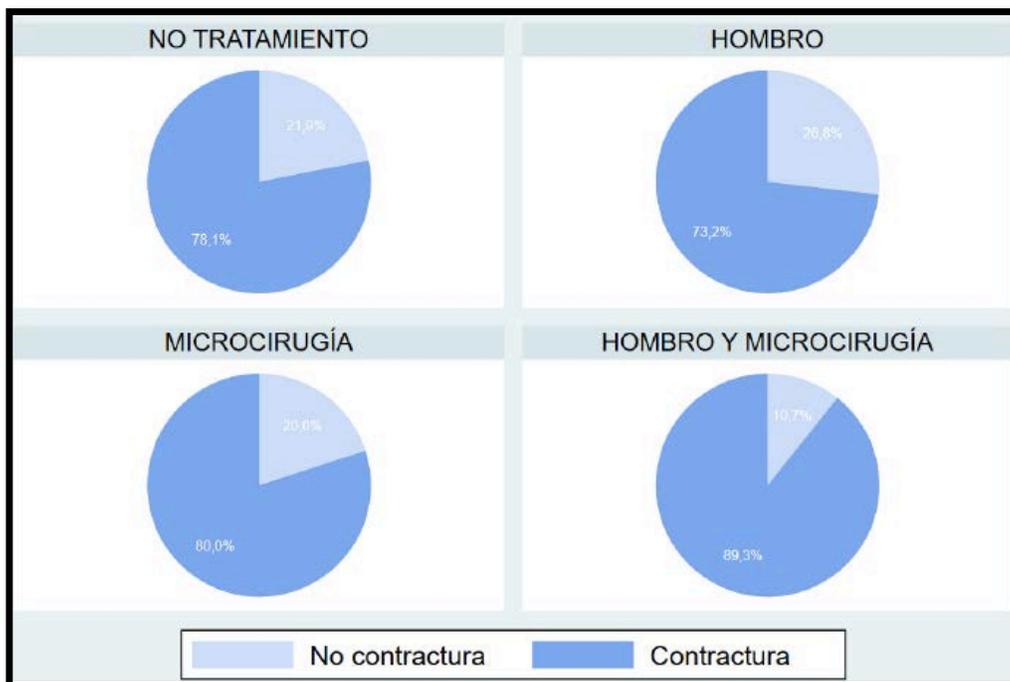


Figura 42. Porcentaje de contracturas posteriores (pIRABD) según tratamiento previo.

No se encontró ninguna relación entre la edad de los pacientes y el Mallet ($p>0.31$), la pIRABD ($p>0.31$), el pCBADD ($p>0.08$) ni con el porcentaje de contracturas posteriores ($p>0.17$, $p>0.86$). Tampoco se encontró ninguna relación estadísticamente significativa entre el sexo y la pIRABD ($p>0.09$), el pCBADD ($p>0.67$) ni el porcentaje de contractura posterior ($p>0.31$, $p>0.08$).

Finalmente, no se encontró relación entre la pIRABD y el sumatorio de Mallet ($p>0.50$, $R^2=0.00$); ni con la categoría de mano-nuca ($p>0.23$, $R^2=0.01$) de la escala de Mallet modificada. En cambio, se encontraron relaciones estadísticamente significativas entre pIRABD y las categorías de rotación externa ($p<0.001$, $R^2=0.09$), abducción activa ($p<0.01$, $R^2=0.04$), mano-espalda ($p<0.001$, $R^2=0.04$), mano-boca ($p<0.01$, $R^2=0.05$) y rotación interna ($p<0.001$, $R^2=0.08$) de la escala de Mallet modificada.

Por otro lado, no se encontró relación entre la pCBADD y el sumatorio de Mallet ($p>0.50$, $R^2=0.00$); ni con la categoría mano-nuca ($p>0.11$, $R^2=0.01$) de la escala de Mallet modificada. En cambio, se encontraron relaciones estadísticamente significativas entre pCBADD y las categorías de abducción activa ($p<0.01$, $R^2=0.06$), rotación externa ($p<0.001$, $R^2=0.07$), mano-espalda ($p<0.05$, $R^2=0.02$), mano-boca ($p<0.01$, $R^2=0.04$) y rotación interna ($p<0.03$, $R^2=0.03$) de la escala de Mallet modificada.

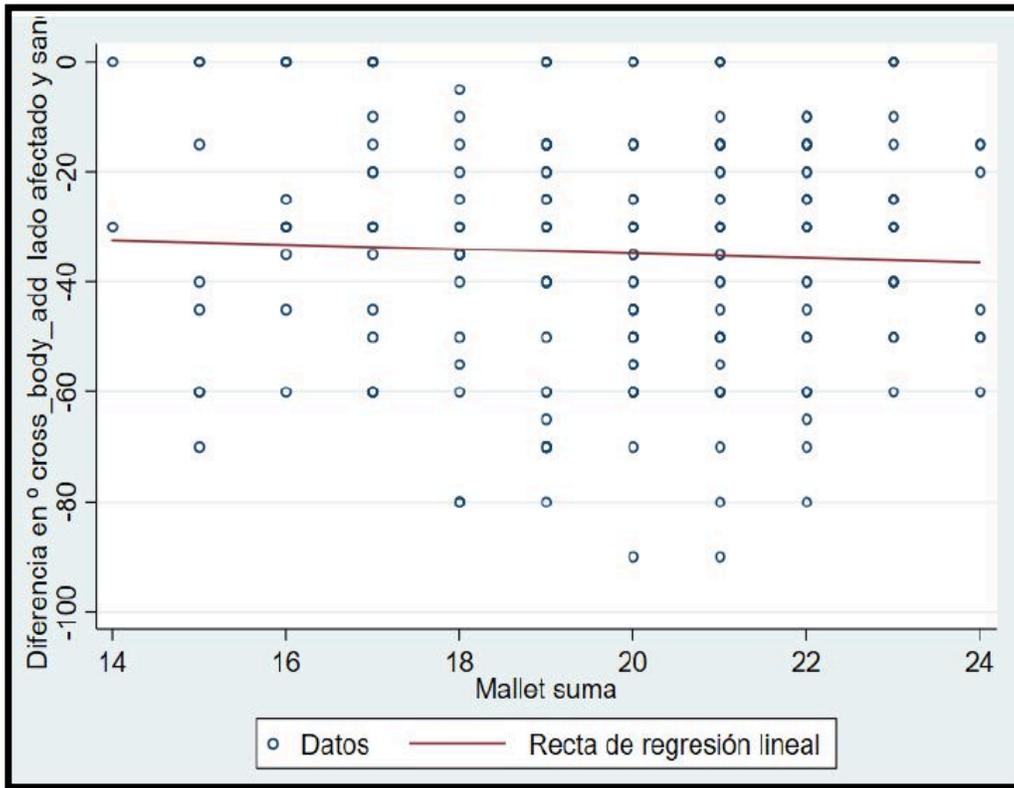


Figura 43. Regresión lineal que no evidencia relación entre pCBADD (lado sano y afecto) con el sumatorio de Mallet.

7. Discusión

7 Discusión

7.1 Estudio I

Las mediciones del balance articular GH pasivo en pacientes con PBO utilizando el nuevo método de medición a través de la espina escapular como referencia han mostrado una excelente fiabilidad interobservador e intraobservador. Es decir, se trata de una técnica fácil de aplicar y, sobretodo, reproducible entre examinadores y en el tiempo.

El estudio ha mostrado que los pacientes con PBO padecen contracturas GH multidireccionales en la mayoría de los casos, tal y como describió Gharbaoui (Gharbaoui I et al., 2015), que evaluó el balance articular GH de 31 pacientes afectados de PBO sin intervenciones quirúrgicas previas, utilizando el borde de la escápula como referencia. En su serie, el 81% de los pacientes tenía 2 o más contracturas, el 9% tenía un solo tipo de contractura y el 10% no presentaba ninguna contractura establecida. Sin embargo, su criterio para establecer la presencia de contractura fue simplemente la obtención de diferencias significativas entre el lado sano y el afectado. En cambio, en nuestro estudio, se estableció una diferencia mínima de 10º entre el lado sano y el lesionado para establecer el diagnóstico de contractura GH clínicamente significativa.

Aunque la presencia de contracturas GH multidireccionales está descrita en

los niños con PBO, nunca se habían reportado los valores del balance articular pasivo GH inferior, superior ni posterior; tampoco se habían descrito técnicas de medición específicas para medir las contracturas de forma objetiva ni se habían realizado estudios de variabilidad intra- e interobservador para reportar la fiabilidad de la medición clínica (Gharbaoui I et al., 2015; Sabapathy R et al., 2017; Waters P, 1999).

En cambio, múltiples estudios ya se habían centrado previamente en las contracturas GH anteriores (o en rotación interna), utilizando la medición de la rotación externa pasiva con la escápula estabilizada (Kozin SH et al., 2004; Soldado F et al., 2005). Por este motivo, decidimos no estudiar las contracturas anteriores. Aún así, tampoco existen estudios que analicen la fiabilidad intra- e interobservador en la rotación externa pasiva del hombro con la escápula estabilizada en pacientes con PBO. Sin embargo, nos dimos cuenta de este hecho ya después de haber diseñado el estudio y haber obtenido las mediciones.

