



**HAL**  
open science

**Caractérisation des propriétés passives des muscles fléchisseurs plantaires chez l'enfant Paralysé Cérébral spastique : Application aux étirements musculo-tendineux**

Clément Boulard

► **To cite this version:**

Clément Boulard. Caractérisation des propriétés passives des muscles fléchisseurs plantaires chez l'enfant Paralysé Cérébral spastique : Application aux étirements musculo-tendineux. Médecine humaine et pathologie. Université de Lyon, 2020. Français. NNT : 2020LYSES011 . tel-03223674

**HAL Id: tel-03223674**

**<https://theses.hal.science/tel-03223674>**

Submitted on 11 May 2021

**HAL** is a multi-disciplinary open access archive for the deposit and dissemination of scientific research documents, whether they are published or not. The documents may come from teaching and research institutions in France or abroad, or from public or private research centers.

L'archive ouverte pluridisciplinaire **HAL**, est destinée au dépôt et à la diffusion de documents scientifiques de niveau recherche, publiés ou non, émanant des établissements d'enseignement et de recherche français ou étrangers, des laboratoires publics ou privés.



N° d'ordre NNT : 2020LYSES011

## **THESE de DOCTORAT DE L'UNIVERSITE DE LYON**

Opérée au sein du  
Laboratoire Inter-universitaire de Biologie de la Motricité-EA 7424

**Ecole Doctorale N° 488  
Sciences Ingénierie et Santé**

**Spécialité de doctorat : Motricité humaine et handicap**

Soutenue publiquement le 27/05/2020, par :

**Clément BOULARD**

---

**Caractérisation des propriétés passives des muscles  
fléchisseurs plantaires chez l'enfant Paralysé Cérébral  
spastique**

**Application aux étirements musculo-tendineux**

---

Devant le jury composé de :

**Mme Carole Vuillerot**, Maître de conférences universitaire-praticien hospitalier, Université de Lyon ; Rapporteuse.

**M Pierre Portero**, Professeur des universités, Université Paris-Est Créteil ; Rapporteur.

**M Philippe Marque**, Professeur des universités-praticien hospitalier, Université de Toulouse ; Examineur. Président du jury.

**Mme Céline Bonnyaud**, Docteur en sciences-kinésithérapeute, Université de Versailles-St Quentin en Yvelines; Examinatrice.

**M Paul Calmels**, Professeur associé-praticien hospitalier, Université Lyon-St-Etienne ; Examineur.

**M Raphaël Gross**, Maître de conférences universitaire-praticien hospitalier, Université de Nantes ; Examineur.

**M Vincent Gautheron**, Professeur des universités-praticien hospitalier, Université Lyon-St-Etienne ; Directeur de thèse.

**M Thomas Lapole**, Maître de conférences universitaire, Université Lyon-St-Etienne ; Co-directeur de thèse

## *Remerciements*

A bien y regarder, ce travail fut une véritable épreuve sportive marquée par plusieurs étapes successives. Mes aspirations personnelles me poussent à la comparer à une compétition de triathlon où rallier l'arrivée n'est jamais acquis d'avance. Pour y arriver, il m'aura fallu compter sur une petite équipe dont les membres ont tous eu un rôle décisif à un moment ou à un autre.

Parce-que se lancer au départ d'une épreuve de triathlon restera toujours une expérience particulière, obtenir l'autorisation de participer à la course est déjà une victoire en soi. Merci au Pr Vincent Gautheron d'avoir toujours cru en ce projet, de l'avoir encouragé et plus simplement pour la confiance témoignée. Merci à Virginie Henriroux d'avoir contribué à rendre ce projet possible.

Dans un triathlon longue distance, la gestion de l'effort et la concentration sont primordiales pour surmonter les difficultés et se donner les chances de voir l'arrivée. Merci au Dr Thomas Lapole qui n'a jamais cessé d'être présent tout au long de l'épreuve pour corriger, conseiller, réorienter et adapter le contenu scientifique. Un coach scientifique rigoureux qui n'abandonne pas ses athlètes malgré les écueils. Bien que parfois indigestes, tes retours ont toujours été très formateurs et justes.

Parce-que dans une telle compétition contre soi-même, il y a toujours une période délicate à franchir lorsque la lassitude devient omniprésente et les résultats encore longs à se dessiner. Merci au Dr Raphaël Gross de m'avoir permis de franchir un cap décisif et d'entrevoir la possibilité de terminer une épreuve mal embarquée. Tes compétences et ton enthousiasme au téléphone m'ont donné un surplus de motivation.

Merci aux familles et aux enfants qui ont bien voulu participé aux évaluations. Il n'est jamais facile de donner un peu de temps à des expérimentations dans un quotidien déjà chargé de soins.

Merci aux membres du jury d'avoir accepté d'évaluer ce travail.

Enfin, ce serait une grave erreur d'oublier que le triathlète solitaire a peu de chances de toucher son rêve sans l'amour de son fan-club. Merci à Aurélie pour tout ce que tu m'apportes au quotidien, pour avoir aussi accepté ce travail. Merci à Titouan qui a bien grandi au fil des années passées sur ce projet. Tes longues siestes du week-end m'ont permis de voler des séances de travail bienvenues. Maintenant que tu ne dors plus la journée, il est temps de franchir la ligne d'arrivée et d'accueillir un nouveau membre dans l'équipe. Pour une nouvelle course, peut-être...

# Résumé

Au sein de la population d'enfants atteints de paralysie cérébrale (PC), les muscles fléchisseurs plantaires, et notamment le muscle gastrocnémien médial (GM), sont classiquement atteints par de multiples altérations neuromusculaires. Parmi celles-ci, la rétraction musculo-tendineuse (*i.e.* déficit d'amplitude articulaire lié à un raccourcissement musculo-tendineux), de développement progressif au cours de la croissance, semble être liée à l'altération de la croissance du muscle parétique et spastique et au-delà à l'altération de ses propriétés intrinsèques. Dans la littérature, la rétraction musculo-tendineuse est fréquemment associée au concept de « raideur passive » (RP).

L'hypothèse générale de ce travail était que, chez l'enfant PC spastique, l'évaluation de la RP du muscle parétique et spastique, traduisant l'altération de ses propriétés élastiques, présente la même importance clinique que celle des autres altérations neuromusculaires. A partir d'une revue de littérature narrative et de quatre contributions expérimentales menées chez l'enfant PC unilatéral (PCU), les objectifs de cette thèse étaient de mieux comprendre le concept de RP appliqué à l'unité musculo-tendineuse (UMT) du Triceps sural et au muscle GM parétique et spastique puis d'investiguer les aspects méthodologiques, fondamentaux (*i.e.* caractérisation des membres parétique et non-parétique) et thérapeutiques liés à la mesure de la RP.

Les résultats de ce travail montrent que, dans la littérature, le concept de RP n'est pas défini de façon précise chez l'enfant PC. L'hétérogénéité du matériel et des méthodes de mesure utilisés, les caractéristiques intrinsèques de la population étudiée et les méthodes de traitement des données rendent les valeurs de RP difficiles à interpréter. L'utilisation d'un dynamomètre, le plus souvent de type isocinétique, permet de mesurer la RP de l'ensemble de l'UMT du Triceps sural. Cette mesure est reproductible chez l'enfant PCU mais les valeurs enregistrées dépendent de la méthode de traitement des données. Cette méthode dite « dynamométrique » ne renseigne pas sur le niveau de tension passive d'un muscle spécifique tel que le muscle GM. La technologie Shear Wave Elastography (SWE) permet de s'affranchir de cette limite. Néanmoins, il manque des preuves de la reproductibilité des mesures réalisées chez l'enfant PC spastique et l'interprétation des résultats reste sujet à caution.

Les méthodes dynamométriques et SWE permettent de mettre en évidence une élévation du niveau de tension passive du muscle GM parétique et spastique par rapport au membre non-parétique, associée à la diminution significative de l'amplitude maximale de flexion dorsale de cheville côté parétique. Ce résultat pourrait être la conséquence d'une altération des propriétés morphologiques (*i.e.* longueur musculaire et tendineuse) du membre parétique par rapport au membre non-parétique alors qu'aucune différence significative n'a été retrouvée concernant les propriétés élastiques (*i.e.* RP).

Les étirements musculo-tendineux passifs de longue durée et de haute intensité présentent une efficacité immédiate sur le gain d'amplitude de flexion dorsale de cheville chez le sujet PCU



spastique. Ce résultat apparaît lié à une augmentation de la tolérance à l'étirement plutôt qu'à une modification des propriétés élastiques du membre parétique.

Pour conclure, il semble qu'une mesure régulière des propriétés élastiques (*i.e.* RP) et morphologiques (*i.e.* longueur musculaire et tendineuse) des muscles fléchisseurs plantaires parétiques et spastiques tout au long de la croissance permettrait de mieux comprendre le développement des rétractions musculo-tendineuses chez l'enfant PC et d'évaluer les effets des traitements répétés tels que les techniques d'étirements passifs.

# Table des matières

Introduction .....	1
1 <sup>ère</sup> partie – Revue de littérature .....	4
I. La paralysie cérébrale de l’enfant .....	4
I.1 Généralités .....	4
I.2 L’enfant PC spastique unilatéral .....	5
I.3 Déficits neuromusculaires de l’enfant PC spastique .....	7
I.3.1 Spasticité .....	8
I.3.2 Déficit de sélectivité motrice .....	10
I.3.3 Faiblesse musculaire .....	11
II Rôle des muscles fléchisseurs plantaires lors de la marche .....	13
II.1 Anatomie du muscle Triceps sural.....	13
II.2 Biomécanique fonctionnelle .....	14
II.3 Influence des déficiences neuromusculaires .....	15
III Le muscle Triceps sural.....	23
III.1 Croissance musculaire .....	23
III.2 Biomécanique lors de l’allongement passif.....	24
III.3 Altérations morphologiques chez l’enfant PC spastique .....	25
III.3.1 Au niveau macroscopique .....	25
III.3.2 Au niveau microscopique .....	26
III.3.3 Conséquence clinique : la rétraction musculo-tendineuse.....	27
III.3.4 Origine des rétractions musculo-tendineuses .....	29
III.4 Impact des traitements répétés.....	31
2 <sup>ème</sup> partie – Contributions scientifiques.....	34
I. Hypothèses et Objectifs .....	34
II. Contribution # 1 à l’avancée des connaissances -Raideur passive des muscles fléchisseurs plantaires chez l’enfant PC spastique : revue de littérature .....	37
II.1 Introduction.....	37
II.2 Quels sont le matériel et les méthodes utilisés ?.....	38
II.2.1 Méthode dynamométrique .....	38
II.2.2 Méthode Shear Wave Elastography (SWE).....	40
II.3 Quels sont les principaux résultats retrouvés dans la littérature ? .....	43
II.3.1 Méthode dynamométrique .....	43
II.3.2 Méthode Shear Wave Elastography (SWE).....	44

II.4 Comment interpréter ces résultats ?.....	45
II.4.1 Influence du protocole expérimental utilisé.....	45
II.4.2 Résultats issus de la méthode dynamométrique.....	46
II.4.3 Résultats issus de la méthode Shear Wave Elastography (SWE) .....	48
II.5 Comment expliquer l'augmentation de la raideur passive chez l'enfant PC spastique ?.....	50
III. Instrumentation et traitement des données .....	52
III.1 Protocole expérimental.....	52
III.2 Traitement des données .....	54
IV. Contribution # 2 à l'avancée des connaissances - Méthodologie de la mesure de raideur passive de l'UMT du Triceps sural. ....	57
IV.1 Contexte général et objectifs .....	57
IV.2 Population et statistiques .....	57
IV.3 Résultats .....	60
IV.4 Discussion .....	64
IV.5 Conclusion.....	66
V. Contribution # 3 à l'avancée des connaissances - Mesures biomécaniques et élastographiques de la raideur passive.....	67
V.1 Contexte général et objectifs .....	67
V.2 Population et statistiques .....	68
V.3 Résultats .....	69
V.4 Discussion.....	73
V.5 Conclusion.....	75
VI. Contributions # 4 et 5 à l'avancée des connaissances - Application aux étirements musculotendineux passifs. ....	76
VI.1 Contribution # 4 : effets immédiats d'une session d'étirement.....	76
VI.1.1 Contexte général et objectifs .....	76
VI.1.2 Population, méthode et statistiques .....	78
VI.1.3 Résultats .....	80
VI.1.4 Discussion .....	83
VI.1.5 Conclusion.....	84
VI.2 Contribution # 5 : effets d'un programme d'étirement de longue durée.....	85
VI.2.1 Contexte général et objectifs .....	85
VI.2.2 Matériel et méthode.....	86
VI.2.3 Résultats .....	88

VI.2.4 Discussion .....	94
VI.2.5 Conclusion.....	95
VII. Discussion générale .....	96
VII.1 Que désigne le terme de raideur passive ? .....	96
VII.2 Comment évaluer la raideur passive de l'UMT du Triceps sural ?.....	97
VII.3 Quel est l'apport des mesures SWE ? .....	99
VII.4 Comment mettre en œuvre des techniques d'étirements efficaces chez le sujet PC ? .....	101
VIII. Conclusion et perspectives .....	103
IX. Références .....	106
X. Annexes .....	123
Annexe A : Echelle Motrice Fonctionnelle Globale (EMFG).....	123
Annexe B: Gross Motor Functional Classification System (GMFCS).....	125
Annexe C : échelles d'Ashworth et d'Ashworth Modifiée .....	126
Annexe D : échelles de Tardieu et de Tardieu Modifiée.....	127
Annexe E : Selective Control Assessment of Lower Extremity (SCALE) .....	128
Annexe E: article de revue de la littérature : <i>European Journal of Applied Physiology</i> .....	131
Annexe F: article <i>Journal of Electromyography and kinesiology</i> . .....	146

## Liste des abréviations

**CV** : coefficient de variation

**EMG** : électromyographie

**EMFG** : échelle motrice fonctionnelle globale

**ESM** : erreur standard de mesure

**FD** : flexion dorsale

**FP** : flexion plantaire

**GM** : gastrocnémien médial

**GMFCS** : Gross Motor Function Classification System

**ICC** : coefficient intra-classe de corrélation

**PC** : paralysie cérébrale

**PCU** : paralysie cérébrale unilatérale

**PCB** : paralysie cérébrale bilatérale

**RP** : raideur passive

**RP<sub>abs</sub>** : raideur passive absolue

**RP<sub>rel</sub>** : raideur passive relative

**R<sup>2</sup>** : coefficient de détermination

**SCALE** : Selective Control Assessment of Lower Extremity

**SWE** : Shear Wave Elastography

**TA** : tendon d'Achille

# Introduction

La paralysie cérébrale définit un « *ensemble de déficits permanents affectant le développement du mouvement et de la posture et causant une limitation d'activité. Ces déficits sont attribués à des lésions cérébrales non-progressives survenant au cours de la vie fœtale ou de la période néonatale* » (Rosenbaum et al., 2007).

Bien que la lésion initiale soit fixée, les déficits neuromusculaires présents dès la naissance (*i.e.* déficits primaires ; spasticité, déficit de sélectivité motrice, faiblesse musculaire) interrégissent entre eux tout au long de la croissance et favorisent ainsi le développement progressif de déficits ou de limitations fonctionnelles secondaires. Parmi ces derniers, les rétractions musculo-tendineuses (*i.e.* « *contracture* » pour les anglo-saxons), définis comme un raccourcissement permanent de l'unité musculo-tendineuse (UMT) (Lieber et al., 2018), sont fréquentes. Les muscles fléchisseurs plantaires (*i.e.* soléaire et gastrocnémiens) sont atteints dans la majorité des cas (Wren et al., 2004, 2010), notamment lors de l'accélération de la vitesse de la croissance (Švehlík et al., 2013). Les déficits primaires et secondaires sont à l'origine d'altérations du schéma de marche qui évoluent tout au long de la croissance et doivent donc être fréquemment réévaluées. Parmi les altérations neuromusculaires primaires, seule la spasticité est accessible à un traitement médical et/ou neurochirurgical (*i.e.* traitement per-os, injection de toxine botulique, pompe à baclofène intra-thécale,...) dont les modalités diffèrent en fonction des caractéristiques intrinsèques (*i.e.* âge...) et cliniques de l'enfant (*i.e.* spasticité diffuse ou localisée, force musculaire, niveau fonctionnel...). La spasticité définie originellement de façon très précise comme « *un trouble moteur caractérisé par une augmentation vitesse dépendante des réflexes toniques d'étirement accompagnée d'une exagération des réflexes ostéo-tendineux, résultant d'une hyperexcitabilité du réflexe d'étirement, considérée comme une composante du syndrome pyramidal* » (Lance 1980) est souvent considérée comme étant à l'origine du développement des rétractions musculo-tendineuses. Or, la définition de la spasticité n'est pas univoque et d'autres versions élargies ont par la suite été proposées (Bar-On et al., 2015; Malhotra et al., 2009), entraînant une certaine confusion sur l'origine physiopathologique et l'expression clinique de ce symptôme. Par ailleurs, les échelles d'évaluation clinique, utilisées quotidiennement, (*i.e.* Ashworth et Ashworth Modifiée, Tardieu et Tardieu Modifiée) présentent des qualités psychométriques variables (Fosang et al., 2007; Numanoglu, 2012; Pandyan et al., 1999; Patrick and Ada, 2006; Yam and Leung, 2006) et ne permettent pas de quantifier avec précision le niveau de la spasticité. Par conséquent, il est difficile pour le clinicien de distinguer avec précision l'origine de l'excès de résistance ressentie lors de la mobilisation passive du membre parétique et spastique de l'enfant paralysé cérébral (PC). L'hyperactivation musculaire d'origine neurologique (*i.e.* spasticité et/ou dystonie (« *contraction involontaire survenant au repos responsable de mouvements répétitifs et/ou de postures anormales* », (Rice et al., 2017)), dont le rôle joué dans le développement des

rétractions musculo-tendineuses apparaît incertain, peut être ainsi fréquemment confondue avec un excès de résistance des tissus d'origine mécanique (*i.e.* perte d'extensibilité). Or, les indications des traitements répétés tout au long de la croissance dont les objectifs sont de faciliter la fonction et de prévenir/ralentir la dégradation orthopédique, reposent avant tout sur l'identification précise du/des symptômes à l'origine des déficits secondaires.

