

痉挛型脑性瘫痪儿童言语呼吸功能的评估进展

滕丽婷 郭迪 张柳

吉林省长春市吉林大学第一医院发育行为儿科, 长春 130021

通信作者: 王田甜, Email: tiantian20@mails.jlu.edu.cn

【摘要】 中枢性运动和姿势障碍会对言语功能产生影响, 导致与言语有关的呼吸功能障碍。在痉挛型脑性瘫痪儿童中, 有半数以上伴有言语障碍。目前, 对患有言语障碍儿童呼吸功能的评估方法多种多样。本文根据痉挛型脑瘫儿童言语呼吸不规则、浅快、起音困难等特点, 对其的定量评估和动态评估进行综述, 为临床康复医师、治疗师针对性地评估痉挛型脑瘫患儿的言语呼吸功能提供思路。

【关键词】 脑性瘫痪; 呼吸; 生理学; 言语障碍; 儿童

基金项目: 国家重点研发计划项目 (2016YFC1306204)

Funding: National Key Research and Development Project of China (2016YFC1306204)

DOI: 10.3760/cma.j.issn.0254-1424.2021.07.022

脑性瘫痪是一组持续存在的中枢运动和姿势发育障碍、活动受限症候群, 是由发育中的胎儿或婴幼儿大脑的非进行性损伤所致^[1-2]。痉挛型脑性瘫痪主要是由锥体系损害引起的, 占全部脑性瘫痪的 69%~90%^[3-4]。在痉挛型脑性瘫痪儿童中, 伴有言语障碍的比例高达 74%^[5]。痉挛型脑性瘫痪可引起患儿口腔各器官的运动障碍和患儿姿势发育异常, 特别是颈部、脊柱的伸展功能发育延迟, 全身肌张力增高, 阻碍了其发声有关的呼吸-发声功能的发育^[6-7], 进而影响其认知、交流等功能^[8-9], 对儿童预后产生不利影响, 给家庭和社会带来了沉重的心理和经济负担^[10]。

概述

言语时需要瞬间吸入大量气体并维持平稳缓慢呼气, 用较小气流来维持足够的声门下压。痉挛型脑瘫儿童呼吸及言语时常伴有呼吸不规则、浅快、起音困难等特点。在临床工作中, 准确、精准的评估对患儿来说非常重要。言语呼吸功能评估主要从两个方面着手: 定量评估^[11-13]和动态评估^[14-15]。定量评估包括辅音 S/Z 比 (汉语语音中辅音 s 与辅音 z 之比)、最长声时 (maximum phonation time, MPT)、最大数数能力 (maximum counting ability, MCA)、平均气流率 (mean airflow rate, MAR)、起音 (voicing onset, VO) 等; 动态评估包括呼吸运动、肺功能和呼吸肌群的评估。

定量评估

一、S/Z 比、MPT 和 MCA

临床上, 用于评估言语呼吸功能的声学的指标, 主要包括 S/Z 比^[11]和 MPT、MCA^[16]。万勤等^[16]对 90 名健康儿童和 58 名痉挛型脑性瘫痪儿童进行了 MPT 和 MCA 测试, 结果显示, 年龄对健康组儿童的 MPT 及 MCA 有影响, 对脑瘫组患儿的 MPT 及 MCA 无显著影响, 性别对健康组和脑瘫组儿童的 MPT 及 MCA 均无显著影响, 是否患脑瘫对脑瘫组与健康组 MPT 和 MCA 有明显影响。此外, 健康儿童 MPT 和 MCA 呈现出随年龄增长而增加的趋势, 13 岁以后, MPT 和 MCA 显著增加, 而痉挛型脑性瘫痪

儿童的 MPT 和 MCA 并无增长趋势, 整体表现为言语呼吸功能障碍, 即患有痉挛型脑性瘫痪的儿童较健康儿童更容易说话气短、吃力、异常停顿、声音粗糙、音量急剧变化、存在病理性硬起音、元音和辅音歪曲等, 表现为说话时呼吸的控制及协调能力差等问题^[16]。因此, 与正常儿童相比, 脑性瘫痪儿童具有 MPT 和 MCA 迟缓的特点, 并且缺乏与年龄相关的增加趋势。