La movilidad total del hombro es el resultado del sumatorio del balance de la articulación escapulotorácica y la GH. La medición del balance GH es complejo debido a la anatomía tridimensional de la cintura escapular, combinada con una escápula móvil y cubierta por múltiples músculos. Por este motivo, puede haber mucha variabilidad al realizar las mediciones según que técnica y/o referencia se utilice. Así pues, para poder realizar una medición de la movilidad GH es necesario utilizar puntos de referencia anatómicos fácilmente identificables en la escápula. El

uso de la espina de la escápula, una estructura subcutánea de la escápula y fácil de palpar, es una referencia útil para poder aislar la movilidad GH de la movilidad global del hombro. Además, ofrece una excelente o buena fiabilidad para cada una de las mediciones. Previamente se había utilizado el borde lateral de la escápula como referencia para la medición de las contracturas GH en abducción y en aducción (Gharbaoui I et al., 2015). Sin embargo no se detallaron los valores de las mediciones ni se realizaron los estudios de variabilidad interobservador ni intraobservador. Igualmente, como el borde lateral de la escápula se trata de una estructura mucho más profunda y cubierta por musculatura (redondo mayor y dorsal ancho), creemos que puede generar unos resultados mas heterogéneos y menos reproducibles, con una mayor variabilidad intra- e interobservador. Sin embargo, para verificar esta hipótesis sería necesario realizar un estudio comparativo entre ambas técnicas de medición. El uso de la espina escapular como referencia anatómica durante la exploración clínica ya había sido reportada previamente pero solamente para medir el ángulo pCBADD (Gharbaoui I et al., 2015). Asimismo, también se había utilizado esta referencia anatómica para la medición de contracturas GH en abducción mediante RMN en pacientes con PBO (Eismann E et al., 2015). Además, mediante un análisis de movimiento en el laboratorio, Russo (Russo S et al., 2014) midió la movilidad GH y la escapulotorácica por separado, en diversas posiciones de la escala de Mallet. Su estudio mostró una restricción del balance GH para cada posición de la escala de Mallet en los hombros afectados por la PBO. Para compensarlo, había un incremento de la movilidad escapulotorácica

durante las posiciones de rotación externa global y de mano-boca. Sin embargo, los datos de su estudio, al basarse en mediciones de movilidad activa, no son comparables con los nuestros. Además, se utilizó el borde medial de la escápula como referencia para medir la abducción GH activa. Así pues, otra vez, sería necesario un estudio comparativo entre la utilización del borde medial de la escápula y la espina escapular para poder definir cual de ellas es mejor para determinar la movilidad GH aislada. Además, debido a la poca disponibilidad de laboratorios de análisis de movimiento en la mayoría de hospitales, creemos que definir una técnica de medición del balance articular GH simplemente a través de la exploración clínica es de mayor utilidad y aplicabilidad.

Las contracturas GH inferiores también habían sido reportadas por algunos autores, pero no cuantificadas (Gharbaoui I et al., 2015; Nath R et al., 2010; Egloff D et al., 1995; Sabapathy R et al., 2017; Waters P, 1999). Gharbaoui midió el balance GH pasivo inferior utilizando el borde lateral de la escápula y el húmero (Gharbaoui I et al., 2015). Describió el balance articular normal entre 160°-180° pero no midió (o no especificó) los valores medios ni el rango del lado afectado ni del sano. Tampoco se realizaron estudios de variabilidad intra- e interobservador. En este nuestro primer estudio, el 72% de los pacientes presentó este tipo de contractura, con una abducción GH pasiva (pGHABD) de 18° de promedio.

El signo de Putti (o aparición de un bulto en el cuello debido al ángulo superior de la escápula) (Putti V et al., 1932), que traduce una contractura GH

superior (o en abducción), es muy común en los pacientes con PBO residual. Sin embargo, muy pocos artículos lo han utilizado para el estudio de contracturas en abducción (Eismann E et al., 2015; Gharbaoui I et al., 2015). Gharbaoui midió el balance GH pasivo en aducción, otra vez utilizando el borde lateral de la escápula y el húmero como referencias. Describió un rango normal entre 30°- 40°, pero tampoco no especificó los valores medios del lado lesionado ni del sano. Tampoco se realizaron estudios de variabilidad intra- e interobservador. Las contracturas GH superiores también se han intentado medir a través de RMN en pacientes con PBO, utilizando la espina de la escápula como referencia (Eismann E et al., 2015). Sin embargo, tampoco se proporcionaron los valores comparativos del hombro afectado y del sano. Solamente se reportó la diferencia entre ambas mediciones, concluyendo que el 89% de los pacientes presentaban contracturas GH en abducción, de 33° de promedio (rango 10° a -65°). La fiabilidad intra- e interobservador con éste método fueron excelentes. Estos datos son similares a los obtenidos en nuestro estudio, con un 64% de los pacientes con contracturas GH en abducción.

La presencia de una escápula alada, signo de contractura GH posterior, es frecuente en la mayoría de pacientes con recuperación motora incompleta tras una PBO. Sin embargo, muy pocos estudios han medido esta contractura (Waters P, 1999). En nuestro estudio se evaluó la presencia de contracturas GH posteriores mediante dos mediciones distintas, el pCBADD y el pIRABD. El 88% de los pacientes presentaron este tipo de contractura. El ángulo CBADD ya había sido descrito por Russo en pacientes con PBO después de realizar un movimiento mano-

boca activo, pero en un laboratorio de movimiento (Russo S et al., 2015). Además, se utilizó el plano de la escápula y el húmero como referencias anatómicas. El ángulo CBADD obtenido en su estudio fue de $47^\circ \pm 19^\circ$ en el hombro sano y de $12^\circ \pm 30^\circ$ en el hombro lesionado. Estos valores son similares a los de nuestro estudio (lesionado: 41° , rango 20° a 80° ; sano: 71° , rango 50° a 80°). Sin embargo, los resultados no pueden compararse entre ellos ya que la referencia anatómica, aunque es parecida, no es exactamente la misma. Además, sus mediciones se basaron en el balance articular activo y las nuestras en el pasivo. Posteriormente, Gharbaoui describió la aplicación del ángulo CBADD durante la exploración clínica (Gharbaoui I et al., 2015). Los valores normales reportados de éste ángulo fueron entre 90° y 100° , aunque utilizaron el plano de la escapula y el húmero como referencias.

El ángulo pIRABD es una medición ampliamente utilizada para valorar la movilidad pasiva del hombro en medicina deportiva, pero habitualmente se obtiene con el paciente en pronación. Wilk describió unos valores normales en adultos del ángulo IRABD de $44^\circ \pm 8^\circ$ en el hombro dominante versus un valor de $54^\circ \pm 9^\circ$ en el hombro no dominante (Wilk K et al., 2009). Wilk obtuvo una disminución estadísticamente significativa del ángulo pIRABD del hombro dominante respecto al no dominante de los pacientes adultos. Además, observó una buena variabilidad intraobservador, de 0.62; aunque una mala variabilidad interobservador, de 0.43. En nuestro estudio, el valor medio del ángulo pIRABD fue de 54° (rango $38^\circ - 74^\circ$) en el hombro sano (considerado dominante), y de 37° (rango $9^\circ - 62^\circ$) en el hombro afectado (no dominante). Esta diferencia en la disminución del pIRABD entre el

hombro afectado (no dominante) y el sano (dominante) podría explicarse por la diferencia de edad de los pacientes. Sin embargo, no medimos el ángulo pIRABD bilateral en pacientes sanos, que sirvieran de grupo control. Por lo tanto, no puede determinarse si en niños el hombro dominante y el no dominante tendrían valores diferentes de pIRABD, al igual que en los adultos. Gharbaoui reportó el ángulo IRABD en niños con PBO, proporcionando valores normales entre 80° y 90° (Gharbaoui I et al., 2015). Existe, por lo tanto, una gran discrepancia entre los valores normales de Gharbaoui y los de nuestro estudio. Una vez más, no detallaron la media ni el rango de valores del lado afectado ni del sano. Y tampoco realizaron estudios de variabilidad intraobservador ni interobservador.

La mayoría de autores acepta la teoría de que las contracturas GH se originan por el acortamiento muscular tras un crecimiento anormal de la extremidad (Nikolaou S et al., 2011); algunos discuten si este crecimiento muscular anormal se debe a la denervación postganglionar de las células musculares aferentes (Eismann E et al., 2015; Nikolaou S et al., 2011, Soldado F et al., 2005, Mascarenhas V et al., 2014) y otros debido al desbalance muscular o a la aparición de co-contracciones (Sabapathy R et al., 2017; Soldado et al., 2005). Además, algunos autores creen que las cirugías podrían favorecer la aparición de estas contracturas en pacientes con PBO (Abzug J et al., 2017; Nath R et al., 2010). Por esto, creemos que la descripción de esta técnica válida para evaluar la movilidad GH podría ser de mucho interés a la hora de determinar los cambios en la movilidad GH del hombro tras la cirugía.

Sin embargo, este primer estudio presenta algunas limitaciones. Primero de todo, los examinadores, al formar parte del estudio, podrían contribuir en los resultados de la variabilidad intraobservador e interobservador. De hecho, inicialmente no diseñamos el estudio para discernir la contribución cuantitativa en las mediciones de variabilidad de cada examinador. Sin embargo, encontramos una excelente y buena fiabilidad en todas las mediciones. Por último, otra limitación del estudio es la heterogeneidad en el tipo de lesión plexual, el tratamiento previo recibido y la edad de los pacientes seleccionados.

7.2 Estudio II

El segundo estudio ha corroborado la alta frecuencia de contracturas GH inferiores, superiores y posteriores en pacientes con PBO, mediante el estudio de una amplia población de pacientes con diversos grados de afectación y tratamientos previos recibidos. Además, ha caracterizado por primera vez los valores absolutos promedios y la desviación estándar de la movilidad GH para cada tipo de contractura.

Asimismo, es el primer estudio que relaciona la funcionalidad de la extremidad con la presencia de cada tipo de contractura GH y que correlaciona la abducción GH activa con la pasiva.

- **Estudio de la abducción GH. Contracturas inferiores (o en aducción):**

El estudio de la abducción GH ha objetivado que la contractura GH inferior (o en aducción) es un hallazgo muy común (84,9%) en pacientes con PBO. Su frecuencia es ligeramente más común en las parálisis más extendidas (C5-C7 y lesiones completas), pero no existen diferencias entre la parálisis de Erb extendida (C5-C7) y la parálisis total en ninguno de los parámetros GH estudiados. Esto puede explicarse por el papel limitado de C8-T1 en la movilidad GH (Soldado et al., 2016).

Las contracturas GH inferiores han sido estudiadas por varios autores, pero nunca se había reportado su frecuencia ni se había cuantificado su magnitud (Egloff D et al., 1995; Gharbaoui I et al., 2015; Nath R et al., 2010; Sabapathy R et al., 2017; Waters PM, 1997). Gharbaoui midió la movilidad GH pasiva inferior, pero utilizando el borde lateral de la escápula. Sin embargo, no proporcionó los valores medios ni la desviación estándar para la extremidad afectada ni para la sana. En nuestro estudio, en cambio, utilizamos la espina de la escápula como referencia, ya que el estudio I ha demostrado ser una técnica con excelente fiabilidad intra- e interobservador (Hodgson F et al., 2018).