Depuis les travaux princeps de Tardieu et al., (1982), plusieurs décennies se sont écoulées avant que d'autres auteurs s'intéressent aux propriétés passives de l'UMT du Triceps sural de l'enfant PC (Alhusaini et al., 2010; Barber et al., 2011; Willerslev-Olsen et al., 2013...). Les derniers travaux de la littérature, mesurant la résistance passive développée par la cheville lors de sa mobilisation à l'aide d'un dynamomètre, font état d'un excès de « raideur » passive au niveau du membre parétique et spastique de l'enfant PC (Alhusaini et al., 2010; Barber et al., 2011; de Gooijer-van de Groep et al., 2013; Ross et al., 2011; Willerslev-Olsen et al., 2013). Cette majoration de la résistance à l'allongement de l'UMT du Triceps sural, qui apparaît précédée d'une altération de la croissance musculaire des muscles gastrocnémiens (Herskind et al., 2016; Willerslev-Olsen et al., 2018) a été observée dès le plus jeune âge (*i.e.* 27 mois, Willerslev-Olsen et al., 2018). Chez l'enfant PC, l'altération des propriétés morphologiques et élastiques des muscles fléchisseurs plantaires était jusqu'alors considérée comme secondaire, survenant plus tardivement au cours de la croissance. A ce sujet, certains auteurs ont proposé l'expression de « *myopathie spastique* » pour caractériser l'apparition précoce de ces troubles (Gracies, 2005a), par ailleurs influencés tout au long de la croissance par certains traitements répétés (*i.e.* injections de toxine botulique, plâtres d'allongement..., Alexander et al., 2018; Barber et al., 2013; Schless et al., 2019). Il apparaît ainsi qu'une évaluation précise et quantifiée des propriétés élastiques du muscle parétique et spastique de l'enfant PC se justifie dès le plus jeune âge et tout au long de la croissance afin de comprendre le développement les rétractions musculo-tendineuses au sein de cette population et de pouvoir y remédier.

En prenant comme objet d'étude les muscles fléchisseurs plantaires de cheville, classiquement atteints chez l'enfant PC spastique, nous émettons l'hypothèse que les propriétés élastiques du muscle parétique et spastique doivent être évaluées avec le même intérêt que les altérations classiquement repérées (*i.e.* spasticité...). A travers une première contribution scientifique (revue narrative de la littérature, Boulard et al., 2019a), ce travail de thèse a comme premier objectif de faire un état des lieux exhaustif autour du concept de « raideur » passive et de répondre aux questions suivantes ; Que désigne réellement le terme de « raideur » passive ? Comment ce paramètre est-il mesuré et interprété ?

Nos hypothèses expérimentales étaient : (1) que les valeurs du paramètre de RP de l'UMT du muscle Triceps sural diffèrent de façon significative en fonction de la méthode de traitement des données utilisée, influençant ainsi la reproductibilité des mesures ; (2) qu'il est possible de mesurer ce paramètre de façon reproductible afin de caractériser les membres parétique et non parétique de l'enfant PCU et d'évaluer les effets des techniques d'étirements passifs des muscles fléchisseurs

plantaires de cheville. La vérification de ces hypothèses a constitué les objectifs des quatre travaux expérimentaux que nous présentons dans ce travail de thèse.

En préambule de ces travaux scientifiques, une revue non exhaustive de la littérature présentera des données essentielles sur la paralysie cérébrale de type unilatérale, les principales altérations neuromusculaires qui la caractérisent, leurs influences sur les paramètres de la marche à travers notamment l'altération des propriétés morphologiques et structurelles du muscle Triceps sural.



# 1<sup>ère</sup> partie – Revue de littérature

## I. La paralysie cérébrale de l'enfant

### I.1 Généralités

La paralysie cérébrale définie précédemment (Rosenbaum et al., 2007) est le handicap moteur le plus fréquent chez l'enfant avec une prévalence de 1,7 pour 1000 naissances (Sellier et al., 2016). Néanmoins, la prévalence augmente avec la prématurité de la naissance allant de 0,89 pour les enfants nés avec un poids considéré comme normal (>2499 grammes) à 42,4 pour 1000 naissances pour les enfants nés avec un poids considéré comme extrêmement faible (<1000 grammes) (Sellier et al., 2016). Les enfants PC sont classiquement décrits selon deux grands types de classification :

- selon la topographie de l'atteinte motrice prédominante (Bax et al., 2005) (Figure 1):

- PC unilatérale (monoplégie, hémiplégie) : atteinte d'un hémicorps.
- PC bilatérale (diplégie, quadriplégie) : atteinte des deux hémicorps.

- selon le trouble du tonus musculaire prédominant (Figure 1):

- spasticité : 87% des sujets PC (Zhou et al., 2017)
- dyskinésie (dystonie et/ou choréo-atéthose) : 7,5% des sujets PC (Zhou et al., 2017)
- ataxie : 4% des sujets PC (Zhou et al., 2017)

Ce travail de thèse s'intéresse plus particulièrement à l'enfant PCU de type spastique.

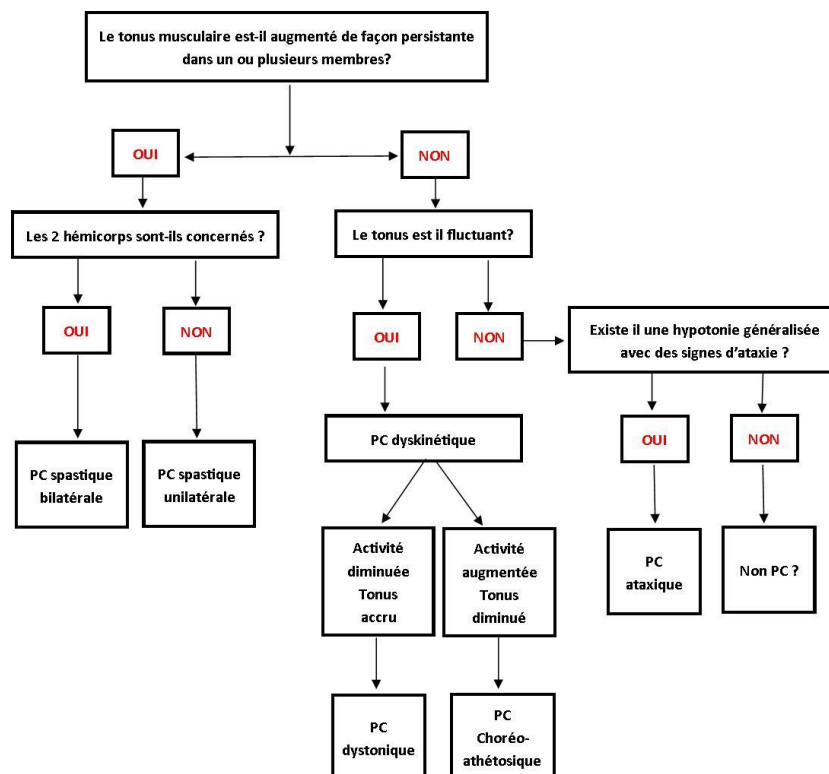
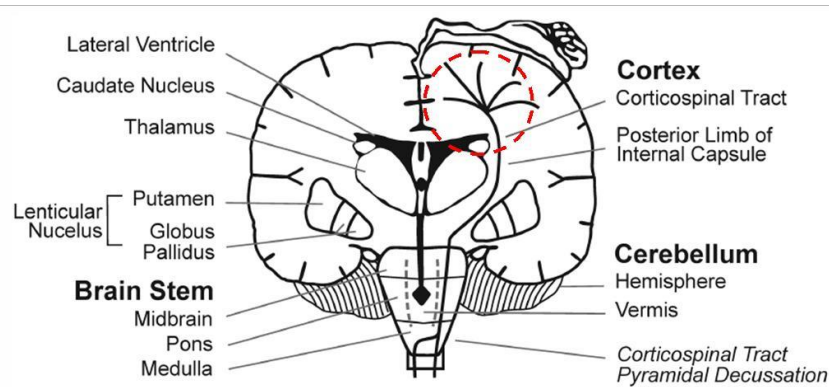


Figure 1: Classification de la paralysie cérébrale en fonction des troubles du tonus. D'après Cans, 2007.

Chaque grande catégorie de trouble du tonus musculaire est liée à une localisation préférentielle des lésions au niveau du cerveau (Zhou et al., 2017). La forme spastique est le plus souvent la conséquence de lésions survenant au niveau du cortex moteur et de la substance blanche péri-ventriculaire alors que les formes dystoniques et ataxiques sont liées à des lésions survenant respectivement au niveau des ganglions de la base et des structures cérébelleuses (Zhou et al., 2017) (Figure 2).



**Figure 2 : Représentation schématique des structures corticales et de l'homonculus de Penfield. Le cercle en pointillés rouge désigne la zone privilégiée des lésions cérébrales responsables d'une paralysie cérébrale de type spastique. Adaptée de Zhou et al., 2017.**

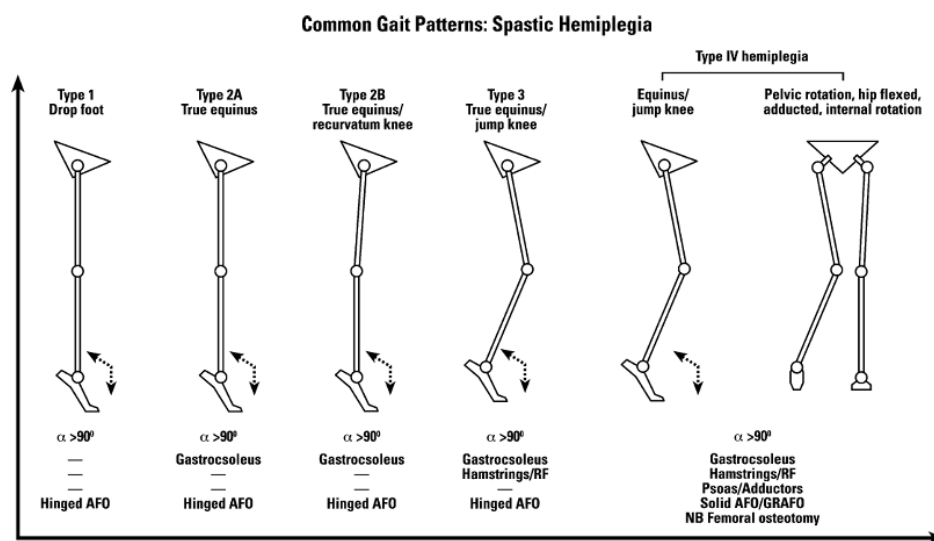
Bien que très informatives, ces descriptions donnent une vision encore incomplète de l'hétérogénéité de la paralysie cérébrale de l'enfant. Ainsi, les enfants PC bilatéraux (PCB) présentent souvent une asymétrie d'atteinte motrice entre les deux membres inférieurs alors que l'hémicorps non-parétique des enfants PCU ne peut pas être considéré comme sain (Bax et al., 2005; Wiley and Damiano, 1998). De la même façon, il n'est pas rare de trouver des formes « mixtes » associant par exemple spasticité et dystonie (Zhou et al., 2017). Il est donc nécessaire de compléter ces informations par des évaluations standardisées et validées au sein de cette population. L'Echelle Motrice Fonctionnelle Globale (EMFG) permet d'évaluer de façon exhaustive le niveau fonctionnel de chaque enfant à travers différentes positions et fonctions (positions couché à debout, fonction de retournement à marche, course et saut) (Annexe A). Plus succincte, la *Gross Motor Functional Classification System* (GMFCS) représente l'échelle « gold standard » permettant de décrire en 5 grades le niveau d'indépendance de la locomotion (Annexe B).

## **I.2 L'enfant PC spastique unilatéral**

Avec une prévalence de 0,6/1000 naissances, il s'agit de la forme la plus fréquente de paralysie cérébrale chez les enfants nés à terme (Chabrier et al., 2010). Le diagnostic médical de paralysie cérébrale unilatérale (encore dénommée hémiplégie cérébrale infantile pour les francophones) est réalisé après plusieurs mois de vie lors de l'apparition de signes d'appels, le plus souvent au membre supérieur (*e.g.* latéralisation précoce...). Les accidents vasculaires cérébraux et les

lésions dus à la prématurité sont les deux principaux mécanismes à l'origine du développement d'une paralysie cérébrale unilatérale. L'infarctus cérébral artériel périnatal est la cause principale d'accident vasculaire cérébral. D'autres déficiences d'origine cérébrales peuvent assez souvent s'associer aux troubles moteurs (*e.g.* déficit cognitif, épilepsie...) et sont à rechercher, évaluer et prendre en considération vis-à-vis des capacités fonctionnelles.

La période de survenue de la lésion cérébrale et sa localisation ont des conséquences directes sur la présentation clinique des enfants PC. Au membre inférieur, les enfants PCU présentent ainsi une atteinte motrice (*e.g.* spasticité, déficit de sélectivité motrice, faiblesse musculaire...) touchant préférentiellement la cheville et le pied alors que le genou, la hanche et le bassin peuvent également être affectés chez l'enfant PCB (Damiano et al., 2007). De ce fait, Damiano et al., (2007) ont montré que les enfants PCU présentaient un meilleur schéma de marche que les enfants PCB classés dans un même grade de la GMFCS. Alors que le membre inférieur non-parétique de l'enfant PCU ne peut pas être considéré comme sain ou totalement indemne, il a été rapporté que la faiblesse musculaire du membre parétique par rapport au côté opposé était significative uniquement pour les muscles fléchisseurs dorsaux et plantaires de cheville (Wiley and Damiano, 1998). Par ailleurs, il semble que la croissance musculaire des muscles gastrocnémiens soit plus faible chez l'enfant PCU que PCB (Barber et al., 2016), ce qui peut être à l'origine d'une plus grande incidence du développement de rétractions musculo-tendineuses et d'un équin de cheville au sein de ce sous-groupe (Cobeljic et al., 2009). Papageorgiou et al., (2019) ont confirmé le rôle prédominant des déficits neuromusculaires touchant la cheville dans l'altération du schéma de marche chez l'enfant PCU par rapport à l'enfant PCB. Ainsi, la classification de la marche du sujet PCU de Winters et al., (1987) décrit plusieurs stades de gravité croissante comprenant systématiquement la présence d'un équin de cheville (Figure 3) :



**Figure 3 : Classification de la marche de l'enfant PCU selon Winters., et al (1987).**

- **stade I** : atteinte distale caractérisée par un excès de flexion plantaire (FP) lors de la phase oscillante, conséquence d'un déficit des muscles fléchisseurs dorsaux et/ou d'une hyper-activation des muscles fléchisseurs plantaires. L'amplitude articulaire de flexion dorsale (FD) est normale. Des mouvements de compensations caractérisés par une augmentation du mouvement de flexion de la hanche et du genou surviennent classiquement lors de la phase oscillante pour faciliter le passage du pied.
- **stade II** : atteinte distale similaire au stade I mais compliquée par un excès de FP tout au long du cycle de marche, conséquence d'un raccourcissement et/ou rétraction du muscle Triceps sural (type IIa). Ce positionnement du pied en FP lors du contact initial puis de la phase de simple appui peut entraîner un mouvement d'hyper-extension de genou (recurvatum) (type IIb). Le stade II est souvent une évolution du stade I.
- **stade III** : atteinte plus importante se caractérisant par un excès de FP tout au long du cycle de marche, associé à un excès de flexion de genou lors du contact initial et une diminution de la flexion de genou pouvant survenir trop tardivement lors de la phase oscillante de la marche. Une hyper-extension de genou peut survenir en fin d'appui.
- **Stade IV** : atteinte touchant l'ensemble des articulations du membre inférieur. On retrouve les caractéristiques du stade 3, associées à un déficit de flexion de hanche lors de la phase oscillante et un déficit d'extension du genou et de la hanche en fin d'appui. Dans le plan frontal, on retrouve un excès d'adduction et de rotation interne de hanche. Une hyper-lordose lombaire est également possible.

