

”Shaken baby syndrome”

- et alvorlig og vanskelig tema

Prosjektoppgave i rettsmedisin

Student: Catherine Olufsen

Veileder: Åshild Vege

Totalt antall sider: 17

Innholdsfortegnelse

Sammendrag (Abstract)	s. 3
Innledning	s. 4
Metoder	s. 5
Resultater	s. 6
Diskusjon	s. 12
Konklusjon	s. 15
Litteraturliste	s. 16

Abstract

Background: The purpose of this study is to review the diagnosis of shaken baby syndrome: different mechanisms of injury, how it is diagnosed, what the differential diagnoses are, the prognosis and the discussion concerning the problem of diagnosing the syndrome.

Methods: A literary study based on a selection of articles from the use of the following search words in Pubmed: shaken baby syndrome, shaken impact syndrome, non-accidental head injuries and abusive head trauma.

Results: Shaken baby syndrome is defined as vigorously shaking of a small child resulting in subdural hemorrhages, retinal hemorrhages and brain injury. There may be additional injuries present. The mechanism of injury is not fully understood and is subject to great debate. The main issue is whether shaking alone is sufficient to produce severe brain injury. The diagnosis is made on the basis of medical history, clinical and forensic findings and imaging techniques. There are many differential diagnoses and all must be excluded before diagnosing shaken baby syndrome. 7-30 % of the babies die, 30-50 % sustain significant cognitive and neurological deficits and 30 % have a full recovery.

Conclusions: There is need for more research to determine the mechanism of injury with certainty.

Innledning

Barnemishandling er et vanskelig og ømtålig tema, kanskje mest fordi det rammer de svakeste av oss og skjer hovedsakelig i den private sfære. Det røkkes ved grunnleggende verdier i samfunnet, og de fleste føler avsky og tar sterk avstand fra denne typen handlinger. Dette fører til at når det avdekkes barnemishandling får det store konsekvenser for de involverte. Det er selvfølgelig helt essensielt at et barn som mishandles beskyttes mot ytterligere mishandling, men da gjerningspersonen ofte er en person i nær relasjon til barnet må man være helt sikker på at det faktisk foreligger barnemishandling før drastiske tiltak, som å frata noen omsorg for barnet, iverksettes. Det å bli stemplet som ”barnemishandler” har store sosiale konsekvenser og vil være en enorm belastning dersom så ikke er tilfelle. På den annen side må man ta hensyn til barnet. Det blir en ny urett mot barnet dersom man unnlater å melde fra av frykt for å ta feil, og mishandlingen således kan fortsette.

”Shaken baby syndrome” (SBS) er en form for barnemishandling som hovedsakelig går ut på at gjerningspersonen rister barnet slik at det får skader. De eksakte skademekanismene og definisjonen av SBS er det til dels uenighet om i fagmiljøet. Det foreligger få tall om forekomst. SBS rammer hovedsakelig barn under 3 år og majoriteten er under 1 år. Flere gutter enn jenter rammes, og det har vært rapportert at forholdet gutter til jenter kan være opp til 3:1. I en prospektiv studie som inkluderte barn under 2 år innlagt på sykehus med hodeskader, fant man at 24 % hadde påførte skader og blant nyfødte med alvorlige skader var andelen enda høyere¹⁻⁴.

Det foreligger ingen sikre tall over forekomst i Norge. Ved Rettsmedisinsk institutt i Oslo ble det undersøkt 13 barn med skader forenlig med SBS i perioden 1989-2005. Det var åtte gutter og fem jenter i alderen 29 dager til 13 mnd. Fire av barna døde og det var én tilstand som samsvarte med funn (Personlig meddelelse, Stray-Pedersen og Vege).

Det er identifisert flere risikofaktorer for SBS, knyttet både til offer og gjerningsperson. Utløsende faktor i svært mange tilfeller virker å være at barnet gråter, at gjerningspersonen ikke er i stand til å stille denne og derfor går til det skritt å riste barnet^{3,4}. I en studie fra Frankrike der man så på tilfeller hvor gjerningspersonen innrømmet å ha ristet barnet, sa alle (100 %) at de ristet barnet fordi det gråt⁴. Dette passer med at det er spedbarn som er mest utsatt for SBS. Nyfødte gråter normalt 1,5-3 timer daglig og de barna som gråter mye har en større risiko for SBS¹. Følgende risikofaktorer har blitt knyttet til barnet: det å være gutt, flerlinger, prematuritet, funksjonshemming, neonatal abstinenssyndrom, medfødte feil eller syndromer, dårlig tilknytning til omsorgspersonene og lav fødselsvekt. Alt dette er tilstander som man kan tenke seg fører til mer gråt^{1, 2, 4, 5}.

Gjerningspersonen har i de fleste tilfeller en nær relasjon til barnet, og oftest er det en mann. Biologiske far, stefar eller mors kjæreste er det vanligste, men gjerningspersonen kan også være biologisk mor, stemor, barnevakter, besteforeldre og annen slekt^{1, 2, 4, 5}. Andre kjente risikofaktorer er lav sosioøkonomisk status, unge foreldre, ustabil familiesituasjon, eneomsorg for barnet, dårlig svangerskapsomsorg og manglende sosial støtte^{1,2}.

Alderen på ofrene for SBS byr på ekstra utfordringer i forhold til at de ikke er i stand til å redegjøre for hva som har skjedd. Man må derfor tenke på barnemishandling i forhold til barnets symptomer, identifisere skadene på barnet og deretter sannsynliggjøre over enhver rimelig tvil at disse er påførte. Dette gjøres i et samarbeid mellom flere yrkesgrupper, både leger, barnevern, politi og jurister. Det er sjelden pålitelige vitner og det er derfor viktig med kjennskap til hvilke skademekanismer som kan føre til hvilke skader. Det at barnemishandling foregår innenfor husets fire vegger gjør det til et vanskelig tema å forske på. Det er naturlig nok ikke mulig å utføre eksperimenter av typen randomiserte kontrollerte studier, og i forhold til studier vedrørende hvor store krefter barnet påføres, er man nødt til å konstruere modeller eller utføre dyreforsøk for å simulere situasjonen. Modeller blir aldri identiske med originalen og dette setter begrensninger i forhold til fortolkningen av modellforsøk og overførbarheten av resultatene til det virkelige liv.