Como ya se ha comentado, algunos autores argumentan la teoría de la denervación como el origen de las contracturas GH (Weekley H et al., 2012; Soldado et al., 2017; Mascarenhas V et al., 2014) y otros al desequilibrio

muscular y las co-contracciones (teoría del desequilibrio) (Sabapathy R et al., 2017; Waters PM, 1997; Soldado F et al., 2014; Kozin SH et al., 2004). El hecho de que los pacientes no operados (con lesiones menos graves y recuperación espontánea) exhibieran una frecuencia similar de contracturas GH en aducción que los pacientes tratados con microcirugía o procedimientos secundarios sobre el hombro -en otras palabras, la falta de correlación entre las contracturas GH inferiores y la gravedad de la lesión inicial- respalda la teoría de la denervación.

Por otro lado, también observamos un abduction lag GH en casi el 75% de nuestros pacientes (aunque mas frecuentemente en los niveles C5-C7 o parálisis completa), así cómo una correlación entre los parámetros de movilidad activa y pasiva. Ambos hallazgos sugieren que el desbalance muscular del hombro debido a la debilidad para la elevación activa del hombro también podría desempeñar un papel en el desarrollo de la contractura GH inferior. Además, las co-contracciones musculares entre los elevadores y los depresores del hombro podrían contribuir al desarrollo del abduction lag y a la contractura inferior del hombro. Sin embargo, los datos obtenidos en nuestro estudio no permiten determinar el papel de la debilidad para la elevación activa del hombro o las co-contracciones de los músculos elevadores y depresores del hombro en la patogénesis de la contractura. Finalmente, las contracturas GH inferiores podrían tener también un origen capsular o articular. Sin embargo, solamente los hallazgos intraoperatorios pueden ayudar a determinar el papel de los músculos,

la cápsula y las superficies articulares en la patogénesis de la contractura articular (Oka K et al., 2019).

No se identificó ninguna correlación entre la edad del paciente y los parámetros de contractura GH inferior, lo que sugiere que esta contractura se desarrolla dentro de los primeros tres años de vida.

Desde un punto de vista terapéutico, nuestros resultados sugieren que, en la mayoría de los pacientes, una liberación quirúrgica GH inferior aislada, probablemente no mejoraría la elevación del hombro a menos que se combine con una transferencia tendinosa, porque la mayoría de los pacientes presentan un abduction lag GH.

- **Estudio de la aducción GH. Contracturas superiores (o en abducción):**

El estudio ha objetivado que la contractura GH superior (o en abducción) es un hallazgo común (68,6%) en los pacientes con PBO, aunque en menor frecuencia que la contractura inferior y la posterior.

Su frecuencia es ligeramente superior en las parálisis altas (C5-C6) que en lesiones extendidas (C5-C7) y lesiones completas (C5-T1), existiendo diferencias significativas entre ellas. Esto podría explicarse por el mayor desbalance muscular

que presentan las lesiones parciales respecto a las lesiones completas (Iorio ML et al., 2015).

A diferencia del estudio de la aducción GH pasiva realizada por Gharbaoui, donde se utilizó el borde lateral de la escápula como referencia (Gharbaoui I et al., 2015), nuestro estudio ha utilizado el método de la espina escapular ya validado en el estudio I (Hodgson F et al., 2018) y ha proporcionado por primera vez los valores medios y la desviación estándar de la aducción GH, tanto de la extremidad lesionada como de la sana. La prevalencia de contracturas superiores (89%) que reportó el estudio de Eismann mediante RMN (Eismann E et al., 2015) es incluso superior a la del nuestro (68,6%); y hemos podido observar una menor severidad de las contracturas. Esto podría explicarse por las diferencias entre las mediciones radiológicas y las clínicas. Aunque, posiblemente, la mayor diferencia podría deberse al sesgo de selección de su serie, ya que en todos los pacientes incluidos, la RMN se había indicado por la presencia de una deformidad o displasia del hombro afectado.

Aunque en estudios previos ya se indicaba una posible correlación entre las contracturas superiores y las cirugías previas sobre el hombro (Al-Qattan MM et al., 2003; Gharbaoui I et al., 2015), solamente Eismann cuantificó el efecto de la cirugía sobre la contractura GH en abducción (Eismann E et al., 2015), mostrando que los pacientes sometidos a una liberación del subescapular y a una transferencia tendinosa no presentaban una mayor incidencia de contractura GH en abducción.

En nuestro estudio, hemos encontrado una alta incidencia (75% aproximadamente) de contracturas GH superiores. Además, los pacientes no operados (con lesiones menos graves y recuperación espontánea) exhibieron una frecuencia similar de contracturas GH superiores que los pacientes tratados con microcirugía o procedimientos secundarios sobre el hombro, al igual que en pasaba en las contracturas GH inferiores. Este hallazgo vuelve a respaldar la teoría de la denervación de las células musculares aferentes como origen de las contracturas GH (Weekley H et al., 2012; Soldado et al., 2017; Mascarenhas V et al., 2014). Además, la incidencia de contracturas superiores es notablemente menor en las PBOs completas, justamente el subgrupo que presenta mayor número de avulsiones de raíces.

Sin embargo, a diferencia del estudio de contracturas GH inferiores, al utilizarse solamente mediciones pasivas del balance GH, no se ha podido determinar la implicación del desbalance muscular y/o de las co-contracciones en la patogénesis de las contracturas GH superiores.

Al igual que en el estudio de Eismann (Eismann E et al., 2015), la falta de correlación entre la edad del paciente y la contractura GH superior (en nuestro caso utilizando el pGHADD, el porcentaje de contracturas en abducción y la funcionalidad mediante la escala de Mallet) sugiere que esta contractura también se desarrolla dentro de los primeros tres años de vida. Y, a diferencia de las contracturas inferiores y posteriores, existe una ligera relación estadística entre el género femenino y el porcentaje de contracturas superiores, indicando una mayor

probabilidad de padecer una contractura GH superior siendo mujer. Sin embargo, podría tratarse de un hallazgo estadístico fortuito, ya que no encontramos ninguna otra justificación analizando nuestros datos ni revisando otros datos publicados en la literatura. Sin embargo, se deberían realizar futuros estudios focalizados en el género para poder corroborar este hallazgo.

Finalmente, la comparación entre la aducción GH pasiva (pGHADD) y la funcionalidad de la extremidad evidenció que la presencia de una contractura GH superior no afecta a la funcionalidad total de la extremidad (sumatorio de Mallet). Así pues, se trata principalmente de un problema estético del hombro debido a la presencia del signo de Putti (Putti V et al., 1932). Sin embargo, si que afecta a la categorías de abducción activa de la escala de Mallet, al igual que evidenció Eismann (Eismann E et al., 2015). Por otro lado, la correlación inversa encontrada entre la categoría de rotación externa de la escala de Mallet y la contractura superior podría volver a soportar la teoría de la denervación, ya que la limitación de la rotación externa activa en aducción se explica mayoritariamente por la contractura en rotación interna.

Por último, creemos que el principal beneficio de la medición del ángulo GH en abducción (pGHABD) podría ser no solamente para el diagnóstico y la cuantificación de la contractura GH superior, sino también para evaluar los cambios surgidos tras cirugías de hombro en pacientes con PBO y, en definitiva, para ofrecer un mejor cuidado y atención al paciente.

- **Estudio de las contracturas posteriores (en rotación externa):**

La contractura GH posterior está presente en la mayoría de los pacientes con recuperación incompleta tras una PBO, reflejándose por la presencia de una pseudoescápula alada, pero muy pocos estudios han analizado esta contractura tan específica (Greenhill A et al., 2018; Hodgson F et al., 2018). De hecho, nunca se había reportado su frecuencia ni su magnitud. Sin embargo, recientemente, Greenhill se ha focalizado en el estudio de esta deformidad debido a sus potenciales consecuencias sobre la pérdida de función hacia la línea media (Greenhill A et al., 2018).

A diferencia de Russo, que describió el ángulo CBADD activo y utilizó el plano de la escápula como referencia en el laboratorio de movimiento para estudiar las contracturas posteriores (Russo S et al., 2015), en nuestro estudio se ha utilizado el mismo ángulo pero pasivo, se ha utilizado la espina escapular como referencia y se han realizado las mediciones de forma sencilla durante la exploración clínica en la consulta externa, sin necesidad de un laboratorio de movimiento. El ángulo CBADD obtenido por Russo fue de $12^{\circ} \pm 30^{\circ}$ en la extremidad afectada y de $47^{\circ} \pm 19^{\circ}$ en la extremidad sana; mientras que en nuestro estudio el pCBADD fue de $27^{\circ} \pm 22^{\circ}$ versus $61^{\circ} \pm 13^{\circ}$, respectivamente. Así pues, aunque los valores absolutos difieran ligeramente entre ambas series, las diferencias de valores promedios son similares. La falta de concordancia en los valores absolutos podría deberse a los puntos de referencia similares, pero no exactamente iguales en el momento de hacer las mediciones. Por otro lado, en el estudio de Russo, las

mediciones se realizaron en la posición de mano-boca estática, es decir, en una posición de rotación GH y flexión diferente al nuestro. Mientras que nosotros colocamos la articulación GH a 90° de abducción y en rotación interna, la posición de mano-boca estática utilizada por Russo colocaba la articulación GH en aducción y rotación externa. Por lo tanto, aunque hemos obtenido resultados similares a los de Russo, no son comparables.

Por otro lado, hemos estudiado las contracturas posteriores mediante el ángulo pIRABD, ya utilizado en medicina deportiva en posición de pronación y también ya validado en el estudio I (Hodgson F et al., 2018). Los valores promedios reportados en medicina deportiva y posición de pronación oscilan alrededor de los 43° en la extremidad dominante (Wilk K et al., 2009), valores muy similares a los obtenidos en la extremidad no afectada de nuestros pacientes. Sin embargo, los valores medios del ángulo pIRABD obtenidos en nuestro estudio difieren con los valores normales (entre 80° y 90°) reportados por Gharbaoui utilizando la misma técnica en pacientes con PBO (Gharbaoui I et al., 2015). De todas formas, en su estudio no se detallaron la desviación estándar ni los valores del lado lesionado ni del afecto, ni se realizaron estudios de variabilidad intra/ interobservador.