1. S/Z 比: 是指让一个人在深吸气后分别持续发/s/音和/z/音后, 两音最长发声时间的比值。使用“启音博士言语测量仪”来进行记录, 具体测量步骤: ①深吸气, 持续发/s/音, 记录最长发音时间; ②再深吸气, 持续发/z/音, 记录最长发音时间; ③求出两音最长发音时间的比值, 即为 S/Z 比的测量结果^[17]。S/Z 比主要反映呼吸系统与发音系统之间的协调性问题。黄昭鸣等^[11]对 640 名健听儿童和 59 名聋儿进行了实验, 结果显示 S/Z 比不受年龄和性别的影响, 正常值 ≈ 1 , 且 S/Z 比能够准确地反映出喉内肌群张力高、呼吸支持相不足、VO 方式异常等方面的问题。既往研究显示, 存在喉部病变患者, 由于声门功能异常, 阻力减低, 导致通过气流量增加, z/发音时间缩短, 故而在喉部病变者 S/Z 比 >1.0 ^[18]。Vaca 等^[19]对 104 例声门闭合不全的老年人进行 S/Z 比检测, 发现 S/Z 比为 1.3 时, 其诊断为声门闭合不全的特异性为 91.4%, 阳性似然比为 6.17。此外, 有研究发现, 声门闭合障碍及聋儿等人群中, S/Z 比也明显升高^[11, 20]。痉挛型脑性瘫痪儿童以胸式呼吸为主, 喉部肌群易出现痉挛发作, 呼吸不规则, 合并浅快呼吸, 经鼻呼吸与经口呼吸不能分离, 缺乏随意的呼吸运动, 特别是呼气不能持久, 声音能源不足及不稳定^[6], 导致发音不精确^[21]。

2. MPT: 是指一个人在深吸气后, 持续发单韵母/a/的最长时间。MPT 的具体测量步骤: ①被测试者先深吸气, 然后尽可能长地发单韵母/a/音, 记录发声时间; ②以同样方法再测试 1 次; ③从两次记录中选择一个较大的测试数值, 作为 MPT 的最终测量结果; ④将 MPT 的测量结果, 与相应年龄和性别组的 MPT 的最小要求 (表 1) 进行比较, 判断被测试者的 MPT 是否在正常值范围内。在此测试中需要注意: 发声时间尽可能地长, 气息及响度均匀, 音调必须在正确的频率范围内^[17]。

3. MCA:是指一个人在深吸氣后,一口气连续说 1 或 5 所持续的最长时间。MCA 具体测量步骤:①被测试者先深吸氣,呼气时开始连续说 1 或 5,记录时间;②以同样方法再测试 1 次;③从两次结果中选择一个较大的测试数值,作为最终测量结果;④将 MCA 的测量结果,与相应年龄和性别组 MCA 的最小要求(表 1)进行比较,判断被测试者的 MPT 是否在正常值范围内。在此测试中需要注意:一口气连续、匀速数数,基频和强度变化连贯,并且数数时间尽可能长^[17]。

表 1 MPT、MCA 的最小要求^[17]

年龄(岁)	MPT 的最小要求(s)		MCA 的最小要求(s)	
	男	女	男	女
4	2	2	2	2
5	4	4	3	3
6	6	6	3	3
7	8	8	5	5
8	8	8	5	5
9	9	9	6	6
10	9	9	7	7
11	10	10	7	7
12	10	10	7	7
13	11	11	8	8
14	12	12	8	8
15	12	12	8	8
16	20	15	12	10
17	21	15	13	10
18~40	22	15	14	10

二、MAR

MAR 是指在发声期间,单位时间内通过声门的气流。MAR 测量时,被测试者在环境噪声<45 db 的检查室内,取自然舒适的坐位,采用美国 KayPentax 公司生产的空气动力学噪音功能分析仪及配套软件进行检测。MAR 的具体测量步骤:①被测试者以舒适音调发/a/音,持续 5 s,通过软件的声强指示针将声强控制在 70 db 左右,选取中间约 3 s 平稳部分,测得 MAR;②共测试 3 次,取平均值^[22]。

有研究者对 39 名、4~17 岁的儿童进行了 10 次试验,但由于儿童肺容量有限,且需要防止受试者在试验期间难以喘气,故选取时间有所缩短,试验结果显示 39 名儿童平均 MAR 为 (8.25±2.86) L/min,且数值随年龄增加而增加^[23]。MAR 可用于确定声门闭合的程度和声带振动的状态,与声门的面积、振动形式、发声强度、声门闭合程度等密切相关^[12]。提示此现象可能与气流率和声门闭合的关系有关,即在一定的声强下,声门闭合程度越低,气流率则越高。痉挛型脑性瘫痪的儿童存在肌张力异常和运动障碍,呼吸和声带肌肉紧张,导致呼吸支持不足和呼吸控制不足。根据 MAR 原理与既往数据预测,痉挛型脑性瘫痪儿童的 MAR 低于正常值,具体数据尚需进一步研究。