Det finnes en lang rekke differensialdiagnoser til SBS og hver enkelt av disse må utelukkes før man kan sette diagnosen. Differensialdiagnosene er hovedsakelig ulykker, sykdommer og fødselsskader.

SBS er en omstridt diagnose som har vært gjenstand for mye diskusjon i både medisinske og juridiske tidsskrifter. Det finnes endog de som mener at diagnosen ikke finnes. I denne oppgaven vil jeg forsøke å gi et sammendrag av hva SBS er, hvordan diagnosen stilles, aktuelle differensialdiagnoser, gjeldende teorier vedrørende skademekanismer, samt prognosen til de som rammes.

Metoder

Oppgaven er gjennomført som en litteraturstudie. Det har blitt gjort søk i Pubmed med ulike kombinasjoner av søkeordene: shaken baby syndrome, shaken impact syndrome, non-accidental head injuries og abusive head trauma. Det har så blitt gjort en vurdering i samarbeid med veileder, vedrørende hvilke artikler som skulle inkluderes, basert på abstractene og artiklenes antatte relevans i forhold til oppgaven. Noen artikler har blitt ekskludert p.g.a. språket de er skrevet på.

Det er ikke mulig å gjennomføre randomiserte kontrollerte studier vedrørende mishandling av barn - det ville være grovt uetisk. I stedet preges forskningen på dette området av retrospektive studier. Ulempen med de retrospektive studiene er at man ikke kan styre hva studiepopulasjonen utsettes for. Man har ikke mulighet til å sette inklusjons- og eksklusjonskriterier i forkant av hendelsen man forsker på. Dette fører bl.a. til seleksjonsbias. Ved søket i Pubmed så man at det også var flere beskrivelser av enkeltsaker. Enkeltsaker er interessante i seg selv og kan gi ideer til videre forskning, men konklusjoner på bakgrunn av enkeltstudier kan vanskelig brukes til å trekke konklusjoner. Mange av studiene har relativt små populasjoner, men til sammen utgjør studiene likevel en betydelig forskning på et viktig tema.

Resultater

Definisjon

Shaken baby syndrome (SBS) ble først beskrevet tidlig på 70-tallet av Caffey og Guthkelch^{6,7}. Caffey kalte det ”whiplash shaken infant syndrome” og definerte det som whiplashinduserte intrakranielle og intraokulære blødninger som følge av at barnet ristes. I dag har man ikke klart å komme til en felles konsensus om en bestemt definisjon og man ser følgelig ulike varianter i litteraturen (her oversatt):

”SBS er en traumatisk, ikke-aksidentell skade som skyldes kraftig risting av et spedbarn eller et lite barn”¹.

”Subduralt hematom, retinale blødninger og encefalopati hos spedbarn med få eller ingen tegn til mekanisk skade og en inadekvat eller manglende/feilaktig sykehistorie fra foreldre/omsorgspersoner regnes patognomonisk for SBS”⁸.

”SBS er en alvorlig form for hodeskade som skyldes mishandling. Det skjer når et barns hode blir utsatt for rask akselereasjon og deselerasjon og rotatoriske krefter, med eller uten treffskade (”impact”). Dette resulterer i en kombinasjon av intrakranielle og intraokulære skader, samt ryggmargsskader”⁹.

”SBS karakteriseres av subduralt hematom, okkulte frakturer og retinale blødninger, oftest hos barn under 3 år”⁵.

Selv om det ikke er fullstendig enighet i fagmiljøene, ser det ut til å være en viss konsensus om at følgende triade utgjør grunnpilarene i diagnosen SBS: ^{8,10}

- Blødning under den harde hjernehinnen.
- Netthinneblødning
- Hjerneskade

I tillegg forekommer det også ofte brudd av ribben og/eller ekstremiteter².

Skader og skademekanismer ved SBS

Det er flere teorier om hva som forårsaker de ulike skadene man ser ved SBS. Nyfødte og små barn har andre anatomiske forhold i hode og nakke enn voksne. De befinner seg i en modningsprosess og skader som inntreffer her arter seg noe annerledes enn tilsvarende skader hos voksne og eldre barn. Disse forskjellene ser man opp til skolealder, men det er mest markert forskjell mellom de aller yngste og eldre barn/voksne¹¹. Man ser for seg at selve ristingen foregår ved at gjerningspersonen holder barnet rundt toraks eller armene og at barnet ristes kraftig frem og tilbake. Dette fører til at hodet får en whiplash-bevegelse og utsettes for akselerasjons- og deselerasjonskrefter³. Selve ristingen kan etterfølges av at barnet kastes på eller mot en flate, for eksempel mot madrassen i senga¹.

Det er flere anatomiske forhold som gjør barnet sårbart for skade^{3,11}.

- Skallen til et lite barn er tynn og bøyelig slik at den skal kunne passere gjennom fødselskanalen. Bevegeligheten i skallen skyldes at skallesuturene ikke er ossifisert før i 2-års alder.
- Et spedbarns hode utgjør ca. 10-15 % av kroppsvekten i motsetning til 2-3 % hos voksne.
- Nakkemusklene til småbarn er relativt utviklet og gir liten støtte for hodet.
- Hjernene til spedbarn og småbarn har en bløtere konsistens enn hos voksne fordi den har et høyere vanninnhold, umodne gliaceller, umodent myelin rundt aksonene og små aksoner.
- Subaraknoidalrommet til et lite barn er relativt tynt, men opptar en stor overflate.
- Skallebasis er relativt flat og jevn, og det er færre benete utspring som holder hjernen ”på plass”.