El estudio ha objetivado que los pacientes con PBO desarrollan una pérdida de movilidad pasiva GH posterior, con disminución de los ángulos pIRABD y pCBADD. Y la mayoría (80% aproximadamente) de los pacientes con PBO desarrollan una contractura GH posterior (en rotación externa) de cómo mínimo 10°.

La contractura GH en rotación externa severa se ha relacionado con la cirugía de reducción del hombro en pacientes con PBO (Hultgren T et al., 2013). Hultgren reportó que el 30% de los pacientes a los cuales se les había realizado una cirugía de reducción GH por displasia de hombro secundaria a la PBO requería de una osteotomía humeral derotativa interna debido a una pérdida de la función hacia la línea media de unos 30° de promedio (Hultgren T et al., 2013). Además, Greenhill observó que la reducción quirúrgica abierta GH, la severidad de la parálisis y la mala recuperación motora antes de la cirugía eran factores de riesgo para perder la funcionalidad hacia la línea media posteriormente a cirugías de hombro tras PBO; en cambio, la reducción cerrada, la edad y las transferencias tendinosas no disminuyen la rotación interna ni comprometen la función hacia la línea media (Greenhill A et al., 2018). Sin embargo, Greenhill definió la pérdida de función de la línea media como la inhabilidad para llegar al abdomen con la mano pero, al igual que nuestro estudio, no se evaluaron actividades específicas sobre la línea media como abrocharse la cremallera, los botones o la higiene.

Así pues, el principal beneficio de la medición de la movilidad GH pasiva posterior no es solamente para diagnosticar o cuantificar la contractura posterior, sino sobretudo para evaluar los cambios potenciales tras cirugías sobre el hombro y en definitiva, para una mejor evaluación de los riesgos asociadas al tratamiento quirúrgico en cirugía de PBO.

Al igual que con las otras contracturas GH estudiadas, una de las principales causas de la pérdida de movilidad GH pasiva en los niños afectos de PBO es la aparición de contracturas musculares (Russo S et al., 2015; Hodgson F et al., 2018). Asimismo, los cambios articulares y capsulares que sufren estos pacientes podrían contribuir a la aparición de contracturas en rotación externa. De hecho, como ya se ha comentado anteriormente, la reducción quirúrgica de la luxación GH puede provocar contracturas en rotación externa severas (Hultgren T et al., 2013). Sin embargo, la mayoría de nuestros pacientes no había recibido ninguna cirugía articular anteriormente y, por lo tanto, la aparición de la contractura GH posterior podría explicarse principalmente por la propia contractura muscular debida al crecimiento anormal del músculo (Soldado F et al., 2017; Weekley H et al., 2012).

Tal y como se ha comentado en el resto de contracturas GH, el crecimiento anormal del músculo podría ser consecuencia de una denervación muscular postganglionar (Eismann E et al., 2015; Soldado F et al., 2017; Weekley H et al., 2012), del imbalance muscular o de la presencia de co-contracciones (Gharbaoui I et al., 2015). Nuestros hallazgos en el caso de las contracturas posteriores soporta la teoría de la denervación aferente de las células de los husos musculares (denervación muscular postganglionar), ya que la incidencia de contracturas posteriores medidas con el pCBADD es menor en las lesiones completas, el subgrupo que tiene mayor incidencia de avulsiones de raíces. Sin embargo, estas diferencias no aparecen cuando lo evaluamos con la pIRABD. Esta discrepancia podría ser fortuita del estudio o bien porque hemos analizado la contractura posterior en diferentes partes de la

capsula posterior del hombro. Es decir, la pIRABD podría estar testando la parte inferior de la capsula GH posterior y el músculo redondo menor; mientras que el pCBADD testaría la porción media de la capsula GH posterior y el músculo infraespinoso.

Respecto al tratamiento previamente recibido, los pacientes no operados (con lesiones menos graves y recuperación espontánea) también exhibieron una frecuencia similar de contracturas GH posteriores que los pacientes tratados con microcirugía o procedimientos secundarios sobre el hombro, volviendo a respaldar la teoría de la denervación como origen de las contracturas GH (Weekley H et al., 2012; Soldado et al., 2017; Mascarenhas V et al., 2014).

Tampoco se identificó ninguna correlación entre la edad del paciente y la contracturas posteriores ni la funcionalidad (Mallet), lo que sugiere que esta contractura también se desarrolla dentro de los primeros tres años de vida. A diferencia de las contracturas superiores, no se encontró ninguna relación estadística entre el género y las contracturas posteriores.

Finalmente, la comparativa entre la pIRABD/pCBADD y la funcionalidad de la extremidad evidenció que la presencia de una contractura GH posterior no afecta la funcionalidad total de la extremidad (sumatorio de Mallet), pero si que afecta a la mayoría de categorías de la escala de Mallet, principalmente las categorías

relacionadas con la posición de la extremidad hacia la línea media (mano-espalda y rotación interna), la abducción activa, la rotación externa y la mano-boca. Así pues, la contractura en rotación externa se correlaciona con la pérdida del acceso al abdomen y, por lo tanto, podría condicionar una pérdida de función hacia la línea media. En cambio, la limitación en categorías no relacionadas con la línea media podría deberse a una correlación entre contracturas posteriores y anteriores, aunque no puede establecerse con los datos recogidos en este estudio.

Aunque en la contractura GH posterior se pierda rotación interna GH pasiva, suele compensarse con un exceso de movilidad de la articulación escapulotorácica (Russo S et al., 2015), resultando en un aleteo escapular muy frecuente a la exploración física de la mayoría de niños con PBO. Sin embargo, el objetivo de este estudio no ha sido el análisis de la movilidad escapulotorácica ni la medición del aleteo escapular.

Sin embargo, este estudio II tiene varias limitaciones. Primero, las definiciones clínicas de contractura GH del hombro y abduction lag GH fueron arbitrarias, ya que no existe ninguna referencia bibliográfica previa que determine la mínima diferencia clínicamente significativa para detectar la presencia de contractura GH. Si se hubiera elegido un número mayor a 10°, la frecuencia de contracturas habría disminuido sustancialmente. Otra limitación de este estudio es la heterogeneidad en el patrón de lesión del plexo, los tratamientos recibidos previamente y la edad de los pacientes.

Los aspectos positivos del estudio son la gran cantidad de pacientes analizados y que es el primer estudio de este tipo que evalúa la frecuencia y las características de esta lesión tan común en pacientes con PBO.

8. Conclusiones

8 Conclusiones

El estudio I ha descrito una forma sencilla y reproducible de evaluar el balance articular GH pasivo, ofreciendo referencias anatómicas fidedignas que permiten reducir el error de medición debido a la movilidad excesiva de la articulación escapulotorácica en pacientes con PBO. Además, se han descrito por primera vez los valores basales de las mediciones GH (pGHADD, pGHABD, pIRABD, pCBADD) para tener como referencia durante el estudio de las contracturas GH. También, por primera vez, se ha realizado un estudio de variabilidad intraobservador e interobservador para la medición de la movilidad GH, ofreciendo unos resultados excelentes y buenos de concordancia en todas las mediciones realizadas. Por último, se ha podido concluir que las contracturas GH son muy frecuentes y de carácter multidireccional (superior, inferior y posterior) en la mayoría de los pacientes.

El estudio II ha observado, en una serie de más de 200 niños con PBO, que la mayoría desarrolla una contractura GH inferior (en aducción) y presentan un abduction lag, afectando de forma importante la funcionalidad de la extremidad afectada. Asimismo, la mayoría de niños con PBO presenta contracturas GH posteriores (en rotación externa), que también limitan la movilidad hacia la línea media. Por último, aunque la mayoría de los niños también presenta contracturas

GH superiores (en abducción), estas no suelen afectar la funcionalidad de la extremidad, sino que el principal problema es estético.

Tanto la alteración del crecimiento muscular como el desbalance muscular y las co-contracciones podrían desempeñar un papel en la patogénesis de las contracturas GH. Además, en las contracturas GH inferiores, tanto la debilidad muscular como la aparición de co-contracciones musculares, a parte de la contractura GH inferior, podrían ser responsables de la disminución de la elevación activa del hombro en niños con PBO. Sin embargo, otros factores como la rigidez muscular, la displasia ósea, la patología ligamentosa o la combinación de estas también podrían desempeñar un papel importante.

9. Utilidad práctica



9 Utilidad práctica

Esta tesis doctoral ha confirmado la presencia de contracturas GH en todas las direcciones y ha determinado el grado de implicación de cada contractura en la reducción de la movilidad GH en pacientes con PBO. Esto es de suma importancia ya que permitirá realizar tratamientos rehabilitadores especializados para ganar la movilidad GH pasiva en todas las direcciones y no solamente para tratar la clásica contractura en rotación interna.

Además, el estudio ha demostrado por primera vez la limitación objetiva y los valores de la limitación de la movilidad GH en cada dirección. De esta forma, el estudio apoya al uso de las técnicas rehabilitadores centradas en bloquear la movilidad escapulotorácica compensatoria para potenciar la movilidad GH en los primeros años de vida, para prevenir la aparición de las contracturas GH.

La validación de la técnica de medición del balance articular GH a través de la espina escapular ha permitido definir una técnica reproducible, sencilla y económica que diferencie la movilidad GH de la escapulotorácica y pueda utilizarse durante la exploración clínica habitual en la consulta externa. De esta forma, se favorece una exploración clínica objetiva e, indirectamente, se mejora la indicación quirúrgica de los pacientes con PBO.

Creemos que deberían realizarse futuros estudios que valoren como se modifica la movilidad GH pasiva con las cirugías secundarias, principalmente a nivel del hombro y con principal interés en la pérdida de rotación interna y la función de

la línea media tras las mismas.

Asimismo, al definir los valores absolutos y las desviaciones estándar por primera vez, se trata de un punto de referencia para los próximos estudios científicos centrados en las contracturas GH.