三、VO

VO 是指声带从不振动到开始稳定振动之前的过程。根据声门关闭和呼气运动的协调程度,可以将 VO 方式分为 3 种情况:硬起音、正常起音和软起音。痉挛型脑性瘫痪儿童常伴有硬起音现象,硬起音客观评估可通过“启音博士言语测试仪”对声门波的开商、速度商、速度幂、幅度商、VO 频率、VO 幅度进行测量^[17]。

VO 斜率可以反映声带的发声功能。痉挛型脑性瘫痪儿童

硬起音的曲线初始呈垂直状态^[13],其原因是发声时,声门下的压力过强,气流过度冲击声带,对声带两侧造成严重冲击和摩擦所致,此现象是一种典型的发声功能亢进。

动态评估

动态评估是通过询问陪护人和对患者的观察进行的非标准化评估,在对患者进行治疗与训练的过程中,动态评估有利于制订治疗方案及对目标进行调整。动态评估主要包括呼吸运动和肺功能、呼吸肌群等,具体内容如下。

一、呼吸运动和肺功能

由呼吸肌的收缩和放松引起的胸部扩大和收缩称为呼吸运动。在平静状态下,吸气时,肋间外肌收缩,肋骨向上向外运动,胸廓体积增大,膈肌收缩,隆起部分中心下移,胸腔的前后、左右和上下直径增大,肺容积增大,空气被吸入肺部,称为吸气运动。呼气时,肋间外肌肉松弛,肋骨向内向下移动,胸廓体积减小,胸腔直径缩小,肺部气体部分排出,称为呼气运动。痉挛型脑性瘫痪儿童呼吸肌肌张力普遍增高,从而导致肺的活动减小,肺通气及换气功能障碍,逐渐使呼吸变浅,效率变低。由于上呼吸道和中呼吸道产生过大的负压,气道变窄,气道阻力增加,导致肺顺应性降低^[24]。

Ersöz 等^[14]测量了 40 名正常儿童和 56 名痉挛型脑性瘫痪儿童的最大自主吸气、呼气时的胸廓周径。结果显示,痉挛型脑性瘫痪儿童上下胸廓比率明显低于同龄正常儿童,且差异随年龄增长而更加显著。Park 等^[25]研究表明,脑性瘫痪儿童上下胸廓比(利用胸正位片测量第 2 肋水平胸廓直径与第 9 肋水平胸廓直径之比)显著低于正常儿童,且比例随年龄的增加呈线性增加。此外,用力肺活量预计值和上下胸廓比例呈正相关,且上下胸廓比例低是脑性瘫痪儿童上胸腔慢性通气不足的原因之一。胸廓结构异常可导致机械通气效率降低、呼吸肌疲劳、损伤,通气异常和残余容量异常,进而导致患有严重脑性瘫痪儿童的快速和异常呼吸模式,以及言语表达中呼吸短促。

Jan 等^[26]的研究中,痉挛型脑性瘫痪患儿的静态肺容积中的总肺容量(total lung capacity,TLC)占预计值的 85%,肺活量(vital capacity,VC)占预计值的 67%。在患有痉挛型脑性瘫痪的儿童中,总肺容量减少,表现为限制性肺损伤,对 28 例痉挛型脑性瘫痪患儿进行肺功能评估,结果显示,与正常发育儿童相比,痉挛型脑性瘫痪患儿用力肺活量(forced vital capacity,FVC)、1 秒用力肺活量(forced expiratory volume in 1s,FEV1)、呼气峰流速值(peak expiratory flow,PEF)、慢肺活量(slow volume capacity,SVC)、潮气量(tidal volume,TV)均显著减少,差异有统计学意义。Choi 等^[27]将痉挛型脑性瘫痪患儿随机分为综合康复治疗组和综合康复治疗+激励性肺活量运动(incentive spirometer exercise,ISE)组,在 4 周的治疗时间内动态行肺功能检查,在联合激励性肺活量运动组中观察到 FVC、FEV1、PEF、MPT 均有显著改善,而综合康复治疗组上述指标无明显改善。

二、呼吸肌群

呼吸肌群分为两组:吸气肌群和呼气肌群。吸气肌主要由膈肌和肋间外肌组成,其作用在于使肋骨上提,增大胸腔容积。呼气肌群主要由肋间内肌组成,其作用在于使肋骨下降,缩小胸腔容积。由于痉挛型脑性瘫痪儿童的肌张力增加和肌肉不协调,这些儿童的呼吸肌功能受到限制,患有严重痉挛型脑性