Alle de overnevnte faktorene gjør at hjernen kan få en rotasjonsbevegelse inne i skallen. Siden dura er festet til skallen kan den relative bevegelsen av hjernen i forhold til skallen føre til at brovenene avrives og det oppstår et subduralt hematom^{3,11}.

Det subdurale hematomet kan være både uni- og bilateralt, hvorav bilateralt er mest vanlig. Blødningen er ofte lokalisert baktil, mellom hemisfærene. Subaraknoidalblødninger er også et vanlig funn ved SBS^{2,3}.

Feldman et al.¹² gjorde en prospektiv studie der de undersøkte 66 barn under 3 år med subduralt hematom ved et regionalt sykehus i Seattle, USA. Barn med kjent hematologisk sykdom, tidligere gjennomgått nevrokirurgi, kjent hjerneskade, meningitt, som fikk dialyse eller var alvorlig dehydrerte, ble ekskludert fra studien. De fant at 39 (59 %) var mishandlet, 15 (23 %) hadde vært utsatt for en ulykke og hos 12 (18 %) fant man ikke årsaken. I gruppen som ble mishandlet fant man retinale blødninger hos 28 (72 %). 20 (51 %) av de mishandlede barna hadde brudd i ribben og/eller lange rørknokler.

En komponent i den diagnostiske triaden er hjerneskade. Hva som forårsaker denne hjerneskaden er det uenighet om. Noen mener skaden er såkalt diffus aksonal skade der aksonene avrives p.g.a. forskyvningsskader i forbindelse med treghetsbevegelsen til hjernen inne i skallen¹¹. Andre mener hjerneskaden skyldes hypoksi og iskemi p.g.a. apné, og ikke nødvendigvis er relatert til treghetsbevegelser i hjernen.^{13, 14}

Geddes et al.¹³ gjorde en nevropatologisk studie av 53 barn omkommet som følge av ikke-aksidentell hodeskade og publiserte resultatene som to artikler i samme tidsskrift. 37 var spedbarn i alderen 20 dager til 9 måneder, de resterende 16 ble karakterisert som ”barn” og var i alderen 13 måneder til 8 år. 36 % hadde skallefrakturer, 72 % hadde subduralt hematom og 71 % hadde retinale blødninger. Mikroskopisk ble det funnet hypoksisk hjerneskade i 77 % av tilfellene, diffus aksonal skade ble funnet i kun 3 av 53 tilfeller. Geddes et al. konkluderer med at diffus aksonal skade er sjeldent som følge av påført hodeskade hos barn. Funnene de gjorde på spedbarna ble publisert i en egen artikkel¹⁴. De fant tegn til såkalt vaskulær aksonal skade i 13 av 37 tilfeller. 2 av 37 hadde diffus aksonal skade, disse hadde alvorlige

hodeskader med multiple skallebrudd. Hos 11 av 37 ble det rapportert om epiduralblødning i cervikalregionen samt fokal aksonal skade i kraniocervikalovergangen og spinalrøttene. Basert på dette foreslår Geddes et al. at hyperekstensjon/-fleksjon i nakken gir skader i hjernestammen som fører til apné, hypoksisk hjerneskade og hjerneødem. Videre foreslår de at det ikke er nødvendig å riste et spedbarn særlig voldsomt for å få strekkeskader i hjernestammen.

I tillegg til hjerneblødning og hjerneskade, gjør de anatomiske forholdene i spedbarnshjernen det lettere for støtkrefter å forplante seg fra skallen, gjennom subaraknoidalrommet og inn til hjernen, dette kan gi kontusjonsskader i hjernen¹¹.

Forekomsten av netthinneblødninger hos barn med påført hjerneskade er 50-100 %⁵. Mekanismen bak netthinneblødningene ved SBS er ikke fullstendig klarlagt og det foreligger tre ulike teorier. Den ene foreslår at økt intratorakalt og intrakranielt trykk fører til venøs obstruksjon i retina. Den andre angir at blødningene skyldes direkte traume mot retina ved at glasslegemet beveger seg inne i øyet. Den tredje foreslår blødning ved at retina settes på strekk når glasslegemet beveger seg³. Netthinneblødninger ved SBS er oftest bilaterale (62,5-100 %), men kan også være unilaterale. Blødningene er ofte flammeformete og befinner seg i det superfisielle laget av netthinnen. Det finnes også andre varianter; blødningene kan være få og store, multiple og små og befinne seg i alle lagene i netthinnen. Dersom det er blødning i alle lag av netthinnen styrker det mistanken om at det foreligger mishandling. Mange av blødningene er i bakre pol på netthinnen, men flere studier har vist at blødning perifert i netthinnen forekommer i større grad ved mishandling enn ved netthinneblødninger p.g.a. ulykker¹⁵.

I tillegg til netthinneblødninger kan det også forekomme andre skader på øyet i form av blødning i glasslegemet, folding av netthinnen, retrohyaloidale blødninger, premakulære blødninger, subretinale blødninger, kuppellignende blødninger ("dome-like"), hull i macula og såkalte "Roth spots"¹⁵. Graden av øyeskade korrelerer i mange tilfeller med hvor alvorlig hjerneskaden er³.

Barn som er utsatt for SBS kan også ha ekstrakraniale skader. Under selve ristingen kan barnets knokler bli skadet. Vanlige skadesteder er tibia, distale femur, proksimale humerus og de bakre ribbene. Bruddene i de lange rørknoklene oppstår i den mest umodne delen av spongiosa i metafysen, og karakteriseres som såkalte "bøttehank"- og "hjørnefrakturer"^{3,16}. Man kan også se skallefrakturer, hematomer og lacerasjoner som tegn på at barnet har blitt utsatt for stump vold¹¹.