10. Anexos



10 Anexos

10.1 Consideraciones éticas. Conflictos de interés.

El comité de ética local del Hospital San Joan de Déu de Barcelona aprobó el protocolo del estudio clínico, con número del CEIC (Comité de Ética de Investigación Clínica): PIC-107-17. Se detalla a continuación:

Informe Dictamen Favorable
Proyecto Investigación Biomédica
C.I. PIC-107-17
26 de octubre de 2017

Fundació Sant Joan de Déu
CEIC Fundació Sant Joan de Déu

Dr. Pau Ferrer Salvans
Secretario del CEIC Fundació Sant Joan de Déu

CERTIFICA

1º. Que el CEIC Fundació Sant Joan de Déu en su reunión del día 26/10/2017, ha evaluado la propuesta del promotor referida al estudio:
Título: "Relació entre les contractures de l'articulació glenohumeral i la funcionalitat en pacients afectats de paràlisi braquial obstètrica"
Código Interno: PIC-107-17
IP: Sergi Rodríguez Alabau

Considera que:

- El proyecto se plantea siguiendo los requisitos de la Ley 14/2007, de 3 de julio, de Investigación Biomédica y su realización es pertinente.
- Se cumplen los requisitos necesarios de idoneidad del protocolo en relación con los objetivos del estudio y están justificados los riesgos y molestias previsibles para el sujeto.
- Son adecuados tanto el procedimiento para obtener el consentimiento informado como la compensación prevista para los sujetos por daños que pudieran derivarse de su participación en el estudio.
- El alcance de las compensaciones económicas previstas no interfiere con el respeto a los postulados éticos.
- La capacidad de los Investigadores y los medios disponibles son apropiados para llevar a cabo el estudio.

2º. Por lo que este CEIC emite un **DICTAMEN FAVORABLE**.

3º. Este CEIC acepta que dicho estudio sea realizado en los siguientes CEIC/Centros por los Investigadores:

- **HOSPITAL SANT JOAN DE DEU, Sergi Rodríguez Alabau.**

Lo que firmo en Esplugues de Llobregat, a 26 de octubre de 2017

Fdo:

Dr. Pau Ferrer Salvans
Secretario del CEIC Fundació Sant Joan de Déu

Fundació Sant Joan de Déu - c/ Sant Joan, 39-57, 08920 Esplugues de Llobregat / Barcelona
Telèfon +34 93 400 01 90 Fax +34 93 400 07 71 - email: info@sjd.org - info@sjd.cat

Declaramos que el investigador principal ni ninguno de los colaboradores tenemos conflictos de interés relacionados con el estudio.

Tesis doctoral – Sergi Alabau Rodríguez

10.2 Hojas de información al paciente

Todos los pacientes y familiares fueron informados y recibieron dos hojas de información al paciente por escrito según la declaración de Helsinki sobre la investigación biomédica tal y cómo se detalla a continuación:



ESTUDIO
Relación entre las contracturas glenohumorales y la funcionalidad en pacientes afectos de parálisis braquial obstétrica.

HOJA DE INFORMACIÓN AL PACIENTE

Este documento es para su información. Por favor léalo detenidamente, y pregunte cualquier duda que le surja. Usted puede leer este documento y preguntar lo que desee, sin que por ello esté obligado a participar en el estudio.

1. ¿ CUÁL ES EL OBJETIVO DEL ESTUDIO?

Usted ha sido seleccionado como candidato para participar voluntariamente en un estudio sobre las contracturas glenohumorales y la funcionalidad del hombro en pacientes afectos de parálisis braquial obstétrica unilateral. Dicho estudio no presenta ningún tipo de financiación y su investigador principal es el Dr. Sergi Rodríguez Alabau, juntamente con el Dr Francisco Soldado Carrera Y el Dr Sergio Barrera Ochoa.

En este estudio se pretende describir la incidencia de contracturas glenohumorales en el brazo afecto de los pacientes con parálisis braquial obstétrica, con el objetivo de demostrar si dichas contracturas se producen en todas las direcciones y, principalmente en adducción y rotación interna. Además, se pretende validar un método de medición del balance articular glenohumeral, que sea fiable, y no dependa del balance articular escapulotorácico, mediante un estudio intra e interobservador.

Por último, se pretende correlacionar la presencia de contracturas glenohumorales con la funcionalidad de la extremidad, para intentar diseñar un protocolo de rehabilitación más especializado y obtener una mejor recuperación a largo plazo.

Las conclusiones de este estudio nos permitirán determinar la implicación de las contracturas glenohumorales en la reducción de la movilidad en pacientes afectos de parálisis braquial obstétrica. Si se confirman las contracturas en todas las direcciones, se podrá diseñar un protocolo de rehabilitación más especializado y técnicas con bloqueo de la articulación escapulotorácica, si se demuestra un exceso de movilidad de ésta última. Asimismo, si conseguimos unos resultados favorables, podremos utilizar un nuevo sistema de mediciones válido, reproducible y económico, que ayudaría a conocer la limitación específica causada por la contractura glenohumeral.

2. METODOLOGÍA:

Se seleccionarán pacientes entre 4 y 17 años, diagnosticados de parálisis braquial obstétrica, con afectación unilateral. Se excluirán pacientes con afectación bilateral y/o afectos de otras enfermedades musculares, que podrían enmascarar los resultados del estudio.

El estudio durará dos años, con visitas de control periódicas, siguiendo el protocolo de rutina del hospital para pacientes con parálisis braquial obstétrica. No se requiere un mayor seguimiento ni comporta ningún cambio en el tratamiento, indicaciones de cirugía ni medicación de los pacientes. En caso de que no pueda asistir a una visita de seguimiento programada, es importante que contacte con su médico cuanto antes para que pueda programarle otra visita en el tiempo especificado por el estudio. Durante las visitas de seguimiento se realizaran las mediciones rutinarias del hospital, valorado la funcionalidad mediante la escalera de Mallet y BPOM (Braquial Plexus Outcome Measure). Asimismo durante dos visitas de seguimiento consecutivas,

se cuantificará la abducción activa y pasiva, la aducción, el cross –body en adducción y la rotación interna en abducción. Dichas medidas se realizarán dos veces seguidas, por tres médicos especialistas, para determinar la presencia de contracturas en todas las direcciones y para validar el estudio intra e interobservador.

3. BENEFICIOS:

El estudio es solamente descriptivo y no se realizarán cambios respecto a la estrategia de tratamiento y el manejo de los pacientes durante el estudio. Sin embargo, la información obtenida del estudio puede contribuir a una mejoría en las estrategias terapéuticas, consiguiendo unos protocolos de rehabilitación más especializados y con mejores resultados en el proceso de recuperación a largo plazo.

4. INCOMODIDADES Y RIESGOS:

Su participación no comporta ningún riesgo. No se modificará el tipo de tratamiento, las indicaciones de cirugía y no se dará ningún fármaco complementario. Tampoco se cambiará el protocolo de rehabilitación.

Solamente requerirá unos 15 minutos de demora en dos de las visitas, para realizar dos mediciones, realizadas por tres médicos especialistas, tanto del brazo afectado como del contralateral.

5. CARÁCTER VOLUNTARIO DE SU PARTICIPACIÓN Y TERMINACIÓN DEL ESTUDIO:

Su participación en el estudio es de carácter totalmente voluntario. Si decide participar, recibirá esta hoja de información para que la conserve y se le pedirá que firme un formulario de consentimiento.

Usted puede negarse a participar y puede retirarse del estudio en cualquier momento sin necesidad de explicar sus motivos, y sin que por ello se altere la relación con su médico ni se produzca perjuicio en su tratamiento. Si usted decide interrumpir su participación en el estudio puede hacerlo notificando su decisión al profesional que le atiende.

El equipo asistencial que le atiende, por su parte, también podrá interrumpir su participación en el estudio si, una vez efectuada la exploración inicial no se considerara un candidato apropiado para poder ser incluido en el mismo, en función de los criterios de inclusión/exclusión.

6. TRATAMIENTO DE LOS DATOS:

Los datos obtenidos a lo largo del estudio serán confidenciales y únicamente estarán a disposición del grupo de investigadores del mismo. Según la Ley Orgánica 15/1999, del 13 de diciembre, el consentimiento para el tratamiento de sus datos personales y para su cesión es revocable. Usted puede ejercer el derecho de acceso, rectificación y cancelación dirigiéndose a los investigadores Dr Francisco Soldado Carrera, Dr Sergio Barrera Ochoa o Dr Sergi Rodríguez Alabau.

Por favor, no dude en preguntar a su médico cualquier duda o pregunta que tenga.

Si usted decide participar en el estudio, firme el formulario siguiente, en el que se dice que se le ha explicado y que usted entiende toda la información escrita que se le ha proporcionado sobre el estudio.

10.3 Hoja de consentimiento informado

Todos los familiares (los pacientes eran todos menores de edad) signaron un consentimiento informado, según la declaración de Helsinki sobre la investigación biomédica, tal y cómo se detalla a continuación:


HOSPITAL MATERNODINFANTIL
UNIVERSITAT DE BARCELONA

CONSENTIMIENTO INFORMADO DEL PACIENTE

Título del estudio:
"Relación entre las contracturas glenohumerales y la funcionalidad en pacientes afectos de parálisis braquial obstétrica."

Yo.....(nombre y apellidos)

- he hablado con: Dr F.Soldado / S. Barrera / S. Rodríguez Alabau.
- he leído la hoja de información que se me ha entregado,
- he podido hacer preguntas sobre el estudio
- he recibido suficiente información al respecto

Comprendo que mi participación es voluntaria.

Comprendo que puedo retirarme del estudio:

- cuando quiera
- sin tener que dar explicaciones
- sin que esto repercuta en mis cuidados médicos.

Soy consciente de que, al participar en el estudio se recogerán y procesarán datos de mi persona. Estos datos son totalmente confidenciales y estarán protegidos según lo establecido en la Ley Orgánica 15/1999 de 13 de Diciembre de Protección de Datos de Carácter Personal.

Presto libremente mi conformidad para participar en el estudio.