瘫痪的儿童存在屏气现象。

与正常儿童相比,脑性瘫痪儿童肌肉组织以一种肌纤维为主。部分脑性瘫痪儿童主要肌肉纤维为 I 类,部分为 II 类,其纤维大小差别较大。目前,上述分布差异的原因尚不清楚,但一般认为,以 II 类纤维为主的脑性瘫痪儿童比肌纤维分布正常的儿童更容易疲劳,并且在运动中呈现为低摄氧量^[28-30]。

小结

综上,痉挛型脑性瘫痪儿童存在姿势异常、肌张力异常及口腔运动障碍,导致其呼吸-发声功能异常,影响患儿的整体发育及预后。与正常同龄儿童相比,痉挛型脑性瘫痪患儿在 S/Z 比、MPT、MCA、MAR、VO 斜率、呼吸肌群、呼吸功能和肺功能等方面存在特征性表现。在临床上,上述言语呼吸的评估有望成为痉挛型脑性瘫痪患儿言语呼吸的辅助诊断指标。

参 考 文 献

- [1] Graham HK, Rosenbaum P, Paneth N, et al. Cerebral palsy[J]. Nat Rev Dis Primers, 2016, 7(1): 15082. DOI: 10.1038/nrdp.2015.82.
- [2] Novak I, Morgan C, Adde L, et al. Early, accurate diagnosis and early intervention in cerebral palsy: advances in diagnosis and treatment [J]. JAMA Pediatr, 2017, 171(9): 897-907. DOI: 10.1001/jama-pediatrics.2017.1689.
- [3] Wimalasundera N, Stevenson VL. Cerebral palsy[J]. Pract Neurol, 2016, 16(3): 184-194. DOI: 10.1136/practneurol-2015-001184.
- [4] Kakooza-Mwesige A, Forssberg H, Eliasson AC, et al. Cerebral palsy in children in Kampala, Uganda: clinical subtypes, motor function and co-morbidities[J]. BMC Res Notes, 2015, 23(1): 166. DOI: 10.1186/s13104-015-1125-9.
- [5] Hustad KC, Sakash A, Broman AT, et al. Longitudinal growth of receptive language in children with cerebral palsy between 18 months and 54 months of age[J]. Dev Med Child Neurol, 2018, 60(11): 1156-1164. DOI: 10.1111/dmcn.13904.
- [6] Nip IS, Arias CR, Morita K, et al. Initial observations of lingual movement characteristics of children with cerebral palsy[J]. J Speech Lang Hear Res, 2017, 60(6S): 1780-1790. DOI: 10.1044/2017_JSLHR-S-16-0239.
- [7] Nip IS. Interarticulator coordination in children with and without cerebral palsy[J]. Dev Neurorehabil, 2017, 20(1): 1-13. DOI: 10.3109/17518423.2015.1022809.
- [8] Sakash A, Broman AT, Rathouz PJ, et al. Executive function in school-aged children with cerebral palsy: relationship with speech and language[J]. Res Dev Disabil, 2018, 78(1): 136-144. DOI: 10.1016/j.ridd.2018.05.015.
- [9] Hustad KC, Allison KM, Sakash A, et al. Longitudinal development of communication in children with cerebral palsy between 24 and 53 months: predicting speech outcomes[J]. Dev Neurorehabil, 2017, 20(6): 323-330. DOI: 10.1080/17518423.2016.1239135.
- [10] Park EY. Relationship between activity limitation and health-related quality of life in school-aged children with cerebral palsy: a cross-sectional study[J]. Health Qual Life Outcomes, 2017, 15(1): 87. DOI: 10.1186/s12955-017-0650-8.
- [11] 黄昭鸣, 万萍. s/z 比值在聋儿言语呼吸中的临床价值[J]. 中国听力语言康复科学杂志, 2004, 4(4): 20-22.
- [12] Joshi A, Watts CR. A comparison of indirect and direct methods for estimating transglottal airflow rate[J]. J Voice, 2017, 32(6): 655-659. DOI: 10.1016/j.jvoice.2017.09.020.
- [13] 黄昭鸣, 万萍, 王衍龙. 言语呼吸疾病的定量评估及矫治对策[J]. 中国听力语言康复科学杂志, 2004, 5(5): 23-25. DOI: 10.3969/j.jissn.1672-4933.2004.04.006.
- [14] Ersöz M, Selçuk B, Gündüz R, et al. Decreased chest mobility in children with spastic cerebral palsy[J]. Turk J Pediatr, 2006, 48(4): 344-350.