Diagnostikk

En viktig del av grunnlaget når en lege stiller en diagnose er sykehistorien. Man får sjelden en fullstendig sykehistorie når det dreier seg om SBS. Man får ofte informasjon om barnets

symptomer i tillegg til en beretning om stumt traume mot hodet, for eksempel fall fra sengen eller ned trappen. Historien kan være vag, endres fra gang til gang og beskrive en skademekanisme som ikke forklarer skadene man finner på barnet². Når det foreligger et skadet barn er det viktig å ta en grundig sykehistorie. Hva skjedde? Hvem gjorde hva og når? Hvem var til stede sammen med barnet? Ble det gitt førstehjelp på stedet, i så fall hva ble gjort? Ble barnet tatt med til lege umiddelbart? Har det vært noen tidligere problemer eller krangler? Har barnet vært innlagt med skader tidligere? Hvordan er foreldrenes emosjonelle reaksjon?¹⁶

Barnet kan ha et vidt spekter av symptomer av ulik alvorlighetsgrad. I litteraturen er det beskrevet sløvhet, irritabilitet, anfall med kramper, økt eller redusert muskeltonus, oppkast, manglende evne til å ta til seg næring, unormal respirasjon og apné. Det er angitt at 40-70 % har krampeanfall^{2,9}.

Radiologiske undersøkelser som er aktuelle ved mistanke om mishandling er skjelettrøntgen, MR og CT. Skjelettrøntgen er nødvendig for å avdekke eventuelle bruddskader. Brudd i ulik fase av tilheling og på ulike lokalisasjoner taler for mishandling. CT og MR er nyttig for å vurdere intrakraniale skader. Begge er gode til å avdekke intrakranial blødning. MR kan avdekke mindre blødninger enn CT, men barna kan være så dårlige at det ikke er mulig å gjennomføre undersøkelsen^{1,3}.

Yen et al.¹⁷ gjorde en studie der det ble tatt MR og CT av 57 lik som ble obdusert. Målet var å sammenligne funnene ved bildediagnostikk med obduksjonsfunn vedrørende hode og hjerne. Populasjonen besto av 39 menn og 18 kvinner fra 22 uker til 87 år gamle. 45 hadde hodetraume etter bilulykker, skuddskader, flystyrt, stump vold, SBS og fødselstraume. De resterende dødsårsakene var hjertesvikt, henging, drukning, knivstikk, sykehusfeil, abort og ulykke i forbindelse med stuping. Blant funnene finner man følgende:

- MR var bedre enn CT til å avdekke ekstrakraniale bløtdelslesjoner i hode/ansikt, men obduksjon var det beste.
- CT var bedre enn MR til å påvise brudd i skalle, skallebasis og cervikale ryggvirvler, men ingen av de to var egnet til å differensiere mellom ulike bruddtyper.
- CT og MR var nesten jevnbyrdige til å påvise subdurale hematomer, hhv. 68 og 73 %. Der CT og MR ikke avdekket blødning var blodfilmen tynnere enn 3 mm.
- MR var bedre enn CT til å avdekke lesjoner i hjernevev og hjernestammelesjoner.

Differensialdiagnoser

Det er angitt en rekke differensialdiagnoser til de ulike enkeltkomponentene som utgjør SBS: fall/ulykker, fødselsskader, koagulopatis, infeksjoner, metabolske sykdommer, medfødte misdannelser, genetiske lidelser, malignitet, autoimmune sykdommer, kirurgiske inngrep og hjerte-lunge-redning^{2,5,21}. I de følgende avsnittene vil jeg kommentere noen av disse.

Fall/ulykker

Chadwick et al. gjorde en studie med 317 barn som, i følge omsorgspersonen, kom til akuttmottaket p.g.a. fall¹⁸. Den angivelige høyden på fallet var registrert i 283 av tilfellene. Sju av 100 døde etter fall på 0-1,2 m (0-4 feet), ingen av 65 døde etter fall fra 1,5-2,7 m (5-9 feet) og 1 av 118 døde etter fall fra 3-13,7 m (10-45 feet). Beskrivelsen av fallet til de syv som døde etter fall fra under 1,2 m, var som følger: to falt fra stående stilling, to falt ut av sengen eller ned fra et bord, en falt ned trappen og to falt mens de var i armene på en voksen. Av de syv som døde hadde alle subduralt hematoma og hjerneødem, fem hadde subaraknoidalblødning og netthinneblødninger og en hadde skallefraktur. Det var to tilfeller uten ekstrakraniale skader, de andre fem hadde skader av typen gamle brudd, blåmerker på trunkus og ekstremiteter, skade på kjønnsorganer og tegn på to treffskader i hodet. Forfatterne konkluderer med at sykehistorien er feil dersom barn får fatale skader etter fall fra mindre enn 1,2 m.

Plunkett gjorde en studie av 18 barn mellom 12 mnd og 13 år som døde av fatale hodeskader p.g.a. fall¹⁹. Fallene var fra 0,6-3 meter. En annen enn omsorgspersonen var vitne til fallet i 12 av tilfellene. 12 barn var ved bevissthet en periode etter fallet, et såkalt "lucid interval". Det var bilaterale netthinneblødninger hos 4 av 6 barn som fikk netthinnen undersøkt. Plunkett konkluderer med at spedbarn eller barn kan få fatale hodeskader etter fall fra mindre enn 3 m.