Firma del paciente:_____ Fecha:_____

Firma del investigador:_____ Fecha:_____

11. Bibliografía



11 Bibliografía

- Abzug JM, Chafetz RS, Gaughan JP, Ashworth S, Otr L, Kozin SH. Shoulder function after medial approach and derotational humeral osteotomy in patients with brachial plexus birth palsy. *J Pediatr Orthop*. 2010, 30:469–47430.
- Abzug J, Kozin S, Waters P. Open glenohumeral joint reduction and latissimus dorsi and teres major tendon transfers for infants and children following brachial plexus palsy. *Tech Hand Up Extrem Surg*. 2017, 21:30-6.
- Adelson PD, Nystrom NA, Sclabassi R. Entrapment neuropathy contributing to dysfunction after birth brachial plexus injuries. *J Pediatr Orthop*. 2005, 25:592-7.
- Adler JB, Patterson RL Jr. Erb's palsy. Long-term results of treatment in eighty-eight cases. *J Bone Joint Surg Am*. 1967, 49:1052-64.
- Alfonso DT. Causes of neonatal brachial plexuspalsy. *Bull NYU Hosp Jt Dis* 2011;69(1):11–6.
- Al-Qattan MM, Clarke HM, Curtis CG. Klumpke's birth palsy. Does it really exist? *J Hand Surg [Br]*. 1995, 20:19-23.
- Al-Qattan MM, Thomson HG. Congenital varicella of the upper limb: a preventable disaster. *J Hand Surg [Br]*. 1995, 20:115-117.
- Al-qattan BYMM. Obstetric brachial plexus injuries establishing a multidisciplinary birth. 2003, 3(1):41-54.
- Al-Qattan MM. Elbow flexion reconstruction by Steindler flexorplasty in obstetric brachial plexus palsy. *J Hand Surg Edinb Scotl*. 2005, 30:424–427

- Amrani A, Dendane MA, El Alami ZF. Pronator teres transfer to correct pronation deformity of the forearm after an obstetrical brachial plexus injury. *J Bone Joint Surg Br.* 2009, 91:616–618.
- Anguelova GV, Vlugt E De, Vardy AN, et al. Cocontraction measured with short-range stiffness was higher in obstetric brachial plexus lesions patients compared to healthy subjects. *J Biomech.* 2017, 63:192-196.
- Azab AA, Alsabbahi MS. Bipolar transfer of latissimus dorsi myocutaneous flap for restoration of elbow flexion in late traumatic brachial plexus injury: evaluation of 13 cases. *Ann Plast Surg.* 2017, 78(2):198–201.
- Bahm J, Ocampo-Pavez C. Free functional gracilis muscle transfer in children with severe sequelae from obstetric brachial plexus palsy. *J Brachial Plex Peripher Nerve Inj.* 2008, 3:23.
- Bauer AS, Shen PY, Nidecker AE, Lee PS, James MA. Neonatal Magnetic Resonance Imaging Without Sedation Correlates With Injury Severity in Brachial Plexus Birth Palsy. *J Hand Surg Am.* 2017, 42(5):335-343.
- Berry PO, Brown M, Phillips L, Evans SH. Obstetrical Brachial Plexus Palsy. *Curr Probl Pediatr Adolesc Health Care.* 2017, 47(7);151-155.
- Bertelli JA. Brachialis muscle transfer to the forearm muscles in obstetric brachial plexus palsy. *J Hand Surg Edinb Scotl.* 2006, 31:261– 265.
- Bertelli, JA., Ghizoni, MF. Nerve root grafting and distal nerve transfers for C5-C6 brachial plexus injuries. *J Hand Surg Am,* 2010; 35: 769-775.

- Birch R, Booney G, Wynn Parry C. Surgical Disorders of the Peripheral Nerves. London, Churchill Livingstone, 1998:209–233 23.
- Birch R. Surgical disorders of the peripheral nerves, 2nd edn. London, Springer, 2011.
- Bourseul J, Molina A, Lintanf M, et al. Early Botulinum Toxin Injections in Infants with Musculoskeletal Disorders: A Systematic Review of Safety and Effectiveness. Arch Phys Med Rehabil. 2017, 99(6):1160-1176.
- Brogan DM, Leversdege FJ. Surgical technique and anatomical considerations for the modified l'Episcopo Tendon Transfer. Hand. 2019, 14:34-41.
- Brunnelli GA, Brunelli GR. A fourth type of brachial plexus lesion: the intermediate (C7) palsy. J Hand Surg [Br]. 1991, 16:492-494.
- Cambon-Binder A, Walch A, Marcheix PS, Belkheyar Z. Bipolar transfer of the pectoralis major muscle for restoration of elbow flexion in 29 cases. J Shoulder Elbow Surg. 2018, 27(11):330–336.
- Chauhan SP, Rose CH, Gherman RB, Magann EF, Holland MW, Morrison JC. Brachial plexus injury: a 23 year experience from a tertiary center. Am J Obstet Gynecol. 2005, 192:1795-802.
- Chuang DC, Lee GW, Hashem F, Wei FC. Restoration of shoulder abduction by nerve transfer in avulsed brachial plexus injury: evaluation of 99 patients with various nerve transfers. Plast Reconstr Surg. 1995, 96:122– 128.
- Chuang DC. Neurotization procedures for brachial plexus injuries. Hand Clin. 1995, 11:633–645.

- Chuang DC, Hattori Y, Ma And HS, Chen HC. The reconstructive strategy for improving elbow function in late obstetric brachial plexus palsy. *Plast Reconstr Surg.* 2002, 109(1):116–126.
- Clarke HM, Al-Qattan MM, Curtis CG, Zuker RM. Obstetrical brachial plexus palsy: results following neurolysis of conducting neuromas-in-continuity. *Plast Reconstr Surg.* 1996, 97:974– 982.
- Clarke HM, Cutis CG. An approach to obstetrical brachial plexus injuries. *Hand Clin.* 1995, 11:563-580.
- Colbert SH, Mackinnon S. Posterior Approach for Double Nerve Transfer for Restoration of Shoulder Function in Upper Brachial Plexus Palsy. *Hand.* 2006, 1(2):71-7.
- Degliute R, Pranckevicius S, Cekanauskas E, Buinauskiene J, Kalesinskas RJ. Treatment of early and late obstetric brachial plexus palsy. *Medicina (Kaunas).* 2004, 40:358–362.
- DeMatteo C, Bain JR, Galea V, Gjertsen D. Botulinum toxin as an adjunct to motor learning therapy and surgery for obstetrical brachial plexus injury. *Dev Med Child Neurol.* 2006, 48:245–52.
- Doi K, Kuwata N, Muramatsu K, Hattori Y, Kawai S. Double muscle transfer for upper extremity reconstruction following complete avulsion of the brachial plexus. *Hand Clin.* 1999, 15(4):757-67.
- Donnelly V, Foran A, Murphy J, McParland P, Keane D, O’Herlihy C. Neonatal brachial plexus palsy: an unpredictable injury. *Am J Obstet Gynecol.* 2002,

187:1209-1212.

- Duchenne GBA. De l'électrisation Localisée et de Son Application a La Pathologie et a La Therapeutique. 3rd ed. Paris: JBailliere et Fils, 1872, 3:357-462.
- Duclos L, Gilbert A. Restoration of wrist extension by tendon transfer in cases of obstetrical brachial plexus palsy. Ann Chir Main Memb Supér Organe Off Sociétés Chir Main Ann Hand Up Limb Surg. 1999, 18:7–12.
- Duff SV, Dayanidhi S, Kozin SH. Asymmetrical shoulder kinematics in children with brachial plexus birth injury. Clin Biomech. 2007, 22(6): 630-638.
- Edwards TB, Baghian S, Faust DC, Willis RB. Results of latissimus dorsi and teres major transfer to the rotator cuff in the treatment of Erb's palsy. J Pediatr Orthop. 2000, 20:375–379.
- El-Sayed AAF, Al-Qattan MM, Clarke HM, Curtis CG. Incidence of Klumpke's birth palsy: comparison between two decades. Can J Plast Surg. 1996, 4:111-113.
- Egloff D, Raffoul W, Bonnard C, Stalder J. Palliative surgical procedures to restore shoulder function in obstetric brachial palsy. Hand Clin. 1995, 11:597-606.
- Einarsson F, Hultgren T, Ljung BO, Runesson E, Friden J. Subscapularis muscle mechanics in children with obstetric brachial plexus palsy. J Hand Surg Eur Vol. 2008, 33:507-12.
- Eismann E, Little K, Laor T, Cornwall R. Glenohumeral abduction contracture in children with unresolved neonatal brachial plexus palsy. J Bone Joint Surg Am. 2015, 97:112-8.

- Erb W. Über eine Eigentümliche Lokalisation Von Lahmungen im Plexusbrachialis, Verhandl Naturhist Med Vereins. Heidelberg: Carl Winters' Universitates Buchhandlung, 1874, 1:130-136.
- Ezaki M, Malungpaishrope K, Harrison RJ, Mills JK, Oishi SN, Delgado M, et al. On a botulinum toxin A injection as an adjunct in the treatment of posterior shoulder subluxation in neonatal brachial plexus palsy. J Bone Joint Surg Am. 2010, 92:2171–177.
- Foad SL, Mehlman CT, Ying J. The Epidemiology of Neonatal Brachial. J Bone Joint Surg Am. 2008, 90(6):1258-1264.
- Gerdhart JJ, Rondinelli RD. Goniometric techniques for range-of-motionassessment. Phys Med Rehabil Clin N Am. 2001, 12:507-27.
- Gharbaoui I, Gogola G, Aaron D, Kozin S. Perspectives on glenohumeral joint contractures and shoulder dysfunction in children with perinatal brachial plexus palsy. J Hand Ther. 2015, 28:176-84.
- Gilbert A, Tassin JL. Surgical repair ofthe brachial plexus in obstetric paralysis. Chir Mém Académie Chir. 1984,110:70–75
- Gilbert A, Tassin JL. Obstetrical palsy: a clinical, pathological and surgical review. In: Terzis JK, ed. Micro-Reconstruction of Nerve Injuries. Philadelphia, WB Saunders, 1987:529.
- Gilbert A, Romana C, Ayatti R. Tendon transfers for shoulder paralysis in children. Hand Clin. 1988, 4:633–642.