Tout au long de la croissance, la stratégie thérapeutique mise en œuvre au niveau du membre inférieur de l'enfant PCU vise notamment à prévenir l'apparition de rétractions musculo-tendineuses des muscles fléchisseurs plantaires et favoriser la motricité des muscles fléchisseurs dorsaux. Les traitements répétés (injections de toxine botulique, plâtres d'allongements, appareillages de posture et de marche, kinésithérapie...) permettent ainsi de retarder la réalisation d'une éventuelle chirurgie jusqu'à l'âge de la puberté, afin d'éviter des récives dues au potentiel de croissance restant (Cobeljic et al., 2009).

Chez l'enfant PCU, l'évolution physiopathologique lors de la croissance associée aux différents moyens thérapeutiques mis en œuvre de façon répétée impactent fortement les propriétés morphologiques et structurelles des muscles fléchisseurs plantaires de cheville (Malaiya et al., 2007; Mohagheghi et al., 2007; Obst et al., 2017).

### **I.3 Déficiets neuromusculaires de l'enfant PC spastique**

Les déficiets neuromusculaires de l'enfant PC diffèrent selon la nature des troubles du tonus prédominants. Dans cette partie, seuls les déficiets neuromusculaires de l'enfant PC spastique seront

décrits. Pour plus d'informations concernant les atteintes de type dyskinétique et ataxique, le lecteur pourra se référer à la revue récente de Zhou et al., (2017).

La paralysie cérébrale de type spastique se caractérise par l'interrelation de plusieurs altérations ou déficiences neuromusculaires distinctes : spasticité, déficit de sélectivité motrice et faiblesse musculaire (Zhou et al., 2017). Dans la plupart des études, les formes unilatérales et bilatérales sont incluses au sein du même groupe de sujets, compliquant ainsi la description des déficits spécifiques à chacun des tableaux cliniques.

### **I.3.1 Spasticité**

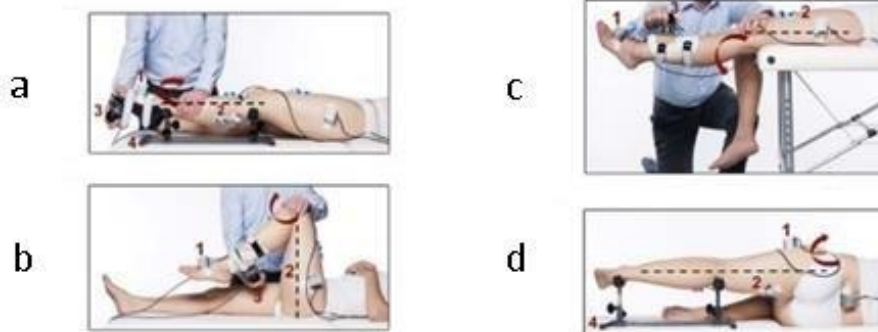
#### **- Problématique de la définition**

A la suite de la définition originelle de la spasticité formulée par Lance en 1980, des versions complémentaires ont par la suite été proposées, précisant certains mécanismes physiopathologiques mis en jeu (Delwaide, 1993), ainsi que la manifestation clinique de sa survenue (Sanger et al., 2003). A l'opposé de ces descriptions précises, le SPASM Consortium (réseau européen de travail sur le développement de mesure standard de la spasticité dans la paralysie cérébrale) a proposé plus récemment une définition élargie évoquant un « *trouble du contrôle moteur, résultant d'une lésion cérébrale, se présentant comme une activation involontaire, continue ou intermittente de certains muscles* » (Bar-On et al., 2015; Malhotra et al., 2009). En supprimant les notions d'« hyperréflexie » et de « vitesse dépendance », il devient aisé de substituer cette définition de la spasticité par le terme d'« hypertonie musculaire », survenant à la suite d'une lésion cérébrale. Or, si cette expression permet d'indiquer grossièrement la nature de l'altération ou de la déficience motrice, il n'éclaire pas le clinicien sur les conditions dans lesquelles il s'exprime. Au repos ? Lors du mouvement ? A vitesse lente ou rapide ? Dans des conditions passives ou actives ? Majoré par l'environnement ? L'« hypertonie » est donc un terme générique, qui permet une pluralité d'interprétations cliniques (Shortland, 2018). En ce sens, l'utilisation de la définition précédente peut introduire une forme d'ambiguïté tant sur le plan clinique que scientifique. Par conséquent, elle ne permet plus de distinguer des symptômes aussi différents que la spasticité, telle que décrite initialement par Lance, et la dystonie. Dans le but de clarifier l'utilisation du terme de « spasticité », un consensus européen d'experts a récemment recommandé de désigner par ce terme uniquement le phénomène « *d'hyperréflexie vitesse dépendante* » (van den Noort et al., 2017). Par conséquent, nous employons le terme de spasticité uniquement en ce sens tout au long de ce manuscrit.

#### **- Problématique de l'évaluation**

La nécessité d'un consensus autour de la définition du terme de « spasticité » est directement liée aux difficultés rencontrées lors de son évaluation clinique. Les échelles cliniques classiques montrent en effet des limites importantes. Les échelles d'Ashworth et d'Ashworth modifiée (Annexe C) ne prennent pas en compte l'aspect vitesse-dépendance de la spasticité (Lance JW 1980; Pandyan et al., 1999; Scholtes et al., 2005; van den Noort et al., 2017). Par conséquent, elles ne permettent pas de

distinguer les origines neurophysiologiques et mécaniques de la résistance à l’allongement du muscle parétique et spastique (Pandyan et al., 1999). Par ailleurs, elles présentent une faible reproductibilité (Fosang et al., 2007; Mutlu et al., 2008; Numanoğlu, 2012; Yam and Leung, 2006) et un manque de sensibilité au changement (Bar-On et al., 2014b; Damiano et al., 2002; Pandyan et al., 2002; Patrick and Ada, 2006). Les échelles de Tardieu et de Tardieu modifiée (Annexe D) présentent une plus grande concordance avec la définition de la spasticité, décrite ci-dessus, du fait de l’incorporation de vitesses de mobilisation différentes. Néanmoins, certains paramètres tels que l’angle d’apparition de la spasticité (*i.e. spastic catch* pour les anglo-saxons) sont faiblement corrélés avec les enregistrements instrumentaux (van den Noort et al., 2017). Par ailleurs, sa reproductibilité semble dépendante de l’expérience des cliniciens et de leur formation spécifique à son utilisation standardisée (Gracies et al., 2010). La mesure quantitative de la spasticité reste un véritable challenge à ce jour que seule une évaluation instrumentale semble pouvoir atteindre. Deux méthodes sont décrites dans la littérature : évaluation manuelle instrumentée (Figure 4) ou évaluation motorisée à l’aide d’un dispositif de type dynamomètre (Bar-On et al., 2015). Certaines de ces techniques d’évaluation, combinant enregistrements simultanés électromyographique (EMG) et biomécanique, se montrent capables de mesurer la présence de spasticité chez l’enfant PC par rapport au sujet sain (Bar-On et al., 2013) et sont plus sensibles que les échelles cliniques à la réponse aux traitements (Bar-On et al., 2014a).



**Figure 4 : Exemples d’évaluation de la spasticité à partir d’un dispositif manuel instrumenté au niveau des muscles fléchisseurs plantaires (a), muscles ischio-jambiers (b), muscle droit fémoral (c) et muscles adducteurs (d). Adaptée de Schless et al., (2015).**

La reproductibilité de l’évaluation manuelle instrumentée apparaît modérée ( $ICC > 0.6$ ) et dépendante du groupe musculaire évalué (moins bonne reproductibilité pour les muscles adducteurs) (Schless et al., 2015).

Malgré l’apport des méthodes instrumentales, des résultats contradictoires sont rapportés dans la littérature. Lors d’un allongement passif des muscles fléchisseurs plantaires à vitesse rapide, certains auteurs ont décrit des paramètres EMG et de couple passif largement majorés chez l’enfant PC par rapport à l’enfant sain (Bar-On et al., 2013; de Gooijer-van de Groep et al., 2013) alors que d’autres ne retrouvent aucune différence (Willerslev-Olsen et al., 2013, 2018). Des différences méthodologiques importantes entre les études peuvent expliquer ces résultats (Bar-On et al., 2015). De nombreuses

études semblent encore nécessaires pour réussir à mettre au point des mesures plus valides et fiables de la spasticité.

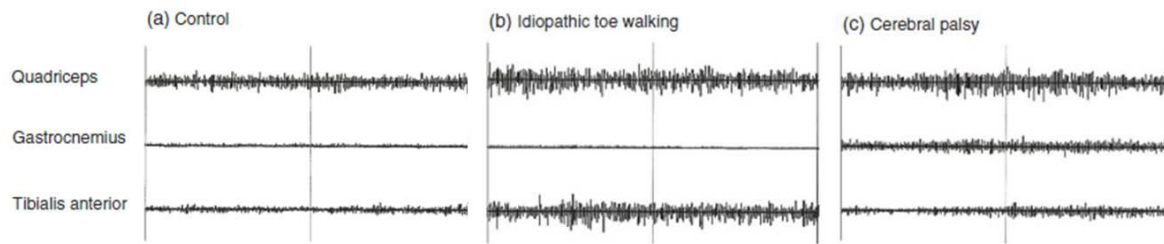
- Influence dans le développement des rétractions

L'hyper-activation musculaire involontaire d'origine neurologique (*i.e.* spasticité, dystonie et co-contraction) est classiquement considérée comme une des causes d'aggravation de la perte de compliance des tissus musculo-tendineux. Des contractions musculaires répétées favoriseraient le maintien du muscle en position courte et par conséquent l'apparition des rétractions au cours de la croissance (Gracies, 2005a). Néanmoins, l'impact de la spasticité, difficile à quantifier, semble moindre par rapport aux autres composantes de l'hyper-activation involontaire d'origine neurologique (dystonie, co-contraction) (Gracies, 2005a). Par ailleurs, il est classiquement avancé dans la littérature que l'expression de la spasticité serait favorisée au sein d'un muscle rétracté par une plus grande rapidité de transmission de l'influx nerveux (Gracies, 2005b). Toutefois, cette notion se base sur des études réalisées chez l'animal au sein duquel il a été montré que le réflexe myotatique monosynaptique était plus sensible sur un muscle devenu raccourci et peu compliant à la suite d'une immobilisation en position courte (Petit et Gioux, 1993). Cette dernière situation reste très éloignée de celle des enfants PC marchant. Par l'apport de nouvelles connaissances concernant le mode de déclenchement de la spasticité chez l'enfant PC, les dernières données de la littérature remettent ainsi en cause certains mécanismes établis. Deux cas de figures illustrent l'hétérogénéité de l'expression de la spasticité :

- la faible capacité d'allongement musculaire des muscles gastrocnémiens spastiques aux propriétés élastiques altérées pourrait prévenir l'atteinte d'une vitesse d'allongement élevée et donc le déclenchement d'une hyper-activation réflexe de type spastique (Bar-On et al., 2018).
- l'activation réflexe peut se déclencher à faible vitesse d'allongement dans certains groupes musculaires, tels que les ischio-jambiers (Bar-On et al., 2015) sous l'influence de la longueur musculaire plutôt que de la vitesse d'allongement (Bar-On et al., 2014b, 2018).

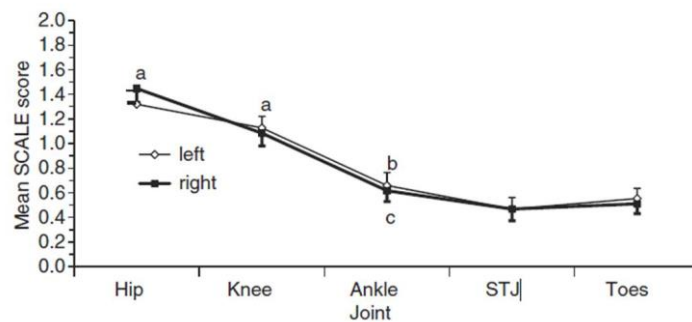
### **I.3.2 Déficit de sélectivité motrice**

La sélectivité motrice peut se définir comme « *la capacité d'isoler l'activation musculaire dans un schéma de mouvement donné en réponse à une demande de mouvement volontaire ou d'une posture* » (Sanger et al., 2006). Il s'agit de la capacité de réaliser des mouvements articulaires analytiques sans mise en jeu de synergies motrices impliquant plusieurs articulations au niveau du même membre ou du membre opposé (mouvement en miroir). En se basant sur l'analyse EMG du recrutement musculaire, l'altération de la sélectivité motrice se caractérise par l'obligation de recruter des muscles synergiques lors d'un mouvement volontaire (Cahill-Rowley et Rose, 2014). Par exemple, l'extension active du genou est très souvent associée à un recrutement concomitant des muscles fléchisseurs plantaires chez l'enfant PCB (Figure 5) (*i.e.* diplégique spastique) (Rose et al., 1999).



**Figure 5 : Exemple d'enregistrements EMG au niveau des muscles quadriceps, gastrocnémiens et tibial antérieur lors d'un mouvement d'extension active du genou chez un sujet contrôlé (a), un sujet marchant sur la pointe des pieds d'origine idiopathique (b) et un sujet PC (c). Adaptée de Cahill-Rowley et al., 2014.**

L'altération de la sélectivité motrice est liée à la lésion du faisceau cortico-spinal. Les dernières données de la littérature s'intéressent au rôle du faisceau rubro-spinal dans la mise en jeu de possibles compensations. Le niveau de sélectivité motrice peut être évalué à l'aide de l'échelle SCALE (Selective Control Assessment for Lower Extremity) qui présente une bonne reproductibilité inter-investigateur chez le sujet PC (ICC compris entre 0,88 et 0,91) (Fowler et al., 2009) (Annexe E). Chez l'enfant PC, le déficit de sélectivité motrice est plus important au niveau des articulations distales par rapport aux articulations proximales du membre inférieur (Fowler et al., 2010) (Figure 6).



**Figure 6 : Valeurs moyennes du score de l'échelle SCALE au niveau des différentes articulations du membre inférieur chez 47 sujet PC (35 diploégiques, 6 hémiploégiques, 6 quadriplégiques; GMFCS I-IV). Un score de 2 indique un mouvement isolé physiologique, un score de 1 indique une altération de la sélectivité motrice et un score de 0 indique une incapacité à réaliser un mouvement isolé ou l'utilisation d'un mouvement synergique combiné. (STJ : sub-talar joint). D'après Fowler et al., (2009).**

Classiquement, la FD active de cheville est souvent possible dans un mouvement synergique de triple flexion du membre inférieur alors que le même mouvement réalisé genou tendu est fortement altéré (Fowler et al., 2010). L'altération de la sélectivité motrice a notamment des conséquences fonctionnelles. Récemment, Noble et al., (2019) ont rapporté une forte corrélation ( $r=0,901$ ,  $p<0,001$ ) entre le déficit de sélectivité motrice, mesuré sur l'échelle SCALE et le niveau fonctionnel (score sur l'EMFG 66) d'enfants et de jeunes adultes PCB.

### I.3.3 Faiblesse musculaire

La faiblesse musculaire du membre inférieur est bien documentée chez l'enfant PC (Barber et al., 2012; Elder et al., 2007; Stackhouse et al., 2005; Wiley et Damiano, 1998; Zhou et al., 2017). Les



muscles distaux, fléchisseurs dorsaux et plantaires de cheville, sont particulièrement affectés, aussi bien chez le sujet PCU que PCB (Bandholm et al., 2009; Barber et al., 2012; Elder et al., 2007; Wiley and Damiano, 1998) (Figure 7). Il a ainsi été rapporté que la force des muscles fléchisseurs plantaires était respectivement réduite de 33% et 76% chez l'adolescent (Barber et al., 2012) et l'enfant (Stackhouse et al., 2005) PC spastique par rapport aux sujets sains d'âges comparables.