Fødselsskader

Det har blitt gjort mange studier på netthinneblødninger i forbindelse med fødsel, og insidensen varierer mellom 2,6 og 50 %²⁰. Emerson et al.²⁰ undersøkte 149 nyfødte for netthinneblødninger i forbindelse med fødsel for å finne insidens, hvor lang tid det tok før blødningen ble resorbert og om det var noen sammenheng mellom type fødsel og grad av blødning. De fant en insidens på 34 % og det var ingen synlig blødning hos 86 % etter 2 uker. Etter 4 uker var alle blødningene resorbert med unntak av ett tilfelle med subretinal blødning. Den høyeste insidensen for netthinneblødninger fant man hos barna som ble forløst med vakuum (75 %; 9/12), den laveste insidensen hadde de som ble forløst med keisersnitt (7 %; 1/15). Utbredelsen til blødningene ble registrert. 52 % hadde bilaterale blødninger, mens de resterende 48 % hadde unilaterale. De fleste (96 %) hadde blødninger i bakre pol (innenfor en papillediameter rundt synsnerven), men mange hadde også blødninger mer anteriort. Ingen hadde glasslegeme- eller preretinale blødninger, slik man kan se ved traume.

Case et al.³ anfører at retinale blødninger normalt resorberes i løpet av 5-6 dager, men at de kan vare lenger hos noen og sier videre at hos spedbarn over 30 dager med retinale blødninger, vil majoriteten ha påførte skader.

Det rapporteres om at 10-30 % av asymptotiske nyfødte har små subdurale og subaraknoidale blødninger. Disse blødningene er selvbegrensende og løser seg opp i løpet av ca. 4 uker. Blødningene kan resultere i små fibrøse flekker med noen få lag granulasjonsvev

på dura, men det vil ikke være tilstrekkelig med et lite traume for å få disse til å begynne å blø igjen^{3,21}.

Koagulopatier

Hemofili, von Willebrands sykdom og vitamin K-mangel er koagulopatier hvor det er mulig at kun et lite traume kan gi hjerneblødning. Disse sykdommene kan utelukkes ved hematologisk testing⁵.

Infeksjoner

Sepsis og meningitt kan gi retinale blødninger^{1,3,5}.

Metabolske sykdommer

Glutarsyreuri type 1 kan gi subduralt hematom og retinale blødninger. Sykdommen er autosomt recessivt arvelig og skyldes en defekt i enzymet glutaryl-CoA dehydrogenase. De som rammes har normal utvikling frem til ca. 2 års alder, deretter en progressiv sykdomstilstand med hypotoni, ufrivillige bevegelser, anfall m.m. De fleste dør før fylte 10 år^{3, 21, 22}.

Andre metabolske sykdommer som har vært assosiert med subduralt hematom er Canavans syndrom, galaktosemi og mangel på enzymet puryvat karboksylase²¹.

Alle de metabolske lidelsene kan utelukkes v.h.a. medisinsk testing.

Genetiske lidelser

Det finnes genetiske lidelser som gjør barn mer disponert for skader som følge av små traumer. Et eksempel på dette er osteogenesis imperfecta, en arvelig bindevevssykdom der det er noe feil med kvaliteten og kvantiteten til type 1 kollagen. Dette disponerer for frakturer, selv etter små traumer. Alvorlighetsgraden til sykdommen varierer mellom lett økt bruddtendens til skjelettdeformiteter som fører til død in utero eller rett etter fødsel. Insidensen for alle varianter av sykdommen er ca. 1:10 000. I tillegg til frakturer kan disse pasientene være kortvokste, ha blå sklera, dentinogenesis imperfecta, svekket hørsel og deformerte skjelettstrukturer. Duhaime et al.² angir at subduralt hematom er en sjelden komplikasjon til denne lidelsen²³. Den kan utelukkes ved medisinsk testing.

Hjerte-lunge-redning

Det har blitt fremsatt en hypotese om at hjerte-lunge-redning (HLR) kan være årsak til netthinneblødninger hos spedbarn. Hypotesen er basert på enkeltobservasjoner der man har funnet netthinneblødning hos spedbarn som har fått HLR. Det har blitt utført flere studier for å teste denne hypotesen. Gilliland et al.²⁴ gjorde en postmortal undersøkelse av øynene til 169 barn som hadde vært utsatt for HLR før døden inntraff. 131 fikk HLR i mer enn 30 min. De resterende 38 hadde ikke like langvarig HLR og ble brukt som kontrollgruppe. Man fant

netthinneblødninger hos 70 av barna, 61 med langvarig HLR og 9 kontroller. 56 av de 61 hadde hodeskader, 4 hadde sykdom i CNS og sepsis, alle tilstander som kan gi netthinneblødninger. Den siste døde av ”ukjent årsak”, men det var dokumentert mishandling i familien. Denne studien klarte således ikke å påvise noen sammenheng mellom HLR og netthinneblødninger.

Odom et al.²⁵ gjennomførte en prospektiv studie der de så på 43 barn som hadde fått HLR i 1-34 minutt(er). Alle var inneliggende pasienter og alle overlevde. Pasientene ble ekskludert fra studien dersom de hadde vært utsatt for en ulykke, det var mistanke om barnemishandling, det hadde blitt påvist netthinneblødninger før HLR eller de hadde vært utsatt for nestendrukning eller hadde anfallslidelse. De fant kun små, punktformige netthinneblødninger hos én pasient, og kunne dermed heller ikke påvise noen sammenheng mellom HLR og netthinneblødninger. De erkjente at materialet var lite og at det var behov for undersøkelser med en større studiepopulasjon.

Prognose

I følge Case et al.³ er det 7-30 % som dør som følge av SBS, 30-50 % får signifikante kognitive og nevrologiske sekveler og 30 % blir helt friske.