- Gilbert A. Obstetrical brachial plexus palsy. In: Tubiana R, ed. The Hand. Vol. 4. Philadelphia, WBSaunders, 1993: 575-601.
- Gilbert A, Valbuena S, Posso C. Obstetrical brachial plexus injuries: late functional results of the Steindler procedure. J Hand Surg Eur Vol. 2014, 39:868–875.
- Gonik B, Hollyer VL, Allen R. Shoulder dystocia recognition: differences in neonatal risks for injury. Am J Perinatol. 1991, 8:31-34.
- Greenhill A, Trionfo A, Ramsey F, Kozin S, Zlotolow D. Postoperative loss of midline function in brachial plexus birth palsy. J Hand Surg Am. 2018, 43:565-566.
- Greenwald AG, Schute PC, Shiveley JL. Brachial plexus birth palsy: a 10-year report on the incidence and prognosis. J Pediatr Orthop. 1984, 4:689-692.
- Gurewitsch ED, Johnson E, Hamzehzadeh S, Allen RH. Risk factors for brachial plexus injury with and without shoulder dystocia. Am J Obstet Gynecol. 2006, 194:486-492.
- Haerle M, Gilbert A. Management of complete obstetric brachial plexus lesions. J Pediatr Orthop. 2004, 24:194–200.
- Hale HB, Bae DS, Waters PM. Current concepts in the management of brachial plexus birth palsy. J Hand Surg Am. 2010, 35A(2):322–31.
- Heise CO, Siqueira MG, Martins RS, Gherpelli JL. Clinical-electromyography correlation in infants with obstetric brachial plexopathy. J Hand Surg Am. 2007, 32(7):999-1004.

- Hoeksma AF, Ter Steeg AM, Dijkstra P, Nelissen RG, Beelen A, de Jong BA. Shoulder contracture and osseous deformity in obstetrical brachial plexus injuries. *J Bone Joint Surg Am.* 2003, 85-A(02):316–322.
- Hoeksma A, ter Steeg A, Neilssen R, van Ouwkerk W, Lankhorst G, de Jong BA. Neurological recovery in obstetric brachial plexus injuries: an historical cohort study. *Dev Med Child Neurol.* 2004, 46:76-83.
- Hogendoorn S, van Overvest KL, Watt I, Duijsens AH, Nelissen RG. Structural changes in muscle and glenohumeral joint deformity in neonatal brachial plexus palsy. *J Bone Joint Surg Am.* 2010, 92:935-42.
- Hou Z, Xu Z. Nerve transfer for treatment of brachial plexus injury: comparison study between the transfer of partial median and ulnar nerves and that of phrenic and spinal accessory nerves. *Chin J Traumatol.* 2002, 5: 263-266.
- Hultgren T, Einarsson F, Runesson E, Hemlin C, Fridon J, Ljung BO. Structural characteristics of the subscapularis muscle in children with medial rotation contracture of the shoulder after obstetric brachial plexus injury and shoulder contracture after NBPP plexus injury. *J Hand Surg Eur Vol.* 2010, 35:23-28.
- Hultgren T, Jönsson K, Pettersson H, Hammarberg H. Surgical Correction of a Rotational Deformity of the Shoulder in Patients With Obstetric Brachial Plexus Palsy: Short-term Results in 270 Patients. *Bone Joint J.* 2013, 95-B(10):1432-1438.
- Iorio ML, Menashe SJ, Iyer RS, et al. Glenohumeral dysplasia following neonatal brachial plexus palsy: presentation and predictive features during infancy. *J Hand Surg Am.* 2015, 40(12): 2345–2351.

- Johnson EO, Troupis T, Michalinos A, Dimovelis J, Soucacos PN. Obstetrical brachial plexus palsy: lessons in functional neuroanatomy. *Injury* 2013, 44:293–8.
- Kirkos JM, Papadopoulos IA. Late treatment of brachial plexus palsy secondary to birth injuries: rotational osteotomy of the proximal part of the humerus. *J Bone Joint Surg Am.* 1998, 80:1477-1483.
- Klumpke A. Contribution a l'étude des paralysies radicularies du plexus brachial. *Rev Med.* 1885, 5:591-616.
- Kozin SH. Correlation between external rotation of the glenohumeral joint and deformity after brachial plexus birth palsy. *J Pediatr Orthop.* 2004, 24:189-193.
- Kozin SH. The evaluation and treatment of children with brachial plexus birth palsy. *J Hand Surg Am.* 2011, 36(8):1360-1369.
- Laurent JP, Lee R, Shenag S, et al. Neurosurgical correction of the upper brachial plexus birth injuries. *J Neurosurg.* 1993;79:197-203.
- Liebolt FL, Furey JG. Obstetrical paralysis with dislocation of the shoulder. *J Bone Joint Surg Am.* 1953, 35-A:227-230.
- L'Episcopo JB. Restoration of muscle balance in the treatment of obstetrical paralysis. *N Y State J Med.* 1939, 39:336–357.
- Li Z, Ma J, Apel P, Smith TL, Koman LA. Brachial plexus birth palsy- associated shoulder deformity: a rat model study. *J Hand Surg Am.* 2008, 33:308-312.
- Llusá M, Palazzi S, Valer A. Anatomía quirúrgica del plexo braquial y de los nervios periféricos de la extremidad superior. Madrid, Editorial Médica Panamericana, 2013.

- Lurje A. On the use of n. musculocutaneous for neurotization on n. radialis in cases of very large defects of the latter. *Ann Surg.* 1948, 128(1):110-115.
- MacKinnon SE. *Nerve surgery*, 1st edn. New York, Thieme Medical Publishers Inc, 2015.
- Malessy MJA, Pondaag W, van Dijk JG. Electromyography, nerve action potential, and compound motor action potentials in obstetric brachial plexus lesions: validation in the absence of a gold standard. *Neurosurgery.* 2009, 65:153–159.
- Mallet J. Obstetrical paralysis of the brachial plexus. II. Therapeutics. Treatment of sequelae. Priority for the treatment of the shoulder. Method for the expression of results. *Rev Chir Orthop Reparatrice Appar Mot.* 1972, 58:166-168.
- Martin JA, Hamilton BE, Sutton PD, Ventura SJ, Menacker F, Kirmeyer S. Births: final data for 2004. *Natl Vital Stat Rep.* 2006, 55:1-101.
- Mascarenhas V, Casaccia M, Fernandez-martin A, et al. The Role of Subscapularis Muscle Denervation in the Pathogenesis of Shoulder Internal Rotation Contracture after Neonatal Brachial Plexus Palsy :a Study in a Rat Model. 2014,32:1675-1679.
- Michaud LJ, Loudon EJ, Lippert WC, Allgier AJ, Foad SL, Mehlman CT. Use of botulinum toxin type A in the management of neonatal brachial plexus palsy. *PM R.* 2014, 6:1107–1119.
- Miller SF, Glasier CM, Griebel ML, et al. Brachial plexopathy in infants after traumatic delivery: evaluation with MR imaging. *Radiology.* 1993, 189:481-486.
- Mollberg M, Hagberg H, Bager B, Lilja H, Ladfors L. High birthweight and shoulder dystocia: the strongest risk factors for obstetrical brachial plexus palsy in

- a Swedish population-based study. *Acta Obstet Gynecol Scand.* 2005, 84:654-659.
- Murabit A, Gnarr M, O'Grady K, et al. Functional outcome after the Hoffer procedure. *Plast Reconstr Surg.* 2013, 131:1300–1306.
 - Narakas AO. Injuries to the brachial plexus. In: Bora FW, ed. *The Pediatric Upper Extremity: Diagnosis and Management.* Philadelphia, WB Saunders, 1986:247.
 - Narakas AO. Obstetrical brachial plexus injuries. In: Lamb DW, ed. *The Paralyzed Hand. The Hand and Upper Limb. Vol. 2.* Edinburgh, Churchill Livingstone, 1987:116.
 - Nath R, Liu X, Melcher S, Fan J. Long-term outcomes of triangle tilt surgery for obstetric brachial plexus injury. *Pediatr Surg Int.* 2010, 26:393-399.
 - Nikolaou S, Peterson E, Kim A, Wylie C, Cornwall R. Impaired growth of denervated muscle contributes to contracture formation following neonatal brachial plexus injury. *J Bone Joint Surg Am.* 2011, 93:461-470.
 - Nikolaou S, Hu L, Cornwall R. Afferent innervation, muscle spindles, and contractures following neonatal brachial plexus injury in a mouse model. *J Hand Surg Am.* 2015, 40(10):2007-2016.
 - Nixon M, Trail I. Management of shoulder problems following obstetric brachial plexus injury. *Shoulder Elbow.* 2014, 6(01):12–17.
 - Nocon JJ, McKenzie DK, Thomas LJ, Hansell RS. Shoulder dystocia: an analysis of risks and obstetric maneuvers. *Am J Obstet Gynecol.* 1993, 168:1732-1739.

- Oberlin C, Béal D, Leechavengvongs S, et al. Nerve transfer to biceps muscle using a part of ulnar nerve for C5-C6 avulsion of the brachial plexus: anatomical study and report of four cases. *J Hand Surg.* 1994, 19:232–237.
- Oka K, Murase T, Tanaka H, Kawabata H. The morphologic change of the elbow with flexion contracture in upper obstetric brachial plexus palsy. *J Shoulder Elbow Surg.* 2019, 1764-1770.
- Oleszek JL, Chang N, Apkon SD, Wilson PE. Botulinum toxin type a in the treatment of children with congenital muscular torticollis. *Am J Phys Med Rehabil.* 2005, 84:813– 816.
- Ozben H, Atalar AC, Bilsel K, Demirhan M. Transfer of latissimus dorsi and teres major tendons without subscapularis release for the treatment of obstetrical brachial plexus palsy sequela. *J Shoulder Elb Surg Am.* 2011, 20:1265–1274.
- Pagnotta A, Haerle M, Gilbert A. Long-term results on abduction and external rotation of the shoulder after latissimus dorsi transfer for sequelae of obstetric palsy. *Clin Orthop Relat Res.* 2004, (426):199-205.
- Pascual-Pascual SI, Pascual-Castroviejo I. Safety of botulinum toxin type A in children younger than 2 years. *Eur J Paediatr Neurol Soc.* 2009, 13:511–515.
- Pearl ML, Edgerton BW. Glenoid deformity secondary to brachial plexus birth palsy. *J Bone Joint Surg Am.* 1998, 80(05):659–667.
- Pearl ML. Shoulder problems in children with brachial plexus birth palsy: evaluation and management. *J Am Acad Orthop Surg.* 2009, 17(04):242–254.