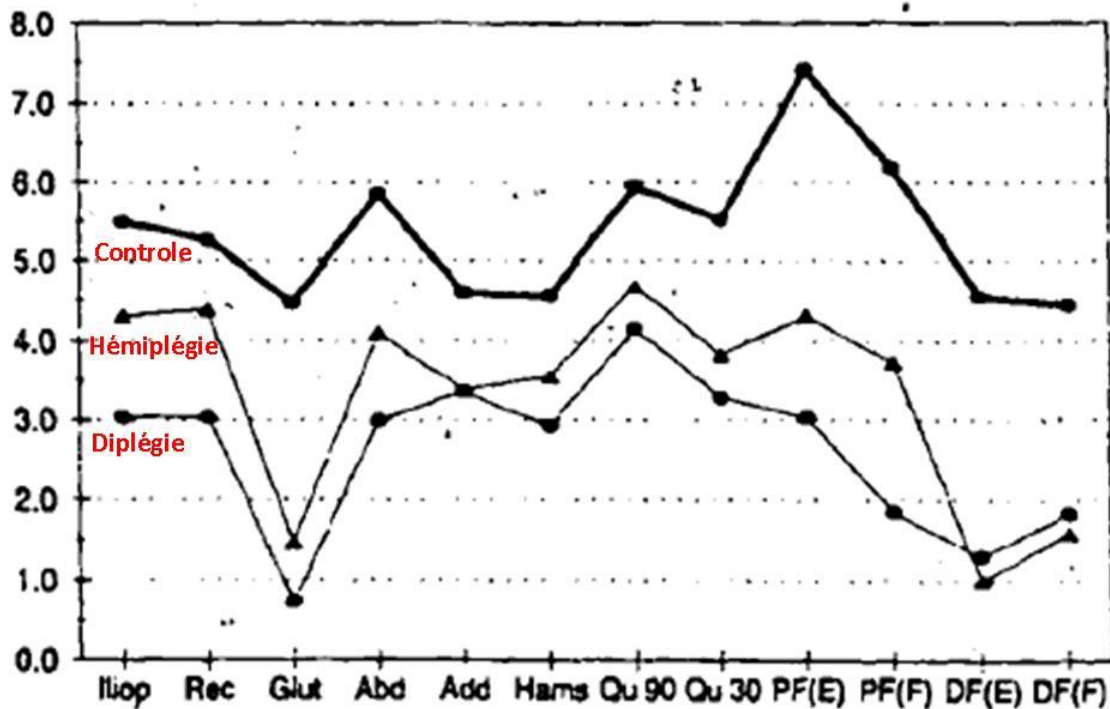


Figure 7 : Comparaison des profils de force musculaire en Nm/kg entre un enfant sain, diplégique et hémiplégique au niveau des différents groupes musculaires du membre inférieur le plus atteint. (Iliop : iliopsoas, Rec: rectus femoris, Glut : gluteus maximus, Abd : abducteurs de hanche, Add : adducteurs de hanche, Ham : ischio-jambier, Q90=Quadriceps a 90° de flexion de genou, Qu30=quadriceps a 30° de flexion de genou, PF(E) : gastrocnémien, PF(F) : soleaire, DF(E) =tibial antérieur avec genou tendu, DF(F) : tibial antérieur avec genou fléchi). Adaptée de Wiley and Damiano (1998).

La réduction de la force maximale volontaire chez le sujet PC est liée à la conjonction de l'altération de l'activation musculaire volontaire du muscle agoniste consécutive à la lésion du faisceau cortico-spinal (Rose et McGill, 2005; Stackhouse et al., 2005) ainsi qu'à une augmentation de l'activation réflexe du muscle antagoniste (*i.e.* co-contraction) (Elder et al., 2007; Stackhouse et al., 2005). Les muscles distaux présentent moins de connections corticales et motoneuronales chez l'enfant PC par rapport aux enfants sains, ce qui pourrait expliquer en partie la diminution de leur tension spécifique (couple passif produite par unité de section de coupe transverse) (Elder et al., 2007). Au-delà de la diminution de la force maximale, les enfants PC présentent une plus grande variabilité de leur capacité à produire un niveau de force donné du fait notamment de l'altération de la sélectivité motrice (*e.g.* co-activation musculaire des muscles fléchisseurs plantaires lors de la dorsiflexion active) (Bandholm et al., 2009). La réduction et la variabilité de la production de force musculaire

peuvent-être liées à la présence d'unités motrices plus grandes chez l'enfant PC (*i.e.* plus de fibres musculaires innervées par un seul motoneurone). Enfin, le taux de développement de la force musculaire (*i.e. rate of force development* pour les anglo-saxons) peut être diminué, altérant de ce fait la capacité des enfants PC à produire un mouvement suffisamment rapide pour être efficace dans des tâches fonctionnelles telles que les transferts (Moreau et al., 2012).

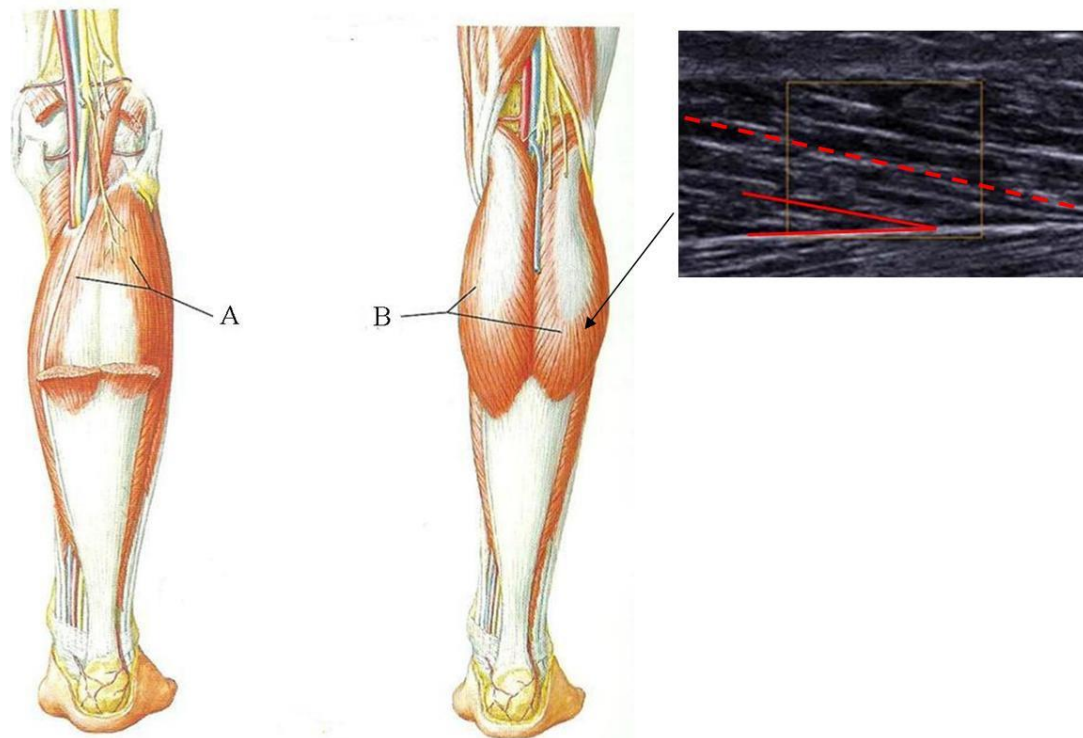
## SYNTHESE

**Les enfants PC de type spastique, forme d'atteinte majoritaire, présentent des déficits neuromusculaires interdépendants qui touchent préférentiellement les muscles distaux du membre inférieur. L'atteinte préférentielle du couple musculaire antagoniste Tibial antérieur/Triceps sural, plus particulièrement dans la forme unilatérale, influence fortement la marche de l'enfant PC. La classification de Winters et al., (1987) résume l'incidence des troubles moteurs distaux sur les paramètres cinématiques de la marche chez l'enfant PCU. Dans la partie suivante, nous présentons le rôle des muscles fléchisseurs plantaires lors de la marche et les conséquences de leur atteinte chez l'enfant PC spastique.**

## II Rôle des muscles fléchisseurs plantaires lors de la marche

### II.1 Anatomie du muscle Triceps sural

Le muscle Triceps sural est composé d'une partie bi-articulaire, les muscles gastrocnémiens, et d'une partie mono-articulaire, le muscle soléaire (Figure 8). Les muscles gastrocnémiens sont constitués de deux chefs, latéral et médial, qui s'insèrent par des fibres musculaires sur les tubercules supra-condylaire et sur les parties voisines de la capsule articulaire et de la surface poplitée (Kamina, 2003). Le muscle soléaire naît par des fibres tendineuses sur le quart supérieur de la face postérieure de la fibula, sur le tiers moyen de la face postérieure du tibia et sur l'arcade tendineuse reliant les précédentes insertions (Kamina, 2003). Ces deux entités sont reliées à leur extrémité distale par un tendon commun, le tendon d'Achille (TA) (Figure 8). Les fascicules musculaires (*i.e.* ensemble de fibres musculaires repérables en échographie 2D) des muscles soléaire et gastrocnémiens présentent une organisation pennée, c'est-à-dire qu'ils sont disposés de façon oblique entre les aponévroses superficielles et profondes (Figure 8). L'angle de pennation caractérise le degré d'obliquité des fascicules musculaires par rapport aux aponévroses (Figure 8).



**Figure 8 : Partie gauche ; vue postérieure de la loge postérieure de la jambe : A muscle soléaire (profond), B muscles gastrocnémiens (superficiel). D'après John T Hansen (*Mémoires anatomie Netter*). Partie droite, coupe longitudinale échographique du muscle gastrocnémien médial (GM). La ligne en pointillés rouges matérialise un fascicule musculaire. Les lignes pleines rouges matérialisent l'angle de pennation.**

## II.2 Biomécanique fonctionnelle

Les muscles fléchisseurs plantaires ont un rôle important dans la posture et la propulsion tout au long de la phase d'appui et lors de l'initiation de la phase oscillante (Neptune et al., 2001), et ce d'autant plus que la vitesse de marche s'accroît (Liu et al., 2008). Gage et al., (2009) rapportent que ces muscles participent à environ 50% de la force propulsive du membre inférieur lors de la marche. De ce fait, leur faiblesse a un impact plus important sur le schéma de marche par rapport à d'autres groupes musculaires tels que les muscles fléchisseurs de hanche ou extenseurs de genou (van der Krogt et al., 2012). Ainsi, si les muscles fléchisseurs plantaires peuvent compenser partiellement une faiblesse des muscles proximaux au niveau de la hanche et/ou du genou, l'inverse ne se vérifie pas (Goldberg and Neptune, 2007).

Sur le plan biomécanique, le comportement des muscles fléchisseurs plantaires lors de la marche à vitesse moyenne (4,5 km/h) se caractérise notamment par un allongement du TA lors de la phase de simple appui. Ce mécanisme permet aux fascicules musculaires du muscle gastrocnémien médial (GM) de se contracter à vitesse faible, de façon presque isométrique, produisant ainsi une force optimale. C'est l'optimisation des paramètres d'allongement des fascicules musculaires et de raideur du TA qui permet au corps musculaire d'optimiser son efficacité sur les plans mécanique et métabolique (Lichtwark and Wilson, 2008). Lors de la phase de propulsion (pré-oscillation), la détente du TA produit un effet de « catapulte » favorisant l'avancée du membre et la flexion de genou lors de

la phase d'oscillation (Ishikawa et al., 2005). Dans le même temps, les fascicules musculaires des muscles gastrocnémiens se raccourcissent rapidement (Lichtwark et al., 2007). Les muscles soléaire et gastrocnémiens, bien que synergiques, présentent des comportements différents. Le muscle soléaire présente un fonctionnement plus constant lorsque le temps de marche se prolonge et/ou la vitesse varie (Cronin et al., 2013). Cela se traduit par une plus grande production de couple passif au niveau de la cheville, une meilleure utilisation du mécanisme de stockage-restitution d'énergie tendineuse et un coût métabolique moindre par rapport aux muscles gastrocnémiens (Cronin et al., 2013). Le muscle soléaire a une fonction de soutien postural tout au long de la phase d'appui alors que les muscles gastrocnémiens sont les principaux muscles moteurs de l'oscillation du membre inférieur (Neptune et al., 2001). La course se différencie de la marche par une majoration de l'allongement des structures tendineuses et du raccourcissement des fascicules musculaires lors de la phase de simple appui (Lichtwark et al., 2007).

Chez l'enfant PC (GMFCS I-II), sous l'effet d'une réception du pied au sol de façon plantigrade ou sur les orteils, les muscles gastrocnémiens s'allongent activement durant la phase de simple appui contrairement à l'enfant sain chez lequel les fascicules des muscles gastrocnémiens gardent une longueur constante (Barber et al., 2017; Kalsi et al., 2016). Lors de la phase pré-oscillante, le raccourcissement des fascicules musculaires des muscles gastrocnémiens est inférieur chez l'enfant PC, occasionnant une diminution importante des paramètres de puissance et de travail (Barber et al., 2017). A l'inverse, le comportement des fascicules musculaires du muscle soléaire apparaît similaire entre enfants PC et sains (Barber et al., 2017). La propulsion générée au niveau de la cheville est ainsi largement altérée chez l'enfant PC. La faiblesse musculaire des muscles gastrocnémiens est une des hypothèses permettant d'expliquer l'allongement de leurs fascicules musculaires lors de la phase d'appui (Barber et al., 2017; Kalsi et al., 2016). Certains auteurs ont émis l'hypothèse que ces contractions excentriques répétées pourraient favoriser à long terme des dommages musculaires (Barber et al., 2017)

### **II.3 Influence des déficiences neuromusculaires**

De nombreuses études ont tenté de déterminer l'influence des déficiences neuromusculaires (*e.g.* spasticité, faiblesse musculaire, déficit de sélectivité motrice...) sur les paramètres de la marche de l'enfant PC. L'altération du schéma de marche de l'enfant PC répond à l'interaction complexe de déficiences neuromusculaires primaires (spasticité, faiblesse musculaire, déficit de sélectivité motrice), secondaires (rétractions musculo-tendineuses, déformations osseuses...) et tertiaires (compensations), parfois difficiles à distinguer et à hiérarchiser. C'est pourquoi l'examen clinique, bien qu'indispensable, reste souvent insuffisant pour caractériser avec précision le schéma de marche complexe de l'enfant PC spastique (Desloovere et al., 2006; Domagalska et al., 2013).

A l'aide d'une analyse statistique de régression multiple, une étude récente a ainsi montré que l'altération des paramètres de marche au niveau de la cheville était liée à un ensemble de facteurs

comprenant la diminution de la FD maximale de cheville, la réduction du volume des muscles tibial antérieur et gastrocnémiens, suivi par la diminution de force des muscles fléchisseurs plantaires et l'altération de sélectivité motrice des fléchisseurs dorsaux (Schless et al., 2019). Les causes des troubles de la marche de l'enfant PC spastique sont donc multiples et font l'objet de débats dans la littérature en fonction des situations cliniques. Peu d'études distinguent les deux principaux tableaux cliniques de la paralysie cérébrale (*i.e.* PCU et PCB).

Dans les parties qui suivent, l'influence des principales déficiences neuromusculaires touchant l'extrémité distale du membre inférieur sur le schéma de marche sera présentée.

- Déficit de sélectivité motrice

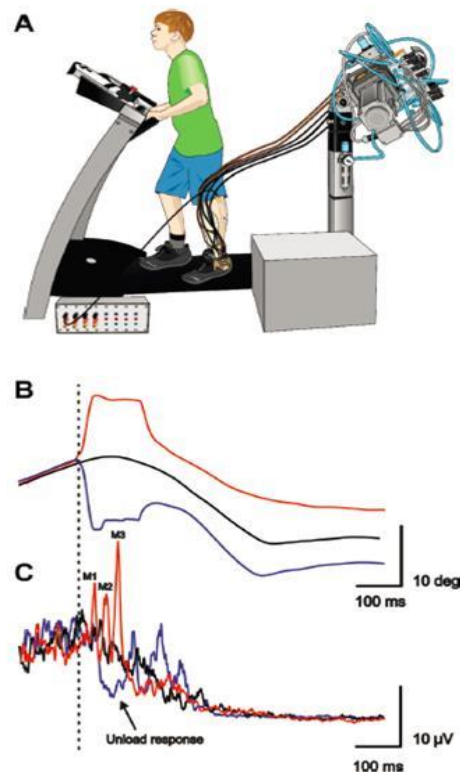
Les relations entre l'altération de la sélectivité motrice au niveau du membre inférieur et les troubles du schéma de marche ont été relativement peu étudiées chez l'enfant PC. Chruscikowski et al., (2017) ont rapporté une relation significative entre le déficit de sélectivité motrice des membres inférieurs et l'altération du schéma de marche (quantifiée par le *Gait Profile Score*) chez l'enfant PC GMFCS I à III. Par ailleurs, le déficit de sélectivité motrice apparaît d'autant plus important que le niveau fonctionnel (GMFCS) est faible (Chruscikowski et al., 2017). Dans une étude rétrospective chez 57 enfants PC spastique (GMFCS I-III), Zhou et al., (2019) ont récemment montré que le déficit de sélectivité motrice du membre inférieur, évalué sur l'échelle SCALE, était significativement associé à un excès de flexion de genou lors de la réception du pas, une longueur de pas plus courte et une vitesse plus faible. La diminution de la longueur du pas semble ainsi liée à l'incapacité des enfants PC à étendre le genou dans une position où la hanche est fléchie. Au sein d'un groupe de sujets PC (GMFCS I-II) présentant un schéma de marche genou fléchi ( $>20^\circ$  lors du contact initial), Rha et al., (2016) ont montré que le déficit de sélectivité motrice, induisant un mouvement synergique de flexion hanche/genou lors de la réception du pas, présentait une plus forte corrélation avec le déficit d'extension de genou lors du contact initial ( $r=-0,530$ ,  $p=0,004$ ) que le défaut de longueur des muscles ischio-jambiers ( $r=-0,359$ ,  $p=0,037$ ). L'altération du déficit de sélectivité motrice pourrait ainsi expliquer des résultats incomplets à la suite d'un geste chirurgical d'allongement des muscles ischio-jambiers.