- [15] Kwon YH, Lee HY. Differences in respiratory pressure and pulmonary function among children with spastic diplegic and hemiplegic cerebral palsy in comparison with normal controls[J]. J Phys Ther Sci, 2015, 27(2): 401-403. DOI: 10.1589/jpts.27.401.
- [16] 万勤, 胡金秀, 张青, 等. 7~15 岁痉挛型脑瘫儿童与健康儿童言语呼吸特征的比较[J]. 中华物理医学与康复杂志, 2013, 35(7): 542-546. DOI: 10.3760/cma.j.issn.0254-1424.2013.07.008.
- [17] 黄昭鸣, 朱群怡, 卢红云, 等. 言语治疗学[M]. 上海: 华东师范大学出版社, 2017: 40.
- [18] Larson GW, Mueller PB, Summers PA. The effect of procedural variations on the S/Z ratio of adults[J]. J Commun Disord, 1991, 24(2): 135-140. DOI: 10.1016/0021-9924(91)90017-d.
- [19] Vaca M, Cobeta I, Mora E, et al. Clinical assessment of glottal insufficiency in age-related dysphonia[J]. J Voice, 2017, 31(1): 128. DOI: 10.1016/j.jvoice.2015.12.010.
- [20] Gamboa FJ, Nieto A, del Palacio AJ, et al. S/Z ratio in glottic closure defects[J]. Acta Otorrinolaringol Esp, 1995, 46(1): 45-48.
- [21] Mou Z, Teng W, Yang HO, et al. Quantitative analysis of vowel production in cerebral palsy children with dysarthria[J]. J Clin Neurosci, 2019, 66(1): 77-82. DOI: 10.1016/j.jocn.2019.05.020.
- [22] 张圣池, 林鹏, 杜建群, 等. 声带息肉及小结患者最小声门面积与声学及空气动力学指标的相关性研究[J]. 听力学及言语疾病杂志, 2012, 20(1): 20-22. DOI: 10.3969/j.jissn.1006-7299.2012.01.006.
- [23] Scholp AJ, Hedberg CD, Lamb JR, et al. Measurement reliability of laryngeal resistance and mean flow rate in pediatric subjects[J]. J Voice, 2020, 34(4): 590-597. DOI: 10.1016/j.jvoice.2019.02.005.
- [24] Kwon HY, Kim BJ. Correlation between the dimensions of diaphragm movement, respiratory functions and pressures in accordance with the gross motor function classification system levels in children with cerebral palsy[J]. J Exerc Rehabil, 2018, 14(6): 998-1004. DOI: 10.12965/jer.1836422.211.
- [25] Park ES, Park JH, Rha DW, et al. Comparison of the ratio of upper to lower chest wall in children with spastic quadriplegic cerebral palsy and normally developed children[J]. Yonsei Med J, 2006, 47(2): 237-242. DOI: 10.3349/ymj.2006.47.2.237.
- [26] Jan B, Kristina B. Dynamic and static lung volumes of school children with cerebral palsy[J]. Acta Paediatr Scand Suppl, 1970, 204(1): 35-39. DOI: 10.1111/j.1651-2227.1970.tb06140.x.
- [27] Choi JY, Rha DW, Park ES. Change in pulmonary function after incentive spirometer exercise in children with spastic cerebral palsy: a randomized controlled study[J]. Yonsei Med J, 2016, 57(3): 769-775. DOI: 10.3349/ymj.2016.57.3.769.
- [28] Ito J, Araki A, Tanaka H, et al. Muscle histopathology in spastic cerebral palsy[J]. Brain Dev, 1996, 18(4): 299-303. DOI: 10.1016/0387-7604(96)00006-x.
- [29] Potter CR, Unnithan VB. Interpretation and implementation of oxygen uptake kinetics studies in children with spastic cerebral palsy[J]. Dev Med Child Neurol, 2005, 47(5): 353-357. DOI: 10.1017/s0012162205000666.
- [30] Mathewson MA, Lieber RL. Pathophysiology of muscle contractures in cerebral palsy[J]. Phys Med Rehabil Clin N Am, 2015, 26(1): 57-67. DOI: 10.1016/j.pmr.2014.09.005.

(修回日期: 2020-05-20)

(本文编辑: 凌 琛)