Kivlin et al. utførte en retrospektiv studie av journalene til 123 barn under 3 år som ble innlagt på sykehus i Wisconsin i perioden 1987-98, med subdurale hematomer p.g.a. mishandling. 29 % av pasientene døde av hodeskadene. 78 % av de overlevende ble fulgt opp med øyeundersøkelser etter hodeskaden, 20 % av disse hadde nedsatt syn, de fleste p.g.a. hjerneskade posteriort for chiasma opticum. 39 % av de overlevende hadde nevrologisk sekvele av ulik alvorlighetsgrad; 9 % hadde forsinket taleutvikling eller oppmerksomhetssvikt (”attention deficit disorder”) og 30 % hadde sekvele i form av hemipareser, ataksi og hemmet utvikling.

Diskusjon

Det har vært mye diskusjon om SBS siden Caffey og Gutcheik først presenterte syndromet for over 30 år siden, men diskusjonen eskalerte da Geddes et al.^{13,14} i en artikkelserie konkluderte at en av pilarene i triaden, hjerneskaden, skyldes hypoksisk-iskemisk skade og kunne fremkomme ved minimalt traume. Dette sto i kontrast til hypotesen om at hjerneskaden skyldes diffus aksonal skade på grunn av forskyvningsskader (”shearing injuries”) i hjernen p.g.a. akselerasjons-deselerasjonskreftene som oppstår ved risting. Konklusjonene i artiklene til Geddes et al. fikk store følger da det førte til at ekspertvitner for henholdsvis forsvar og aktorat plutselig hadde hvert sitt fasitsvar, det ble dermed vanskelig for retten å konkludere hva som var korrekt. Geddes et al. har også kommet med en alternativ hypotese til skademekanismen til subdurale hematomer og retinale blødninger²⁶. Dette er basert på en studie av nevropatologiske funn i tilfeldige snitt fra dura hos spedbarn som har dødd av ikke-traumatisk cerebral hypoksi. Snittene viste mikroskopisk intradural blødning og Geddes konkluderte med at netthinneblødning og subduralt hematoma skyldes hjerneødem som følge

av hypoksi. Harding, Risdon og Krous²⁷ har formulert en ”editorial” der de påpeker at Geddes trekker konklusjoner på feil grunnlag. De påpeker bl.a. at subduralt hematoma ved SBS er et makroskopisk, og ikke et mikroskopisk, funn. Påstanden om assosiasjonen med retinale blødninger har liten tyngde da øynene ikke ble undersøkt. De understreker at selv om en enkelt detalj regnes som patognomonisk for SBS kan man ikke sette diagnosen på dette kriteriet alene. For å kunne stille diagnosen SBS er det nødvendig med en totalvurdering i tillegg til grundig evaluering av de enkelte skadene – man må se hele bildet og ikke basere seg på enkeltlesjoner.

Det finnes studier som støtter at hjerneskaden ved SBS kan skyldes hypoksisk-iskemisk skade. Oehmichen et. al. gjennomførte en systematisk sammenligning av 18 SBS-ofre mot to kontrollgrupper⁸. Den ene gruppen besto av 19 barn som døde av SIDS. Den andre besto av 14 barn som døde av sykdommer eller påført traume som ikke involverte hode, hals eller øyne. De fant ikke diffus aksonal skade hos noen av SBS-tilfellene. De påviste lokal aksonal skade hos 7 av SBS-tilfellene, men denne var ikke i kranio-cervikalovergangen og passer dermed ikke med Geddes sin hypotese. De fant hypoksisk-iskemisk skade (og manglende cerebral perfusjon p.g.a. hjerneødem) i nesten alle SBS-tilfellene. De spekulerer i om det er mulig at iskemien kan være en årsak til at man ikke klarer å påvise diffus aksonal skade. Aksonal transport er en svært energikrevende prosess og mangelen på oksygen kan ha ført til at det ble for lite av markøren som brukes for å påvise aksonal skade (β -APP, den samme som Geddes et al. benyttet). Videre foreslår de at hypoksisk-iskemisk hjerneskade kan skyldes en multifaktoriell prosess: subduralt hematoma som gir økt trykk, vasospasmer p.g.a. subaraknoidalblødning og stress mot ryggskøylen p.g.a. ”whiplashing” som kan føre til en reflektorisk hjerte- eller respirasjonsforstyrrelse sekundært til overekstensjon av cervikale del av ryggskøylen.

I kjølvannet av debatten vedrørende skademekanisme har det dannet seg to grupper; de som tror at risting kan gi den typen skader man ser ved SBS og de som ikke tror det.

I et forsøk på å finne ut om risting alene var tilstrekkelig til å gi alvorlige skader gjennomførte Duhaime et al.²⁸ et eksperiment der modeller av 1 mnd gamle spedbarn med ulike hals- og skalleparametre ble utstyrt med et akselerometer og ristet og slått mot polstrete og upolstrete flater. Ristingen genererte krefter under den etablerte skadeterskelen. Støtkreftene var tilstrekkelige til å gi hjernerystelse, subduralt hematoma og diffus aksonal skade.

Dette betyr ikke nødvendigvis at man kan konkludere at det ikke er tilstrekkelig med risting alene. Begrensende faktor i denne typen eksperimentelle studiene er modellene. Spedbarnshjernen er uhyre komplisert og det er derfor svært vanskelig å lage en modell som ligner denne. De modellene som brukes for å vurdere skader ved fall kan ikke automatisk brukes til å vurdere skade ved risting, nettopp fordi skademekanismen er forskjellig. Ved fall får man støtskader, det gjør man ikke ved risting. Et annet problem som melder seg er: hvordan vet man hvor stor kraft som må til for å gi skader i en spedbarnshjerne? Hvordan måler man kraften?

Tilfellene der gjerningspersonen har tilstått å ha ristet barnet taler riktignok for at risting er nok. Man kan imidlertid argumentere med at man ikke kan stole på noe en antatt gjerningsperson sier, men det virker lite trolig at alle som tilstår lyver. Å innrømme barnemishandling fører med seg mye skam og får store konsekvenser for den det gjelder, og man vil derfor tro at løgnen heller ville være motsatt – at man benekter å ha ristet barnet. Forhåpentligvis vil modellene man bruker i de eksperimentelle studiene bli bedre og resultatene dermed mer overførbare til det virkelige liv.