- Spasticité

L'influence de la spasticité sur la qualité de la marche est encore aujourd'hui largement débattue. Les résultats divergent concernant la relation entre l'évaluation clinique de la spasticité et les paramètres de marche. Dans une étude rétrospective sur 186 sujets PC (120 UCP, 166 BCP; 3-18 ans ; GMFCS I-III), Nieuwenhuys et al., (2017) retrouvent une influence importante de la spasticité mesurée sur l'échelle d'Ashworth au niveau de plusieurs groupes musculaires du membre inférieur, sur les paramètres de la marche. A l'inverse, d'autres auteurs ne retrouvent qu'un faible impact de ce paramètre sur la marche et la fonction motrice (Desloovere et al., 2006). Récemment, Choi et al.,

(2018) ont rapporté une corrélation significative entre l'évaluation clinique de la spasticité des muscles ischio-jambiers mesurée sur l'échelle de Tardieu modifiée {angle R2 (arrêt brutal à vitesse rapide) - angle R1 (amplitude maximale)} et l'angle de flexion de genou durant le cycle de marche chez 30 enfants PC (18 UCP, 12 BCP ; GMFCS I-II). L'absence de consensus autour d'une définition de la spasticité et les difficultés rencontrées pour la quantifier de façon valide et reproductible par le biais des échelles cliniques peut expliquer en grande partie les résultats contradictoires retrouvés dans la littérature. Enfin, l'existence d'une possible relation entre la spasticité mesurée cliniquement au repos et son expression lors d'une tâche active telle que la marche reste une question non résolue à ce jour.

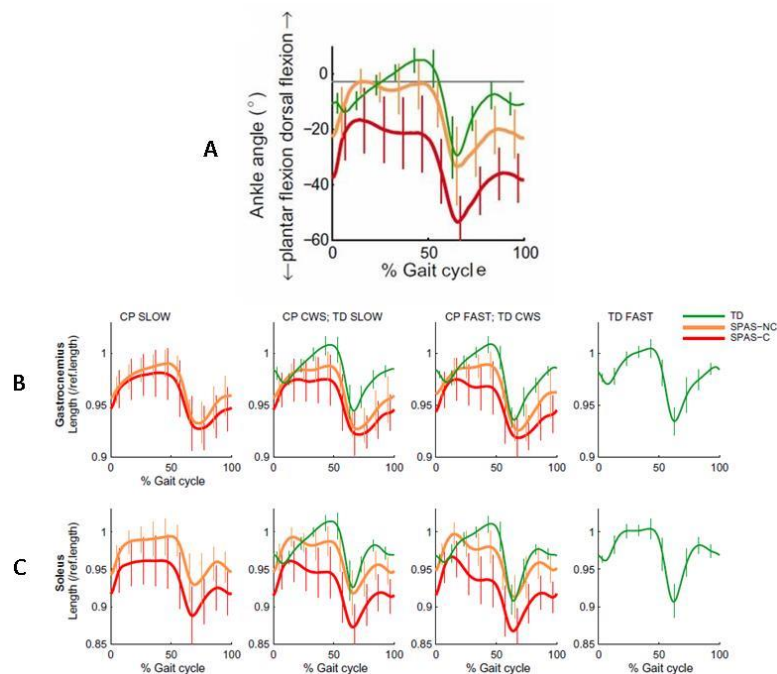
Les études incluant une évaluation instrumentale de la spasticité permettent une quantification plus précise et objective de ce déficit en relation avec les paramètres de marche. Grâce à un dispositif spécifique, Willerslev-Olsen et al., (2014a) ont étudié l'effet d'une perturbation mécanique (*e.g.* étirement ou détente rapide) des muscles fléchisseurs plantaires lors de la marche sur tapis roulant sur le niveau d'activité EMG du muscle soléaire chez l'enfant PCU spastique (Figure 9).



**Figure 9 :** (A) condition expérimentale et exemple de perturbations mécaniques réalisées au niveau de la cheville (rotation de l'articulation vers la FD ou la FP) lors de la marche sur tapis roulant d'un sujet PC. (B) Les lignes rouge, bleu et noire correspondent à la position de la cheville respectivement lors de l'étirement du muscle soléaire, sa détente ou en l'absence de perturbations. (C) L'activité EMG du muscle soléaire lors de la fin de la phase d'appui est représentée lors de son étirement à vitesse rapide (ligne rouge), sa détente rapide (ligne bleue) ou en l'absence de perturbation mécanique (ligne noire). *D'après Willerslev-Olsen et al., (2014a).*

Lorsque l'étirement des muscles fléchisseurs plantaires était réalisé au cours du cycle de marche (*i.e.* phase d'appui et phase oscillante), une augmentation de l'activation réflexe EMG du muscle soléaire était enregistrée au niveau du membre parétique par rapport aux membres contrôles d'enfants sains. A

l'état basal (*i.e.* marche libre sans aucunes perturbations), aucune différence significative du niveau d'activité EMG du muscle soléaire n'était enregistrée entre les deux populations. Par ailleurs, la détente rapide du muscle soléaire (*i.e.* raccourcissement) lors de la marche entraînait une diminution similaire du niveau d'activation EMG du muscle soléaire entre enfants PC et sains. Sur la base de ces résultats, les auteurs suggèrent que la majoration de l'activation réflexe du muscle soléaire lors de son étirement rapide influence peu la phase de réception du pas par l'avant-pied chez l'enfant PCU. Les auteurs suggèrent que le défaut d'activation centrale des muscles fléchisseurs dorsaux et/ou la présence de rétractions des muscles fléchisseurs plantaires jouent un rôle plus important. Cette hypothèse peut être corroborée par la moindre vitesse d'allongement des muscles soléaire et gastrocnémiens chez l'enfant PC spastique par rapport à l'enfant sain lors de la phase oscillante de la marche (van der Krogt et al., 2009; Van Camphenout et al., 2014). Néanmoins, le pré-positionnement du pied lors de la phase oscillante a une influence directe sur la cinématique de la cheville lors de la phase d'appui. La réception du pas sur l'avant-pied ou les orteils favorise en effet un étirement précoce des muscles fléchisseurs plantaires, caractérisé par une augmentation soudaine de leur vitesse maximale d'allongement par rapport au muscle sain (van der Krogt et al., 2009). A l'aide d'un procédé de modélisation musculo-squelettique, van der Krogt et al., (2009) ont montré que lors de la phase d'appui la cinématique de la cheville en forme de « double bosse » était évocatrice de la présence d'une hyper-activation réflexe précoce des muscles fléchisseurs plantaires de cheville qui augmente avec la vitesse de marche (vitesse dépendance) que le muscle soit rétracté ou non (Figure 10).



**Figure 10 :** Evolution de l'amplitude articulaire de la cheville (A), de l'allongement des muscles gastrocnémiens (B) et du muscle soléaire (C) au cours du cycle de marche chez l'enfant sain (trait vert) et l'enfant PC spastique avec (trait rouge) et sans (trait jaune) rétraction des muscles fléchisseurs plantaires. (TD et CP slow : enfants sains et PC marchant à vitesse lente, respectivement ; TD et CP CWS : enfants sains et PC marchant à vitesse de confort, respectivement ; TD et CP fast : enfants sains et PC marchant à vitesse rapide, respectivement.) Adaptée de van der Krogt et al., (2009).



Sur la base des travaux présentés ci-dessus (van der Krogt et al., 2009; Willerslev-Olsen et al., 2014a), il apparaît que l'hyper-activation réflexe des muscles fléchisseurs plantaires s'exprimerait plus particulièrement lors de la phase d'appui de la marche, sous l'influence d'un pré-positionnement défaillant du pied en phase oscillante. Le positionnement privilégié de la cheville en FP lors de la phase oscillante serait plutôt expliqué par un déficit de sélectivité motrice des muscles fléchisseurs dorsaux couplé ou non à un déficit d'extensibilité des muscles fléchisseurs plantaires plutôt qu'à une hyper-activation réflexe de ces derniers.

- Co-activation/co-contraction musculaire

Gross et al., (2013) ont montré que le membre parétique des enfants PCU présentait une plus grande augmentation du niveau de co-activation musculaire avec l'augmentation de la vitesse de marche au sein des principaux couples musculaires agonistes/antagonistes du membre inférieur (droit fémoral et vaste médial/ischio-jambier, soléaire/tibial antérieur) par rapport au membre non-parétique et aux enfants sains. Sans pour autant informer sur les conséquences fonctionnelles, ce résultat pourrait traduire la majoration de l'altération de la commande motrice du membre parétique avec l'augmentation de la vitesse de marche. Chez l'enfant sain, l'augmentation du niveau de co-activation/co-contraction lors de l'élévation de la vitesse de marche s'accompagne d'une diminution de mobilité articulaire durant la marche (Gross et al., 2015). Cette relation apparaît beaucoup plus hétérogène au niveau du membre parétique de l'enfant PCU (Gross et al., 2015). Chez l'enfant sain, l'augmentation du niveau de co-activation du couple soléaire/tibial antérieur avec l'augmentation de la vitesse de marche s'accompagne d'une augmentation du mouvement de FP lors de la phase de propulsion contrairement à l'enfant PCU chez lequel la relation était négative (Gross et al., 2015). Il semble donc que le maintien d'une efficacité optimale des muscles fléchisseurs plantaires lorsque la vitesse de marche augmente soit dépendante de l'activation simultanée des muscles antagonistes pour maintenir une plus grande stabilité de la cheville lors de la phase de propulsion (Gross et al., 2015). Ce mécanisme pourrait être ainsi altéré chez l'enfant PCU. Inversement, la relation positive retrouvée entre l'augmentation du niveau de co-activation du couple soléaire/tibial antérieur et la diminution de la FD de cheville lors de la phase oscillante suggère que ce mécanisme pourrait être impliqué dans le schéma de marche en équin de l'enfant PCU (Gross et al., 2015). Néanmoins, il reste difficile de déterminer dans quelle mesure la majoration du niveau de co-activation musculaire retrouvée chez l'enfant PC résulte d'un déficit primaire ou tertiaire (compensation). L'augmentation de la co-activation musculaire pourrait en effet être une stratégie motrice de compensation afin d'augmenter la rigidité d'une articulation lors de la marche et favoriser ainsi une plus grande stabilité de l'appui au sol.

- Rétraction/diminution d'amplitude articulaire

Le passage d'un schéma de marche en équin dynamique (amplitude de FD partiellement préservée) à statique (FP permanente) s'accompagne d'une aggravation du raccourcissement des



muscles soléaire et gastrocnémiens (Wren et al., 2004) et d'une diminution de leur vitesse d'allongement (Švehlík et al., 2010). Ce phénomène est favorisé par le déficit moteur (*i.e.* sélectivité motrice, force) des muscles fléchisseurs dorsaux. L'allongement du TA apparaît alors comme un mécanisme de compensation (Wren et al., 2010).

Desloovere et al., (2006) ont rapporté que les évaluations réalisées en condition statique lors de l'examen clinique telle que la mesure de l'amplitude articulaire passive présentent une moindre corrélation avec les paramètres de la marche par rapport aux évaluations dynamiques (*i.e.* force, spasticité, sélectivité motrice). Néanmoins, les conséquences d'une réduction d'amplitude articulaire de la cheville sur les paramètres cinématiques de la marche sont connues : absence de contact talonnier lors de la réception du pas (absence du 1<sup>er</sup> pivot), FP excessive en milieu d'appui et altération du 3<sup>ème</sup> pivot en fin de phase d'appui (Attias et al., 2016). Des mécanismes de compensation peuvent alors survenir lors de la phase oscillante de la marche afin de faciliter l'avancée du membre- inclinaison homolatérale du tronc, mouvement de circumduction de la hanche (Zhou et al., 2017) - ou tout au long du cycle de marche - excès de flexion ou d'extension de genou (Attias et al., 2016; Maas et al., 2015).

Chez l'enfant sain, il a été rapporté que les paramètres cinématiques, cinétiques et d'activation EMG de la marche étaient modifiés à partir d'un équin statique de 10° de FP, induit par le port d'une orthèse spécifique (Houx et al., 2013, 2014). Il est par ailleurs important de noter qu'un tel dispositif expérimental induit lors du contact initial une activation des muscles fléchisseurs plantaires, sans doute afin de stabiliser l'appui au sol, et une diminution de l'activation du muscle tibial antérieur, devenue inefficace et inutile dans cette configuration (Houx et al., 2014; Romkes and Brunner, 2007). Ainsi, l'excès d'activation supposé des muscles fléchisseurs plantaires en fin de phase oscillante et la faiblesse du muscle tibial antérieur pourraient en réalité se traduire au moins partiellement par un mécanisme de compensation survenant en présence d'une limitation d'amplitude de FD (Houx et al., 2014; Romkes and Brunner, 2007). Le raccourcissement des muscles gastrocnémiens chez l'enfant PC semble également en lien avec l'excès de flexion de genou lors de la phase de simple appui ( $r=0,386$ ,  $p= 0,024$ ) (Rha et al., 2016) et d'une flexion de genou retardée lors de la phase oscillante de la marche ( $r=-0,355$ ,  $p=0,039$ ) (Rha et al., 2015). Enfin, l'amplitude du mouvement de FP de cheville survenant en fin de phase d'appui joue un rôle important dans la production d'une puissance suffisante nécessaire à la propulsion. Chez l'adolescent PC spastique, Ballaz et al., (2010) ont ainsi rapporté une forte relation entre la restriction d'amplitude articulaire de cheville et la diminution de l'efficacité énergétique de la marche.

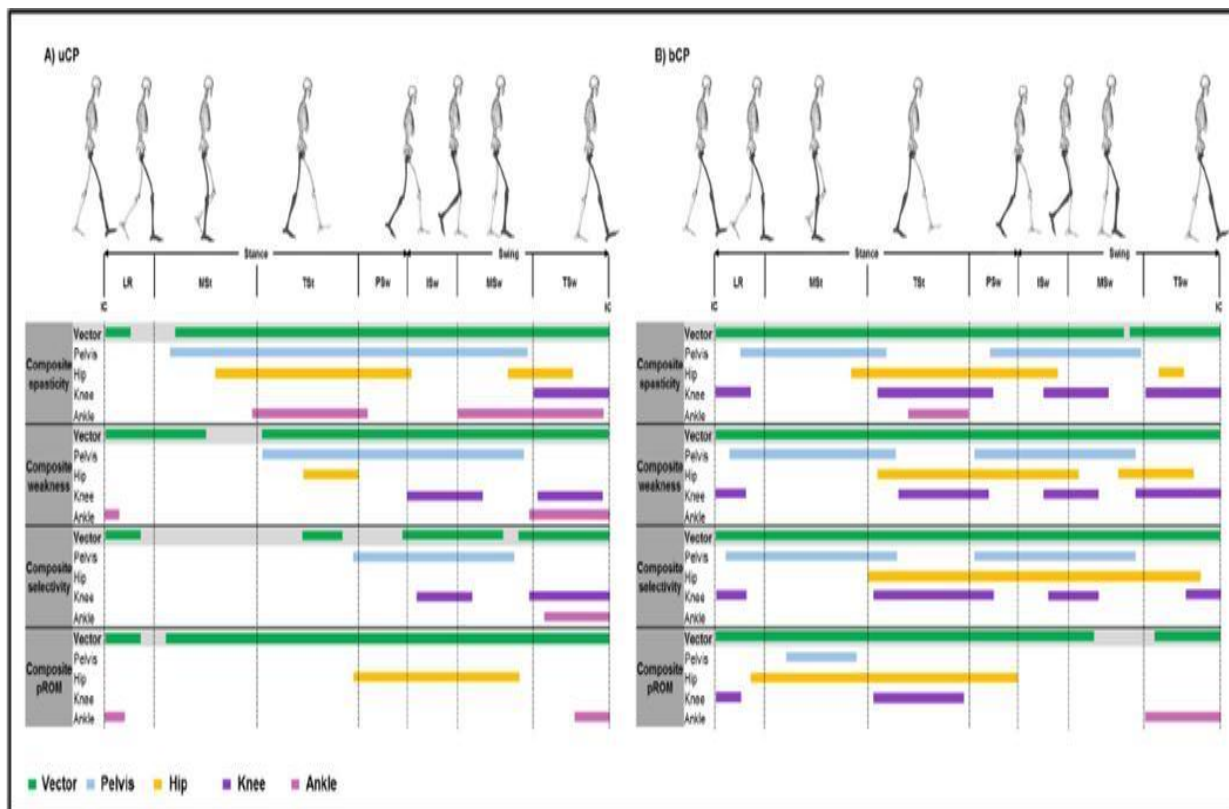
- Faiblesse musculaire

La faiblesse musculaire des membres inférieurs affecte l'ensemble du cycle de marche de l'enfant PC. La FD de cheville lors de la phase oscillante et l'extension de la hanche et du genou lors de la phase d'appui sont des paramètres cinématiques particulièrement altérés par le déficit d'activation et de force musculaire (Zhou et al., 2017). La faiblesse des muscles de la cheville présente

également une influence importante sur les paramètres cinématiques des autres articulations du membre inférieur. Le déficit de force des muscles fléchisseurs dorsaux touche la phase oscillante de la marche et le début de la phase d'appui, favorisant ainsi des mécanismes de compensation au niveau de la hanche (majoration de la flexion de hanche) et un excès de FP lors de la réception du pas. La faiblesse des muscles fléchisseurs plantaires peut diminuer leur capacité à contrôler l'avancée du tibia lors de la phase d'appui (2<sup>ème</sup> pivot), favorisant ainsi un excès de FD de cheville et de flexion de genou et de hanche (schéma de marche de type *crouch gait* chez le sujet PCB). Par ailleurs, le déficit de propulsion en fin de phase d'appui, en grande partie lié à la faiblesse des muscles fléchisseurs plantaires, influence l'amplitude et la vitesse de flexion du genou lors de la phase oscillante de la marche et donc la vitesse de marche (Zhou et al., 2017). Plusieurs auteurs ont mis en évidence une corrélation significative de modérée à forte entre la force musculaire des membres inférieurs et la vitesse ainsi que la cadence de marche chez l'enfant PC (Damiano et al., 2000; Desloovere et al., 2006; Ross and Engsberg, 2007). Dans une étude menée chez 55 enfants PCB (GMFCS I-III), les muscles fléchisseurs plantaires étaient, parmi tous les groupes musculaires testés, ceux dont le niveau de force présentait la plus forte corrélation positive avec les scores D (position debout) et E (Marche, course et saut) de l'EMFG (Eek et al. 2008). Dans une étude rétrospective, Ross and Engsberg, (2007) retrouvent un résultat similaire au sein d'un groupe de 97 enfants PCB. Chez l'enfant PCU, la faiblesse des muscles fléchisseurs plantaires (Wiley et Damiano, 1998) se traduit par une diminution de leur puissance générée lors de la marche au profit d'une augmentation de celle produite par les muscles extenseurs de hanche (Riad et al., 2008).