- Phipps GJ, Hoffer MM. Latissimus dorsi and teres major transfer to rotator cuff for Erb's palsy. *J Shoulder Elb Surg Am.* 1995, 4:124–129.
- Pondaag W, Malessy MJA. The evidence for nerve repair in obstetric brachial plexus palsy revisited. *BioMed Res Int.* 2014: 434619.
- Pöyhiä TH, Nietosvaara YA, Remes VM, Kirjavainen MO, Peltonen JI, Lamminen AE. MRI of rotator cuff muscle atrophy in relation to glenohumeral joint incongruence in brachial plexus birth injury. *Pediatr Radiol.* 2005, 35:402–409.
- Price AE, Grossman JA. A management approach for secondary shoulder and forearm deformities following obstetrical brachial plexus injury. *Hand Clin.* 1995, 11(4):607–617.
- Putti V. Analisi della triada radiosintomatica degli stati di prelussazione. *Chir Organi Mov.* 1932, 17:453-459.
- Robla-Costales J, Socolovsky M, Di Masi G, et al. Nerve Reconstruction Techniques in Traumatic Brachial Plexus Surgery. Part 2: Intraplexal nerve transfers. *Neurocirugia.* 2011, 22(6):521-534.
- Rogers MH. An operation for the correction of the deformity due to “obstetrical paralysis”. *Boston Med Surg J.* 1916, 174:163-164.
- Rollnik JD, Hierner R, Schubert M, et al. Botulinum toxin treatment of cocontractions after birth-related brachial plexus lesions. *Neurology.* 2000, 55(1):112-114.
- Ross D, Jones HR, Fischer J, Konkol RJ. Isolated radial nerve lesion in the newborn. *Neurology.* 1983, 33:1354-1356.

- Russo S, Kozin S, Zlotolow D, Thomas K, Hulbert R, Mattson J, et al. Scapulothoracic and glenohumeral contributions to motion in children with brachial plexus birth palsy. *J Shoulder Elbow Surg.* 2014, 23:327-338.
- Russo S, Loeffler B, Zlotolow D, Kozin S, Richards J, Ashworth S. Limited glenohumeral cross-body adduction in children with brachial plexus birth palsy: a contributor to scapular winging. *J Pediatr Orthop.* 2015, 35:240-245.
- Sabapathy R, Bhardwaj P, Venkatramani H. Value of soft tissue release procedure around the shoulder to improve shoulder abduction in birth brachial plexus palsy and analysis of the factors affecting outcome. *J Hand Surg Asian Pac Vol.* 2017, 22:174-183.
- Saha AK. Surgery of the paralyzed and flail shoulder. *Acta Orthop Scand Suppl.* 1967, 97:5–90.
- Shah A, Kalish L, Bae D et al. Treatment and Outcomes of Brachial Plexus Injuries (TOBI) Study Group. Early Predictors of Microsurgical Reconstruction in Brachial Plexus Birth Palsy. *Iowa Orthop J.* 2019, 39(1):37-43.
- Seddon HJ. Nerve Grafting. *J Bone Joint Surg Br.* 1963, 45:447-461.
- Semaya AE, El-Nakeeb R, Hasan M, Shams A. Intercostal Nerve Transfer in Management of Biceps and Triceps Cocontraction in Spontaneously Recovered Obstetric Brachial Plexus Palsy. *Ann Plast Surg.* 2019, 83(4):447-451.
- Simic V, Savic A, Jovanovic M, et al. Nerve Grafting versus Common Infraclavicular Intraplexal Nerve Transfer in Elbow Flexion Restoration. *Turk Neurosurg.* 2018, 28(4):636-644.

- Sjoberg K, Erichs K, Bjerre I. Cause and effect of obstetric (neonatal) brachial plexus palsy. *Acta Paediatr Scand.* 1988, 77:357-64.
- Smellie W. A collection of cases and observations in midwifery. Vol. 3. London, Wilson and Durham, 1764:504-505.
- Socolovsky M, Costales JR, Paez MD, Nizzo G, Valbuena S, Varone E. Obstetric brachial plexus palsy: reviewing the literature comparing the results of primary versus secondary surgery. *Childs Nerv Syst.* 2016, 32(3):415-25.
- Soldado F, Kozin S. The relationship between the coracoid and glenoid after brachial plexus birth palsy. *J Pediatr Orthop.* 2005, 5:666-670.
- Soldado F, Fontecha CG, Marotta M, et al. The role of muscle imbalance in the pathogenesis of shoulder contracture after neonatal brachial plexus palsy: a study in a rat model. *J Shoulder Elbow Surg.* 2014, 23(07):1003–1009.
- Strecker WB, McAllister JW, Manske PR, et al. Sever- L'episcopo transfers in obstetrical palsy: a retrospective review of twenty cases. *J Pediatr Orthop.* 1999, 10:442–444.
- Terzis JK, Vekris MD, Okajima S, Soucacos PN. Shoulder deformities in obstetric brachial plexus paralysis: a computed tomography study. *J Pediatr Orthop.* 2003, 23(2):254–260.
- Terzis JK, Kostas I. Outcomes with suprascapular nerve reconstruction in obstetrical brachial plexus patients. *Plast Reconstr Surg.* 2008, 121:1267–1278.
- Terzis JK, Kokkalis ZT. Outcomes of secondary shoulder reconstruction in obstetrical brachial plexus palsy. *Plast Reconstr Surg.* 2008, 122:1812–1822.

- Troum S, Floyd WE, Waters PM. Posterior dislocation of the humeral head in infancy associated with obstetrical paralysis. A case report. *J Bone Joint Surg Am.* 1993, 75:1370-1375.
- Ubuchs JMH, Slooff ACJ, Peeters SLLH. Obstetric antecedents of surgically treated obstetric brachial plexus injuries. *Br J Obstet Gynaecol.* 1995,102:513-517.
- van der Sluijs JA, van Ouwerkerk WJ, de Gast A, Wuisman PI, Nollet F, Manoliu RA. Deformities of the shoulder in infants younger than 12 months with an obstetric lesion of the brachial plexus. *J Bone Joint Surg Br.* 2001, 83(04):551–555.
- van Dijk JG, Pondaag W, Malessy MJ. Obstetric lesions of the brachial plexus. *Muscle Nerve.* 2001, 24(11):1451-1461.
- van Eesbeek S, de Groot JH, van der Helm FC, de Vlugt E. In vivo estimation of the short-range stiffness of cross-bridges from joint rotation. *J Biomech.* 2010, 43(13):2539-2547.
- Van Egmond C, Tonino AJ, Kortleve JW. Steindler flexorplasty of the elbow in obstetric brachial plexus injuries. *J Pediatr Orthop.* 2001, 21:169–173.
- van Gelein Vitringa VM, van Kooten EO, Mullender MG, van Doorn- Loogman MH, van der Sluijs JA. An MRI study on the relations between muscle atrophy, shoulder function and glenohumeral deformity in shoulders of children with obstetric brachial plexus injury. *J Brachial Plex Peripher Nerve Inj.* 2009, 4:9.
- van Gelein Vitringa VM, Jaspers R, Mullender M, Ouwerkerk WJ, Van Der Sluijs JA. Early effects of muscle atrophy on shoulder joint development in infants with unilateral birth brachial plexus injury. *Dev Med Child Neurol.* 2011, 53:173-178.

- van Ouwerkerk WJ, van der Sluijs JA, Nollet F, Barkhof F, Slooff AC. Management of obstetric brachial plexus lesions: state of the art and future developments. *Childs Nerv Syst.* 2000, 16:638-644.
- Vredeveld JW. Clinical neurophysiological investigations. In: Gilbert A, ed. *Brachial plexus injuries.* London, United Kingdom: Martin-Dunitz, 2001:42.
- Waters PM. Obstetric brachial plexus injuries: evaluation and management. *J Am Acad Orthop Surg.* 1997, 5:205-214.
- Waters PM, Smith GR, Jaramillo D. Glenohumeral deformity secondary to brachial plexus birth palsy. *J Bone Joint Surg Am.* 1998, 80:668-677.
- Waters P. Comparison of the natural history, the outcome of microsurgical repair, and the outcome of operative reconstruction in brachial plexus birth palsy. *J Bone Joint Surg Am.* 1999, 81:649-659.
- Waters PM, Bae DS. The effect of derotational humeral osteotomy on global shoulder function in brachial plexus birth palsy. *J Bone Joint Surg Am.* 2006, 88(5):1035–1042.
- Waters PM, Monica JT, Earp BE, Zurakowski D, Bae DS. Correlation of radiographic muscle cross-sectional area with glenohumeral deformity in children with brachial plexus birth palsy. *J Bone Joint Surg Am.* 2009, 91(10):2367–2375.
- Weekley H, Nikolaou S, Hu L, Eismann E, Wylie C, Cornwall R. The effects of denervation, reinnervation, and muscle imbalance on functional muscle length and elbow flexion contracture following neonatal brachial plexus injury. *J Orthop Res.* 2012, 30(8):1335-1342.

- Wilk K, Reinold M, Macrina L, Porterfield R, Devine K, Suarez K, et al. Glenohumeral internal rotation measurements differ depending on stabilization techniques. *Sports Health*. 2009, 1:131-136.
- Wood, MB. Hand intrinsic muscle reanimation by transfer of the distal portion of the anterior interosseous nerve. *J Am Soc Surg Hand*. 2004, 20:227-230.
- Yang LJ-S. Neonatal brachial plexus palsy-management and prognostic factors. *Semin Perinatol*. 2014, 38(4):222–234.
- Yilmaz V, Umay E, Tezel N, Gundogdu I. Timing of Rehabilitation in Children with Obstetric Upper Trunk Brachial Plexus Palsy. *Childs Nerv Syst*. 2018, 34(6):1153-1160.
- Zancolli EA, Zancolli ER. Palliative surgical procedures in sequelae of obstetrical palsy. *Hand Clin*. 1988, 4:643-669.
- Zuker RM, Manktelow RT. Functioning free muscle transfers. *Hand Clin*. 2007, 23:57–72.
- Zuckerman SL, Eli IM, Shah MN, et al. Radial to axillary nerve neurotization for brachial plexus injury in children: a combined case series. *J Neurosurg Pediatr*. 2014, 14(5):518-526.