Duhaime et al.²⁸ foreslo å endre SBS til ”shaken impact syndrome” etter at de ikke klarte å påvise at risting alene var tilstrekkelig. På grunn av debatten rundt diagnosen tas det stadig i bruk nye navn²¹: SBS, ”shaken impact syndrome”, ”abusive head injuries”, ”non-accidental head injuries” og ”inflicted head injuries”.

Siden opptil 30 % av barna som utsettes for SBS dør, er det viktig med tidlig og korrekt diagnostikk. I Kivlin et al.⁵ sin studie fant man at 28 % av barna hadde vært i kontakt med helsevesenet i løpet av en 6-ukers periode før de ble innlagt med hodeskader. Hvor mange av disse som døde og hvorfor de var i kontakt med helsevesenet i forkant av hodeskaden, angis ikke, men det viser at det kan være mulig å fatte mistanke om barnemishandling på et tidligere tidspunkt, og at man således har muligheten til å forebygge dødsfall som følge av SBS.

Stine Sofie-stiftelsen driver en forebyggingskampanje etter amerikansk modell der de deler ut informasjonshefter om SBS på fødeavdelingene i Norge²⁹. Stine Sofie-stiftelsen har også gitt pengestøtte slik at en forsker ved Rettsmedisinsk institutt i Oslo kunne kjøpe en ”crash test dummy” tilsvarende dukkene bilindustrien bruker i kollisjonstester³⁰. Konklusjonen fra denne studien som ikke er publisert enda, er for øvrig at risting generer så store krefter at det trolig gir hjerneskade³⁰.

Barn som har vært utsatt for kraftig risting kan ha vage symptomer og dersom det ikke rapporteres om et traume i sykehistorien, er det ikke sikkert at legen som undersøker barnet tenker at symptomene kan være relatert til en hodeskade. Da er det lite trolig at det vil bli utført bildediagnostikk og ristingen forblir uoppdaget.

Netthinneblødninger har vist seg å være en markør som indikerer at skadene kan være påførte^{2,5}. Insidensen av bilaterale netthinneblødninger ved SBS er veldig høy i forhold til tilsvarende insidens ved aksidentelle hodetraumer hos barn under 2 år, 50-100 % vs. 1,5 %²⁵. Dette bør føre til at mishandling regnes som differensialdiagnose dersom det påvises netthinneblødning hos et barn. Tilsvarende bør man gjøre funduskopi dersom man mistenker mishandling. Men som nevnt under differensialdiagnoser er det mange andre tilstander som kan gi netthinneblødninger og disse må utelukkes. Det virker ikke å være én type netthinneblødning som er patognomonisk for SBS i seg selv, men dersom man finner bilaterale blødninger som dekker mye av arealet av netthinnen, går gjennom hele lagdelingen i netthinnen og finnes perifert er dette en sterk indikator for at det foreligger mishandling, dersom det ikke foreligger noen alternativ forklaring på skadene.

Etter vaginal fødsel kan man finne både netthinneblødninger og hjerneblødninger hos asymptotiske spedbarn. Hos de minste barna er det derfor viktig å utelukke fødselsskader som årsak til eventuelle blødningsfunn.

Det som oftest beskrives som forklaring på barnets skader ved SBS er fall fra lav høyde, for eksempel fra seng eller andre møbler. Det er derfor viktig å vite noe om hva slags skader fall fra lave høyder kan gi. Chadwick et al.¹⁸ og Plunkett¹⁹ kommer til ulike konklusjoner i sine studier. Chadwick synes det faller på sin egen urimelighet at det skal være større risiko forbundet med å falle fra under 1,2 m enn over, og konkluderer dermed at sykehistorien er feil, mens Plunkett ser ingen problemer med at fall fra lav høyde kan generere så store skader. Plunkett sin studie har flere mangler. Han har en liten studiepopulasjon, det er stort sprik i alder, han karakteriserer 3 m som lav høyde og konkluderer med at fall fra lav høyde kan gi netthinneblødninger på tross av at kun seks av 18 barn i studien fikk netthinnen undersøkt.

I forhold til hjerte-lunge-redning har man ikke klart å påvise noen sammenheng med netthinneblødning i større studier, ut fra hva undertegnede vet. Populasjonen i de to studiene gjengitt i denne oppgaven er antageligvis for små til at man kan konkludere sikkert, men resultatene så langt indikerer at det ikke er noen sammenheng mellom netthinneblødning og hjerte-lunge-redning.

Det er forståelig at det finnes få tall om forekomst av SBS. Forbrytelsens natur gjør den vanskelig å forske på – den skjer hovedsakelig i hjemmet, uten vitner og gjerningspersonen har sterke motiver for å lyve om det i etterkant.

Man må vokte seg for å anta at alle tilfeller av SBS skyldes den ”slemme stefaren” og at han må straffes for en hver pris. Det kan tenkes at ristingen er et engangstilfelle som springer ut av ren desperasjon, for eksempel en utslitt forelder som har eneomsorg. I en slik situasjon er det ikke gitt at det beste er å skille barnet fra forelderen, men at tiltak rettet mot undervisning og støtte av forelderen kan være kurativt.

Konklusjon

Det er nødvendig med ytterligere forskning for å avklare skademekanismen bak den diagnostiske triaden i SBS. Et viktig skritt i riktig retning vil være å bruke bedre modeller i studier der man forsøker å måle hvor store krefter det er mulig å generere ved risting. Dette gjelder både de fysiske modellene med tilhørende måleutstyr, samt de teoretiske modellene som brukes for å sette grensen for hvilken kraft som er tilstrekkelig for å påføre de ulike skadene.