- *Influence de la topographie de l'atteinte*

A l'aide d'une méthode statistique innovante (*statistical parametric mapping*), Papageorgiou et al., (2019) ont réalisé une étude rétrospective des relations entre les différents déficits neuromusculaires évalués cliniquement (faiblesse musculaire, sélectivité motrice, déficit d'amplitude articulaire, spasticité) et les paramètres cinématiques de la marche dans le plan sagittal au sein d'une large cohorte d'enfants PCU (n=167) et PCB (n=200) de type spastique (GMFCS I à III). Les résultats montrent des différences entre les deux groupes. La relation entre les déficits neuromusculaires de l'ensemble des articulations des membres inférieurs (bassin, hanche, genou et cheville) et l'altération de la cinématique de la marche dans le plan sagittal est plus importante chez l'enfant PCB par rapport à l'enfant PCU. Cette étude montre notamment que les déficits neuromusculaires de la cheville ont une influence importante sur l'altération du schéma de marche, notamment lors de la phase oscillante, chez l'enfant PCU contrairement à l'enfant PCB chez lequel les atteintes proximales ont un impact plus important (Figure 11).



**Figure 11 : Cartographie des relations entre les principaux déficits neuromusculaires (spasticité, faiblesse, déficit de sélectivité motrice et perte d'amplitude articulaire) et les phases de la marche présentant une altération des paramètres cinématiques chez l'enfant PCU (A) et PCB (B). Vector : somme des effets d'un déficit neuromusculaire donné au niveau de l'ensemble des articulations du membre inférieur {bassin (pelvis), hanche (hip), genou (knee), cheville (ankle)}. D'après Papageorgiou et al., (2019).**

De la même façon, les relations entre l'altération de la cinématique d'une seule articulation du membre inférieur (bassin, hanche, genou ou cheville) et les déficits neuromusculaires d'articulations voisines sont plus importantes chez l'enfant PCB (e.g. altération de la cinématique de la hanche liée à l'atteinte d'articulations plus distales) mise à part pour l'altération de la cinématique de la cheville qui semble liée à un déficit intrinsèque.

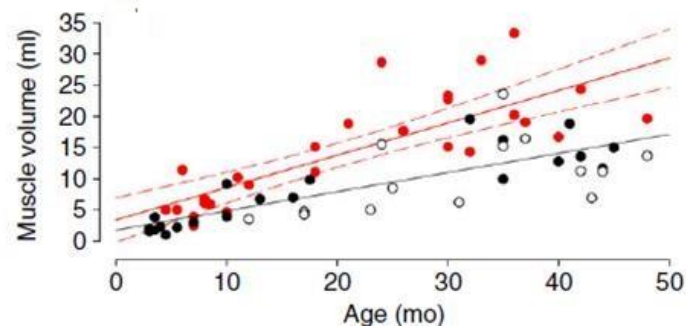
## SYNTHESE

Les muscles fléchisseurs plantaires de cheville ont un rôle important au cours de la marche afin d'assurer la stabilité du membre inférieur lors de la phase d'appui et sa propulsion vers l'avant lors de la phase oscillante. L'enfant PCU présente des déficiences neuromusculaires multiples au niveau des muscles fléchisseurs plantaires qui ont une incidence importante sur le schéma de marche. Parmi ces déficiences, le développement insidieux et progressif de rétractions des muscles fléchisseurs plantaires, conduisant à une restriction d'amplitude de FD de cheville, joue un rôle capital. Dans la partie suivante, nous allons détailler les mécanismes qui influencent l'apparition des rétractions musculo-tendineuses au sein des muscles fléchisseurs plantaires.

# III Le muscle Triceps sural

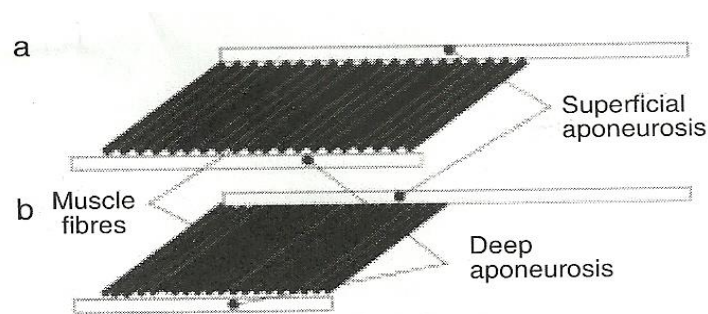
## III.1 Croissance musculaire

Les muscles gastrocnémiens sont les plus souvent étudiés dans la littérature, de part leur localisation superficielle qui les rendent facilement accessibles à l'examen échographique. Willerslev-Olsen et al., (2018) ont rapporté que le volume des muscles gastrocnémiens augmente de façon linéaire avec l'avancée en âge mais de façon plus lente chez l'enfant PC par rapport au sujet sain (Figure 12).



**Figure 12 :** évolution du volume musculaire (ml) des muscles gastrocnémiens en fonction de l'âge (mois) mesurée chez 50 enfants sains (points rouges), 24 enfants PCU (points noires) et 17 enfants PCB (points blancs). D'après Willerslev-Olsen et al., (2018).

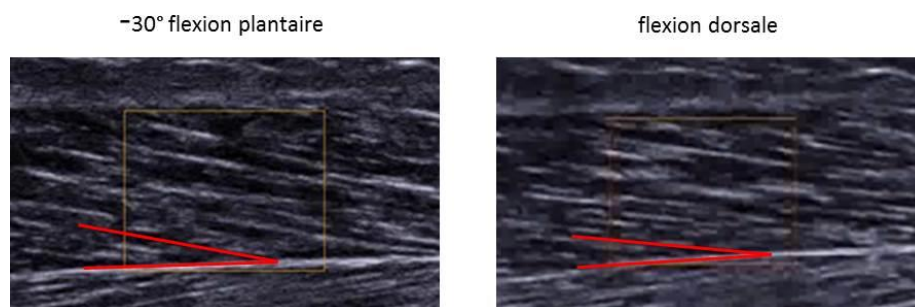
Parallèlement, il a été montré chez l'enfant entre 5 et 12 ans (Bénard et al., 2011) et l'adolescent (Weide et al., 2015) sains, que la croissance longitudinale des muscles gastrocnémiens se fait à 80% par une hypertrophie des fascicules musculaires et à 20% seulement par leur allongement (Figure 13). L'angle de pennation reste pratiquement constant tout au long de la croissance. De façon concomitante, l'amplitude maximale de FD diminue progressivement ( $1,5^\circ$  par an). Ainsi, chez l'enfant PC, le déficit de croissance des muscles gastrocnémiens, caractérisé par une atrophie de ses fascicules musculaires pourrait expliquer, au moins en partie, l'apparition progressive de rétractions musculo-tendineuses des muscles gastrocnémiens. Néanmoins, la relation entre le volume et la longueur des muscles gastrocnémiens ne semble pas décrite dans la littérature. D'autres études semblent nécessaires pour préciser cette relation.



**Figure 13 : Représentation schématique d'un faisceau du muscle gastrocnémien (vue longitudinale) chez un enfant sain (a) et un enfant PC (b). Les deux muscles présentent le même nombre de fibres musculaires mais celles du muscle sain présentent un diamètre supérieur. Il en résulte un allongement plus important des aponévroses musculaires pour le muscle sain. D'après Shortland et al., (2002).**

### III.2 Biomécanique lors de l'allongement passif

Le mouvement de FD passif de cheville est permis par un allongement de l'UMT du muscle Triceps sural. Au cours de son allongement, la structure pennée des muscles gastrocnémiens et soléaire se modifie par un allongement des fascicules musculaires combiné à une diminution de leur angle de pennation (Figure 14).



**Figure 14 : Vue longitudinale du muscle GM en échographie 2D. L'angle de pennation (lignes rouges) diminue avec l'allongement du muscle. Données personnelles.**

Chez le sujet adulte sain, plusieurs études ont tenté de déterminer la contribution de chacune des structures - corps musculaire des muscles gastrocnémiens et TA - à l'allongement de l'UMT du muscle Triceps sural lors de la flexion dorsale passive de cheville. Les valeurs divergent selon les auteurs en fonction des méthodologies utilisées. Les muscles gastrocnémiens et le TA participeraient à l'allongement de l'UMT respectivement à hauteur de 58% à 73% et de 27% à 42% (Abellana et al., 2009; Blazeovich et al., 2012; Kawakami et al., 2008). Chez l'enfant sain, les données sont sensiblement similaires : 63% pour les muscles gastrocnémiens et 37% pour le TA (Kalkman et al., 2018). Chez l'enfant PC spastique GMFCS I à II, on retrouve un déficit d'allongement du corps musculaire des muscles gastrocnémiens (50-55% de l'allongement), partiellement compensé par un

allongement excédentaire du TA (45-50% de l'allongement) (Kalkman et al., 2018a; Theis et al., 2013).

### III.3 Altérations morphologiques chez l'enfant PC spastique

#### III.3.1 Au niveau macroscopique

Les propriétés morphologiques des muscles gastrocnémiens de l'enfant PC spastique se caractérisent par une diminution de leur longueur, de leur volume, de leur section de coupe transverse et de leur épaisseur par rapport aux enfants sains de même âge (Barrett and Lichtwark, 2010) alors que le TA présente une longueur augmentée (Wren et al., 2010). Chez le sujet PC, les muscles gastrocnémiens et soléaire sont les plus amyotrophiés du membre inférieur (Figure 15) (Handsfield et al., 2016).



**Figure 15 : Cartographie du volume musculaire des membres inférieurs mesurée par IRM chez 2 enfants sains et 8 enfants PC présentant des tableaux cliniques et des niveaux fonctionnels différents. Les zones les plus sombres représentent les groupes musculaires dont le volume est significativement diminué par rapport aux valeurs physiologiques normalisées en fonction du poids et de la taille des sujets. (IRM : Imagerie par résonance magnétique). D'après Handsfield et al. (2016).**

Les dernières données de la littérature montrent que l'atrophie des muscles gastrocnémiens, objectivée par une diminution de leur volume, s'installe très tôt au cours de la croissance (dès 12 à 15 mois chez l'enfant PC) (Herskind et al., 2016; Willerslev-Olsen et al., 2018). De façon similaire, la diminution de longueur des muscles soléaire et gastrocnémiens existe chez les enfants marchant avec un équin « dynamique » (*i.e.* réductible), avant même l'apparition d'un équin « statique » (*i.e.* non-réductible) (Wren et al., 2004). Par ailleurs, l'importance des altérations morphologiques des muscles gastrocnémiens semble dépendre du niveau d'indépendance fonctionnelle de l'enfant (GMFCS II >

GMFCS I) (Pitcher et al., 2018). Du fait de la précocité de leurs survenues, l'amyotrophie et la perte de longueur musculaire sont de plus en plus considérées comme des déficiences neuromusculaires à part entière, de la même façon que la spasticité ou le déficit de sélectivité motrice (Cahill-Rowley and Rose, 2014; Zhou et al., 2017).

### **III.3.2 Au niveau microscopique**

L'altération des propriétés musculaires au niveau microscopique a été mise en évidence au sein de diverses structures:

- *propriétés des fibres musculaires*

La littérature rapporte des données contradictoires concernant la proportion de fibres de type I et II au sein du muscle parétique et spastique de l'enfant PC par rapport au muscle sain (Foran et al., 2007). Ces résultats divergeants peuvent s'expliquer par le fait que les données sont parfois comparées entre groupes musculaires et atteintes neurologiques différentes. Néanmoins, il semble que les muscles gastrocnémiens rétractés de l'enfant PC spastique présentent un taux de fibres de type I anormalement élevé par rapport au muscle sain et une plus grande variabilité de la taille de ses fibres (Ito et al., 1996; Marbini et al., 2002; Rose et al., 1994). Une modification de la typologie musculaire entraînant un accroissement de fibres lentes (type I) au détriment de fibres rapides (type II) peut favoriser l'altération du taux de développement de la force musculaire (Moreau et al., 2012).

- *propriétés des cellules satellites*

La croissance musculaire est sous la dépendance des cellules satellites qui, en s'activant après être restées un certain temps dans un état quiescent, présentent la capacité de former de nouvelles cellules musculaires (Dayanidhi and Lieber, 2014). La déplétion du taux de cellules satellites, mise en évidence au sein du muscle rétracté de l'enfant PC (Dayanidhi et al., 2015; Smith et al., 2013), et l'altération de leur capacité à fusionner et à produire de nouveaux myotubes (Domenighetti et al., 2018), peuvent faire partie des mécanismes permettant d'expliquer l'atrophie musculaire.

- *propriétés des sarcomères*

Au sein des muscles soléaire et gastrocnémiens rétractés de l'enfant PC, Mathewson et al., (2014) ont rapporté une augmentation de la longueur des sarcomères. Cet excès d'allongement des sarcomères peut s'accompagner d'une diminution de leur nombre en série (Lieber and Fridén, 2018), permettant ainsi d'expliquer pourquoi il est possible de retrouver une longueur de fascicule musculaire équivalente entre enfants PC et sains (Barrett and Lichtwark, 2010).

- *propriétés de la protéine Titine*

Au sein du sarcomère, la protéine Titine, reliant la strie Z au filament épais de Myosine, est responsable d'une grande partie de la tension interne de la fibre musculaire. L'altération de ses propriétés est donc souvent suspectée devant l'apparition de rétractions musculaires. L'augmentation de taille de la protéine Titine, faible mais significative, rapportée au niveau des muscles soléaire et

gastrocnémiens de l'enfant PC par rapport à des sujets adultes contrôles (Mathewson et al., 2014) reste toutefois difficile à interpréter (Lieber and Fridén, 2018).

- propriétés de la matrice extra-cellulaire :

Contrairement à d'autres groupes musculaires tels que les ischio-jambier (Smith et al., 2011) ou le vaste latéral (Booth et al., 2001), la quantité de collagène de la matrice extra-cellulaire du muscle Triceps sural ne semble pas majorée chez l'enfant PC par rapport à un groupe contrôle composé d'adultes (Mathewson et al., 2014).