Litteraturliste

1. S. F. Carbaugh: Understanding shaken baby syndrome. *Advances in Neonatal care* 2004; 2: 105-116.
2. A-C. Duhaime, C. W. Christian, L.B. Rorke et al: Nonaccidental head injury in infants – The shaken baby syndrome. *The New England Journal of Medicine* 1998; 25: 1822-29.
3. M. E. Case, M. A. Graham, T. C. Handy et al: Position paper on fatal abusive head injuries in infants and young children. *Am J Forensic Med Pathol* 2001; 2: 112-122.
4. C. Adamsbaum, S. Grabar, N. Mejean et. al: Abusive Head Trauma: Judicial Admissions Highlight Violent and Repetitive Shaking. *Pediatrics* 2010; 126: 546-555
5. J. D. Kivlin et al: Shaken baby syndrome. *Ophthalmology* 2000; 7: 1246-54.
6. J. Caffey: The Whiplash infant syndrome: Manual shaking by the Extremities With Whiplash-Induced Intracranial and Intraocular Bleedings. Linked With Residual Permanent Brain Damage and Mental Retardation. *Pediatrics* 1974; 4: 396-403.
7. A.N. Guthkelch: Infantile Subdural Haematoma and its Relationship to Whiplash Injuries. *British Medical Journal* 1971; 2: 430-431
8. M. Oehmichen, D. Schleiss, I. Pedal et al: Shaken baby syndrome: re-examination of diffuse axonal injury as cause of death. *Acta Neuropathol* 2008; 116: 317-329
9. A. I Curcoy, V Trenchs, M Morales et al: Do retinal haemorrhages occur in infants with convulsions? *Arch Dis Child* 2009; 94: 873-75
10. B. Harding, R.A. Risdon, H. F. Krous: Shaken baby syndrome - Pathological diagnosis rests on the combined triad, not on individual injuries. *BMJ*; 328:720-1.
11. M. E. Case: Forensic pathology of child brain trauma. *Brain Pathology* 2008; 18: 562-64.
12. K. W. Feldman, R. Bethel, R. P. Shugerman et al.: The Cause of Infant and Toddler Subdural Hemorrhage: A Prospective Study. *Pediatrics* 2001; 3: 636-646.
13. J. F. Geddes, A. K. Hackshaw, G.H. Vowles et al.: Neuropathology of inflicted head injury in children. I. Patterns of brain damage. *Brain* 2001; 124: 1290-1298
14. J. F. Geddes, A. K. Hackshaw, G.H. Vowles et al.: Neuropathology of inflicted head injury in children. II. Microscopic brain injury in infants. *Brain* 2001; 124: 1299-1306.
15. B. M. Togioka, M. A. Arnold, M. A. Bathurst et al.: Retinal Hemorrhages and Shaken Baby Syndrome: An Evidence-based Review. *The Journal of Emergency Medicine* 2009; 1: 98-109

16. G. Jacobi, R. Dettmeyer, S. Banaschak et al: Child Abuse and Neglect: Diagnosis and Management. Dtsch Arztebl Int 2010; 107: 231-40.
17. K. Yen, K-O. Lövblad, E. Scheurer et al.: Post-mortem forensic neuroimaging: Correlation of MSCT and MRI findings with autopsy results. Forensic Sci. Int. 2007; doi: 10.1016/j.forsciint.2007.01.027
18. D. L. Chadwick, S. Chin, C. Salerno et al.: Deaths from Falls in Children: How Far is Fatal? The Journal of Trauma 1991; 10: 1353-1355.
19. J. Plunkett: Fatal Pediatric Head Injuries Caused by Short-Distance Falls. Am J Forensic Med Pathol 2001; 1: 1-12.
20. M. V. Emerson, D. J. Pieramici, K. M. Stoessel et al.: Incidence and Rate of Disappearance of Retinal Hemorrhage in Newborns. Ophthalmology 2001; 108: 36-39.
21. Timothy J. David: Non-accidental Head Injury - The evidence. Pediatr Radiol 2008; 38: 370-77
22. Fauci, Brandwald, Kasper et al: Harrison's Principles of Internal Medicine 17th ed. ISBN: 978-0-07-159991-7, s. 2472.
23. R. L. Nussbaum, Roderick R. McInnes, H. F. Willard: Thompson and Thompson Genetics in Medicine 6th ed. ISBN: 0-7216-0244-4, s.229-230.
24. M. G. F. Gilliland og Martha Waters Luckenbach: Are Retinal Hemorrhages Found After Resuscitation Attempts? A study of the eyes of 169 children. Am J Forensic Med Pathol 1993; 3: 187-192.
25. A. Odom, E. Christ, N. Kerr et al: Prevalence of Retinal Hemorrhages in Pediatric Patients After In-hospital Cardiopulmonary Resuscitation: A Prospective Study. Pediatrics 1997; 6: e3
26. J.F. Geddes, R.C. Tasker, A. K. Hackshaw et al: Dural haemorrhage in non-traumatic infant deaths: does it explain the bleeding in "shaken baby syndrome"?
27. B. Harding, R. A. Risdon, H. F. Krous: Shaken baby syndrome – Pathological diagnosis rests on the combined triad, not on individual injuries. BMJ 2004; 328: 720-21.
28. A-C. Duhaime, The Shaken Baby Syndrome. A Clinical, Pathological and Biomechanical Study. J Neurosurg 1987; 3: 409-15.
29. <http://stinesofiestiftelse.no/index.php?pageID=169>, 04.03.11
30. A. Stray-Pedersen, F. Strisland, A. Blechingberg et al.: Biomechanical evaluation of shaken baby syndrome. Abstract in. Scand J of Forensic Science; 1: 22.