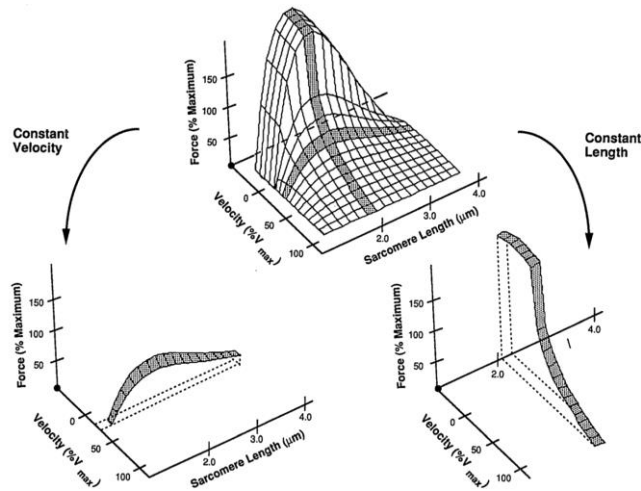
- propriétés du tissu adipeux :

La quantité de tissu adipeux sous-cutané au sein des muscles gastrocnémiens semble présente à un taux anormalement élevé d'autant plus que le niveau d'indépendance fonctionnelle des enfants PC est faible (*i.e.* grade de l'échelle GMFCS) (Pitcher et al., 2018).

### **III.3.3 Conséquence clinique : la rétraction musculo-tendineuse**

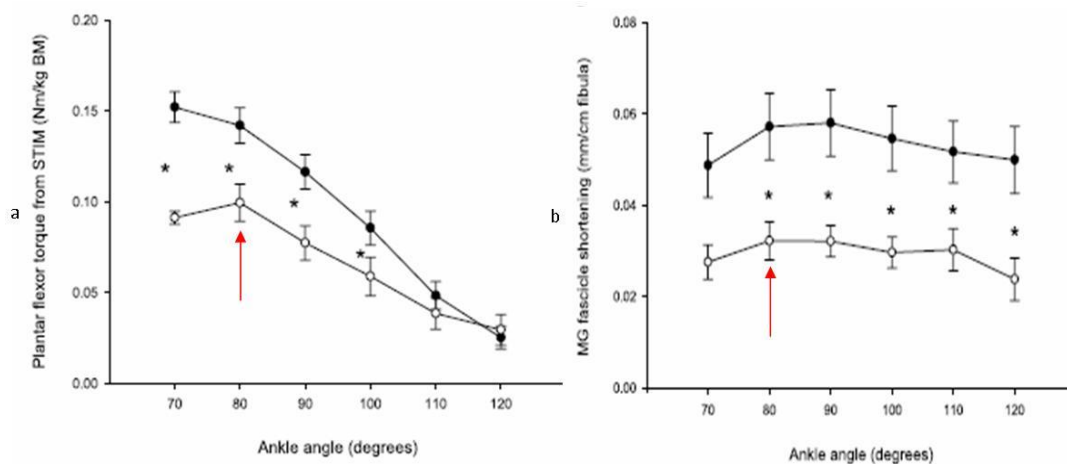
Lorsque le muscle parétique et spastique devient trop court, on parle de rétraction musculo-tendineuse (Lieber and Fridén, 2018), très fréquente au sein du muscle Triceps sural de l'enfant PC (Wren et al., 2010). Il en résulte une diminution progressive de l'amplitude de FD maximale de cheville au cours de la croissance (Hägglund and Wagner, 2011) et un schéma de marche en « équin » (Cobeljic et al., 2009; Goldstein and Harper, 2007). Le développement des rétractions a, en retour, des conséquences importantes sur le plan moteur et le développement de la force musculaire. Chez le sujet sain (enfant et adulte), la force maximale développée par un muscle est directement corrélée à sa section de coupe transverse (Lieber and Fridén, 2000), c'est-à-dire au nombre de sarcomères en parallèle. La diminution de la force musculaire maximale rapportée chez l'enfant PC spastique apparaît ainsi liée à l'altération de la croissance musculaire, caractérisée par une diminution du volume musculaire, de la section de coupe transverse et/ou de l'épaisseur musculaire (Barrett and Lichtwark, 2010). A l'échelle microscopique, la capacité de production de force des sarcomères est influencée par leur longueur et leur vitesse de contraction selon une relation spécifique à chaque groupe musculaire (Figure 16) (Lieber et al., 2017). Un allongement excessif des sarcomères au sein d'un muscle rétracté peut ainsi entraîner une diminution de la capacité de production de force musculaire.





**Figure 16 : Relation force-vitesse-longueur au niveau du sarcomère. A vitesse constante, le sarcomère développe une force musculaire maximale à une longueur optimale. A longueur constante, le sarcomère développe une force maximale pour des vitesses de contraction minimales. D'après Lieber et al. 2017.**

Cependant, la littérature est dépourvue de données objectivant le rôle de l'altération des propriétés contractiles musculaires à l'échelle microscopique (*i.e.* raccourcissement fasciculaire) dans la production de force chez l'enfant PC spastique. Une étude récente a étudié le lien entre la réduction du couple maximal de flexion plantaire de cheville produite en réponse à une stimulation électrique supra maximale (*i.e.* activation maximale indépendante de la commande motrice volontaire) et la réduction de la capacité de raccourcissement des fascicules musculaires du muscle GM chez l'adulte PC présentant des antécédents de chirurgie orthopédique (*i.e.* élongation du TA) (Frisk et al., 2019). Malgré l'absence de corrélation significative entre ces deux paramètres ( $r=0,56$ ;  $p=0,06$ ), le couple maximal était produit à un angle de cheville correspondant au raccourcissement maximal des fascicules musculaires du muscle GM chez les sujets PC (Figure 17) (Frisk et al., 2019).

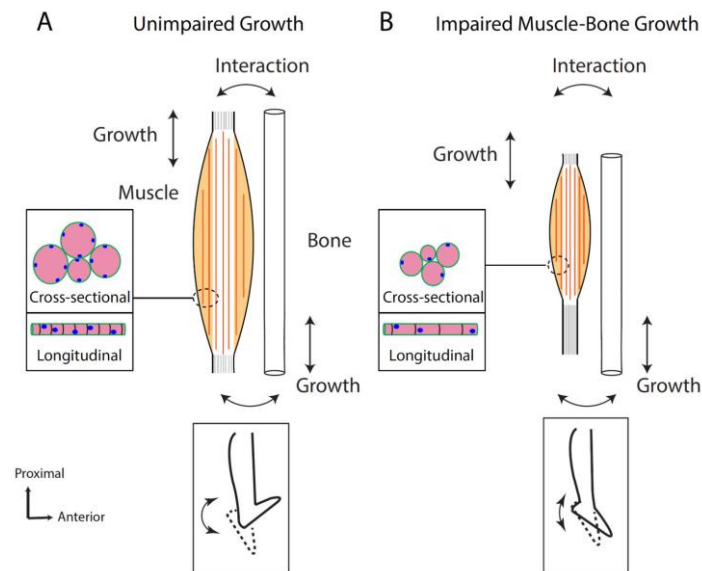


**Figure 17 : Relation entre l'angle de cheville et (a) le couple maximal de flexion plantaire de cheville ainsi que (b) le raccourcissement des fascicules musculaires du muscle GM générés lors d'une stimulation électrique supra-maximale du nerf tibial chez l'adulte PC (points blancs) et les sujets contrôles (points noirs). Le couple maximal intervient lors du raccourcissement maximal des fascicules musculaires chez les sujets PC (flèches rouges). D'après Frisk et al., (2019)**

Ce travail suggère que l'altération des propriétés contractiles musculaires majore la réduction de la force musculaire maximale du muscle GM de l'adulte PC, initialement induite par le trouble de commande motrice (Frisk et al., 2019). Des investigations similaires semblent nécessaires pour établir ce lien chez l'enfant PC.

### III.3.4 Origine des rétractions musculo-tendineuses

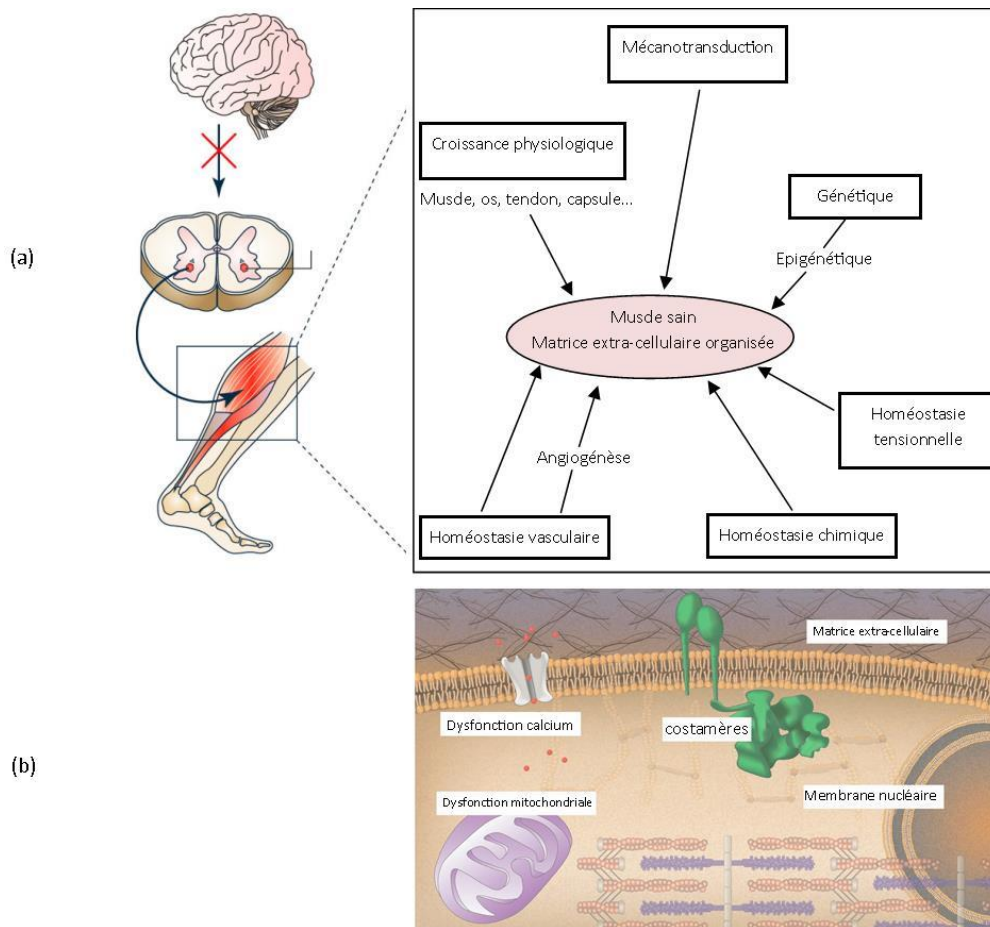
L'altération de la croissance musculaire, plus faible que celle des structures osseuses (Zhou et al., 2017), semble jouer un rôle capital dans le développement des rétractions musculo-tendineuses (Figure 18) (Pingel et al., 2017). Švehlík et al., (2013) ont ainsi montré que le développement des rétractions musculo-tendineuses était fortement corrélé à l'accélération de la vitesse de croissance statur pondérale. Compte tenu des mécanismes physiologiques associés à l'augmentation progressive de sa longueur au cours de l'enfance (cf. III.1), l'atrophie des muscles gastrocnémiens semble être un mécanisme prédominant dans le développement de leur rétraction (Figure 18).



**Figure 18 : Schématisation des interactions entre la croissance musculaire et osseuse chez un sujet sain (A) et PC (B). Chez le sujet PC, l'atrophie du corps musculaire est la conséquence d'une atrophie des fascicules musculaires qui peut être liée à la déplétion du nombre de cellules satellites. Au niveau d'un muscle penné, ces déficits couplés à l'augmentation de la longueur des sarcomères favorisent l'apparition de rétractions musculo-tendineuses. D'après Dayanidhi et al., (2014).**

Toutefois, les mécanismes qui conduisent au développement des rétractions musculo-tendineuses sont encore mal connus. Il semble que l'interaction de multiples facteurs (endocrinien, génétique, nutritionnel, mécanique, moteur) (Gough and Shortland, 2012) rentre en jeu, conduisant à une possible altération de l'homéostasie de la cellule musculaire (Lieber and Fridén, 2018; Pingel et al., 2017). La croissance du tissu musculaire, le phénotype des fibres musculaires et les propriétés de la matrice extra-cellulaire et du réseau capillaire sont en effet déterminés par une cascade de signaux (réseau intégré incluant stimulation mécanique, vasculaire et métabolique) induite par l'activité

musculaire. Lorsque la motricité est altérée comme dans le cas de la paralysie cérébrale, des adaptations doivent se réaliser à chaque niveau du réseau pour créer une nouvelle homéostasie de la cellule musculaire (Figure 19, a). Ce nouvel équilibre cellulaire peut conduire à la modification des propriétés musculaires, favorisant le développement des rétractions (Pingel et al., 2017). Dans ce contexte, les structures mécano-sensibles, telles que la matrice extra-cellulaire et les molécules costamères, qui ont un rôle important dans l'homéostasie de la cellule musculaire, du fait de leur capacité à transmettre les contraintes d'ordres mécaniques, pourraient faire l'objet d'études approfondies (Figure 19, b) (Pingel and Suhr, 2017).



**Figure 19 : Schématisation des mécanismes influençant l'homéostasie cellulaire lors d'une action motrice volontaire (a). Au sein de la cellule musculaire, plusieurs fonctions peuvent influencer l'homéostasie cellulaire et peut-être influencer le développement des rétractions (b). D'après Pingel et al., (2017); Pingel and Suhr, (2017)**

En complément de la problématique systémique, certaines données expérimentales suggèrent l'intervention possible d'autres facteurs locaux d'origines mécaniques. Des études réalisées au niveau du membre supérieur de l'enfant PCU ont rapporté le rôle des transmissions de forces myofasciales (*myofascial load transmission*) dans le développement des rétractions musculo-tendineuses. Celles-ci pourraient en effet être favorisées par des éléments neuro-vasculaires (*extramuscular myofascial force transmission*) et/ou par la transmission de force entre muscles adjacents par l'intermédiaire de leur

septum commun (*intermuscular myofascial force transmission*) (de Bruin et al., 2014; Huijing, 2007; Smeulders et al., 2004).

### **III.4 Impact des traitements répétés**

L'enfant PC spastique bénéficie tout au long de son enfance de nombreux traitements à visée neuro-orthopédique dont les objectifs sont autant de prévenir la survenue des rétractions que de favoriser la motricité et les performances de marche. Parmi ces traitements répétés, les injections de toxine botulique peuvent induire des conséquences sur les propriétés musculaires (Mathevon et al., 2015). Une seule injection de toxine des muscles gastrocnémiens entraîne une réduction de son volume de l'ordre de 4 à 6% qui peut être compensée par une hypertrophie équivalente du muscle soléaire (Alexander et al., 2018; Williams et al., 2013). Ce résultat pourrait expliquer l'absence de diminution de la force musculaire des muscles fléchisseurs plantaires retrouvée au sein d'un groupe de 20 enfants PC spastique (16 PCU, 4 PCB, GMFCS I-II) à 6 et 24 semaines post-injection de toxine botulique (Eek and Himmelmann, 2016). Néanmoins, le déficit de volume des muscles gastrocnémiens injectés pour la première fois ne serait pas complètement réversible 6 mois après l'injection (Alexander et al., 2018). De plus, des travaux récents suggèrent que les injections de toxine botulique répétées des muscles gastrocnémiens sont susceptibles d'entraîner des altérations de leur volume et de leur structure au-delà de l'évolution naturelle liée à la paralysie cérébrale (Schless et al., 2019; Valentine et al., 2016). Valentine et al., (2016) ont ainsi rapporté une forte corrélation entre le nombre d'injections de toxine botulique des muscles gastrocnémiens dans l'enfance et la diminution du pourcentage de fibres de type I au profit d'une augmentation des fibres de types II chez l'enfant PC opéré (*i.e.* chirurgie orthopédique à l'occasion de laquelle une biopsie musculaire était réalisée). L'impact des injections répétées sur la croissance musculaire (Barber et al., 2013) et sur le gain d'amplitude de FD maximale (Hastings-Ison et al., 2016) reste encore à ce jour largement débattu dans la littérature.

D'autres méthodes thérapeutiques influencent les propriétés du muscle parétique et spastique de l'enfant PC. Les injections de toxine botulique sont ainsi fréquemment associées à des plâtres d'allongement afin d'optimiser leurs effets sur le gain d'amplitude articulaire de cheville (Mathevon et al., 2018). Néanmoins, les plâtres d'allongements pourraient avoir une action préférentielle sur l'augmentation de longueur du TA au détriment du corps musculaire des muscles gastrocnémiens (Peeters et al., 2018).

Au-delà des possibles conséquences iatrogène des stratégies thérapeutiques sur les propriétés musculaires, certains protocoles de renforcement musculaire sont susceptibles de favoriser un gain de masse musculaire chez le sujet PC (Gillett et al., 2016). De la même façon, les techniques de stimulation électrique fonctionnelle, dont les récentes améliorations technologiques rendent leur mise en œuvre quotidienne plus aisée, semblent un moyen novateur de favoriser le gain de volume musculaire du couple tibial antérieur (Damiano et al., 2013)/gastrocnémiens (Pool et al., 2016).

## SYNTHESE

Les muscles soléaire et gastrocnémiens présentent une structure pennée qui se développe au cours de la croissance essentiellement par l'hypertrophie de leurs fascicules musculaires. L'altération de la croissance musculaire, sous la dépendance de déficits neuromusculaires, favorise l'altération progressive des propriétés morphologiques et structurelles du muscle de l'enfant PC. Au cours du mouvement de FD de cheville, genou en extension complète, le corps musculaire des muscles gastrocnémiens de l'enfant PC spastique présente un déficit d'allongement au profit du TA. Tout au long de la croissance, les muscles gastrocnémiens sont ainsi souvent ciblés par les traitements à visée orthopédique dont les objectifs sont de prévenir l'apparition de leurs rétractions. Parmi ces traitements répétés, les injections de toxine botulique semblent avoir une influence non négligeable sur les propriétés musculaires. Au-delà de l'altération des propriétés morphologiques (diminution de volume et de longueur) et structurelles (architecture musculaire), le muscle de l'enfant PC présente une altération de ses propriétés élastiques, caractérisée par une augmentation du niveau de résistance ressentie par le clinicien lors de son allongement passif.

L'ensemble des paramètres influençant l'hyper-résistance du muscle parétique et spastique de l'enfant PC est résumé au sein de la figure 20. A l'issue de cette illustration, la deuxième partie de ce manuscrit de thèse expose les contributions scientifiques réalisées concernant la caractérisation du niveau de raideur passive (RP) des muscles fléchisseurs plantaires de l'enfant PCU de type spastique.



## 2<sup>ème</sup> partie – Contributions scientifiques

### I. Hypothèses et Objectifs

La 1<sup>ère</sup> partie de cette thèse a permis de mettre en évidence l'omniprésence de déficiences neuromusculaires interdépendants au niveau des muscles fléchisseurs plantaires de l'enfant PC et leurs influences importantes sur les propriétés musculaires morphologiques et structurelles. De cette évolution physiopathologique complexe au cours de la croissance des enfants PC résulte des troubles fonctionnels de marche en évolution constante et le développement progressif de conséquences neuro-orthopédiques dont les rétractions musculo-tendineuses.

Nous avons pu identifier différents déterminants responsables de cette rétraction, et mettre aussi en évidence certaines difficultés concernant leur définition « consensuelle » ainsi que leur évaluation.

Si la mise en évidence et la quantification de la spasticité chez l'enfant PC fait actuellement l'objet de recherches, notamment par le biais de mesures instrumentales, **notre hypothèse de travail est de considérer qu'il convient d'apporter autant d'attention à l'évaluation des propriétés élastiques des tissus parétiques et spastiques dont l'altération peut être à l'origine d'une résistance à l'allongement passif.** Ces propriétés élastiques sont souvent définies dans la littérature sous le terme de « *raideur passive* » (*RP ; stiffness*) pour désigner l'altération des propriétés élastiques des muscles parétiques et spastiques du sujet atteint d'une affection neurologique centrale.

Mais pour prendre en considération cette notion et cette définition de « *raideur passive* », il est essentiel dans le contexte spécifique de l'enfant PC :

- (1) de bien en définir les contours, puis,
- (2) d'en établir les méthodes et procédures d'évaluation et de mesure, et enfin,
- (3) d'identifier de potentielles thérapeutiques pouvant être proposées.

Chez l'enfant PC, si l'augmentation de la RP de l'UMT du muscle Triceps sural a été décrite par de nombreux auteurs, la variabilité des valeurs rapportées dans la littérature interroge sur leur validité clinique et les moyens thérapeutiques potentiels à mettre en oeuvre.

Sur cette hypothèse de prise en considération de la « *raideur passive* », le travail de thèse proposera au moyen d'une étude de revue de littérature un panorama exhaustif du concept de RP chez l'enfant PC à travers ses aspects sémantiques et expérimentaux (matériel et méthodes de mesures, interprétation des résultats), puis d'analyser les propriétés psychométriques (validité clinique, reproductibilité, réponse aux traitements) de la mesure de la RP à travers plusieurs travaux expérimentaux.

Notre contribution, sous forme d'articles scientifiques publiés ou en cours de publication s'inscrit dans une progression scientifique :

- le concept de RP : première contribution scientifique sous la forme d'un article de revue de littérature invité publié dans la revue *European Journal Of Applied Physiology* (contribution # 1, Boulard et al., 2019a) (Annexe F), nous proposons des réponses aux interrogations qui entourent le concept lui-même de RP appliqué aux muscles fléchisseurs plantaires de cheville. La définition du terme de RP fait-elle l'objet d'un consensus au sein de la littérature ? Que signifie cet excès de RP sur le plan physiopathologique ? Existe-t-il des différences de méthodologie entre les études permettant d'expliquer ces résultats ? Quel est le matériel utilisé pour caractériser le paramètre de RP chez l'enfant PC ? Les méthodes de mesures utilisées sont-elles validées chez l'enfant PC ? Quelles sont leurs limites ?

- l'évaluation et la mesure de la RP : contributions scientifiques sur la méthode de mesure de la RP au niveau de l'UMT du muscle Triceps sural et du muscle gastrocnémien médial. Une première méthode, classique, que l'on qualifiera ici de « dynamométrique », permet d'établir la relation couple-angle lors de la mobilisation passive isocinétique. Cette méthode peut être couplée à l'utilisation simultanée d'un échographe 2D - afin d'estimer la RP du muscle ou du tendon - ou à celle du mode Shear Wave Elastography (SWE). La technologie SWE constitue une méthode alternative qui permet de mesurer un niveau de tension spécifique d'un muscle superficiel.

Un premier travail expérimental a permis de préciser des paramètres méthodologiques inhérents aux procédures d'évaluation et de traitement des données de RP produites par la méthode dynamométrique. Ce travail a fait l'objet d'une publication dans la revue *Journal of Electromyography and Kinesiology* (contribution # 2, Boulard et al., 2019b) (Annexe G).

Un deuxième travail expérimental a permis de mettre en œuvre chez l'enfant PCU de type spastique ces deux techniques de mesure susmentionnées - méthode dynamométrique et SWE- pour caractériser la RP de l'UMT du muscle Triceps sural et du muscle gastrocnémien médial au cours du mouvement passif de FD de cheville au niveau des membres parétique et non-parétique. Ce travail a fait l'objet d'une troisième contribution, actuellement en cours de révision au sein de la revue *Journal of Applied Physiology* (contribution # 3).

- implication thérapeutique des étirements sur la RP : troisième travail expérimental concernant les techniques d'étirements passifs, très utilisées chez l'enfant PC afin de lutter contre le développement des rétractions musculo-tendineuses au cours de la croissance. Leur efficacité chez le sujet adulte sain comme chez celui présentant une affection d'origine neurologique centrale reste controversée aussi bien concernant le gain d'amplitude articulaire (Harvey et al., 2017; Pin et al., 2006; Wiart et al., 2008) que sur les propriétés élastiques (Freitas et al., 2018). Face à ce manque de résultats et l'absence de description et de contrôle des paramètres des protocoles d'étirement (Apostolopoulos et al., 2015), nous avons proposé d'évaluer l'effet d'une technique instrumentale d'étirement de haute intensité et de longue durée de l'UMT du muscle Triceps sural sur les propriétés élastiques du muscle gastrocnémien médial, évaluées par la technologie SWE. Cette contribution fait l'objet d'un article actuellement en cours de soumission (contribution # 4). Dans ce cadre et à la suite, une étude clinique a été initiée afin



d'évaluer les effets d'un programme d'étirements passifs de plusieurs semaines sur la RP de l'UMT du muscle Triceps sural auprès de jeunes sujets présentant une PC (contribution # 5).

# II. Contribution # 1 à l'avancée des connaissances - Raideur passive des muscles fléchisseurs plantaires chez l'enfant PC spastique : revue de littérature

## II.1 Introduction

Le terme de « *raideur* » est le plus souvent compris en pratique clinique comme une restriction d'amplitude articulaire d'origines diverses. Au-delà de cette terminologie courante, la « raideur » est une notion biomécanique précise dont la définition (*i.e.* raideur=variation de couple passif/variation angulaire en Nm/°) peut s'appliquer à tout type d'articulations ou de tissus biologiques dont la longueur est susceptible de varier (muscle, tendon, fascicules musculaires...) sous l'influence d'une force mobilisatrice. Puisque l'enregistrement de la RP nécessite la génération d'un mouvement, ce terme ne peut être utilisé pour désigner uniquement le niveau de tension d'une structure anatomique dans une position donnée (*i.e.* force nécessaire pour maintenir une articulation dans une position donnée). Ainsi, lorsqu'elle est évaluée en condition passive, la raideur renvoie aux propriétés intrinsèques d'élasticité des tissus. Or, le terme de raideur est parfois utilisé pour désigner différents aspects des propriétés morphologiques et mécaniques musculaires tels que la viscosité, l'élasticité ou le raccourcissement musculaire. Ainsi, si Lieber and Fridén, (2018) définissent la rétraction par le raccourcissement de l'UMT, Farmer and James, (2001) y associent une augmentation de la RP, assumant ainsi que ce paramètre est une composante de la rétraction. Tout au long de ce manuscrit, le terme de « *raideur* » (*stiffness* pour les anglo-saxons) sera uniquement utilisé sous son prisme biomécanique pour désigner une variation de force durant un mouvement d'amplitude donnée  $\{\Delta(\text{couple ou force})/\Delta(\text{angle ou longueur}) \text{ en Nm/}^\circ \text{ ou N/cm}\}$  (Gajdosik, 2001). Nous avons vu dans la première partie de ce manuscrit que la spasticité pouvait être assimilée à une forme d'hypertonie musculaire indifférenciée selon la définition prise en compte. Ce manque de discernement entre phénomènes neurologiques différents (hyper-réflexie vitesse dépendante, dystonie, ...) nourrit une certaine confusion entre résistance à l'allongement d'origine neurologique d'une part et mécanique d'autre part. Pour tenter de répondre à l'ambiguïté sémantique qui entoure ces différents phénomènes physiopathologiques, un consensus européen d'expert a récemment proposé d'englober sous le terme d'*hyper-résistance* les deux entités, neurologique d'une part et mécanique de l'autre (van den Noort et al., 2017). Prérequis indispensable à la compréhension du concept de résistance neuromusculaire au mouvement, nous proposons de résumer ici les différents phénomènes physiopathologiques qui s'opposent au mouvement :

- Spasticité : hyper-réflexie vitesse dépendante.

- Dystonie : contraction involontaire survenant au repos responsable de mouvements répétitifs et/ou de postures anormales.
- Raideur passive (RP) : quantité de force sur un secteur d'amplitude donnée, nécessaire à la mobilisation d'une structure anatomique.
- Hyper-résistance : résistance globale à l'allongement passif de l'UMT provenant de toutes origines confondues.

Comme nous l'avons vu dans la première partie de ce manuscrit, les muscles fléchisseurs plantaires de l'enfant PC sont particulièrement affectés par la présence conjointe de spasticité et d'altération des propriétés morphologiques et structurelles. Ces troubles peuvent être responsables d'un niveau élevé d'hyper-résistance. Par conséquent, la littérature fournit plusieurs études dont les objectifs étaient d'étudier la RP de l'UMT du muscle Triceps sural de l'enfant PC à partir de la relation couple-angle, qui peut être facilement établie à partir d'une mobilisation instrumentale passive. Depuis quelques années, la technologie SWE permettant de mesurer la tension spécifique d'un muscle superficiel tel que le gastrocnémien est appliquée à l'enfant PC. Jusqu'alors, coupler des mesures échographiques 2D à la mobilisation instrumentale constituait un des seuls moyens d'estimer la RP des muscles gastrocnémiens et/ou du tendon d'Achille.

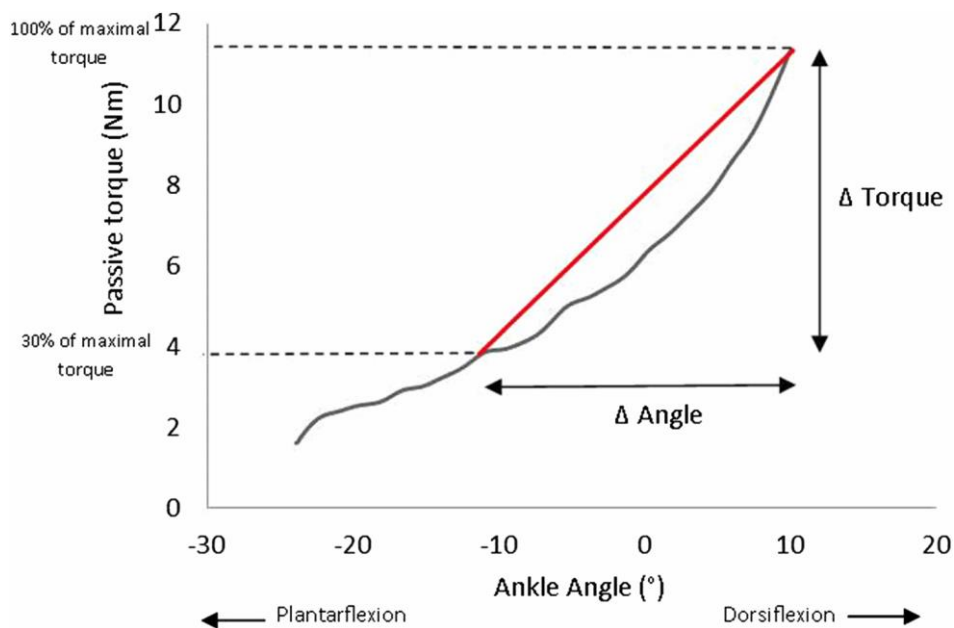
Dans le but de réaliser une vue d'ensemble exhaustive du concept de RP, incluant ses différences et ses possibles liens avec l'altération des propriétés morphologiques (*i.e.* raccourcissement musculaire) chez l'enfant PC spastique, cette revue narrative décrit les principaux résultats disponibles dans la littérature concernant la RP des muscles fléchisseurs plantaires de cheville à différents niveaux (*i.e.* UMT, muscle, tendon, fascicule...). Nous pensons qu'étudier de façon exhaustive ce concept de RP peut permettre de mieux comprendre le rôle des propriétés passives du muscle dans le développement progressif des rétractions au cours de la croissance. Nous avons réalisé une recherche à partir de la base de données PubMed jusqu'en avril 2019 à partir des mots-clés « Cerebral Palsy » AND « stiffness ». Les articles ont été lus puis inclus au sein de la revue lorsqu'ils investiguaient la RP des muscles fléchisseurs plantaires chez l'enfant PC spastique. Des articles complémentaires ont par la suite été inclus après avoir analysé les références des articles initialement sélectionnés. Seuls les articles publiés en anglais ont été inclus dans cette revue.

## **II.2 Quels sont le matériel et les méthodes utilisés ?**

### **II.2.1 Méthode dynamométrique**

La mesure de la résistance à l'allongement passif des structures musculo-tendineuses se fait classiquement par l'enregistrement du couple passif produit lors du mouvement. Cette méthode requiert l'utilisation d'un dynamomètre, le plus souvent de type isocinétique. En établissant la relation couple-angle, il est alors possible de calculer un paramètre de RP, qui correspond au ratio de la variation de couple ou de force sur un secteur angulaire ou d'allongement musculaire donné  $\{\Delta(\text{couple}$

ou force)/ $\Delta$ (angle ou longueur) en  $\text{Nm}/^\circ$  ou  $\text{N}/\text{cm}$ }; (Gajdosik, 2001). Cette mesure correspond à la pente de la relation couple-angle sur un secteur de couple ou d'angle déterminé (Figure 21).



**Figure 21: Exemple de relation couple-angle lors du mouvement de FD passive. Le paramètre de RP correspond à la pente de la courbe, calculée ici entre 30% et 100% du couple passif maximal. D'après Boulard et al., (2019a).**

La méthode dynamométrique évalue la résistance globale produite par l'ensemble des tissus de l'UMT (*i.e.* muscle, tendon, capsule, ligament, peau...). Lorsqu'elle est combinée à l'échographie 2D, il devient alors possible d'estimer la raideur d'un muscle superficiel tel que le gastrocnémien. Le ratio (Force/ $\Delta$ longueur) peut ainsi être obtenu au cours du mouvement passif de FD par l'enregistrement :

- du déplacement de la jonction musculo-tendineuse mesurée par le biais d'un monitoring échographique (Cronin and Lichtwark, 2013).

- de la force de résistance passive développée par les muscles gastrocnémiens estimée à partir du couple passif enregistrée par le dynamomètre et de la mesure du bras de levier du TA (Force=couple/bras de levier) (Kruse et al., 2017).

Certains auteurs ont rapporté une mesure du slack angle de l'articulation de la cheville (*i.e.* angle au-delà duquel l'UMT du muscle Triceps sural commence à développer une résistance passive à son allongement) à partir d'une mesure dynamométrique (*i.e.* angle à partir duquel le couple passif dépasse 0 Newton) chez le sujet adulte sain (Muraoka et al., 2005) et l'adolescent PC (Barber et al., 2011).

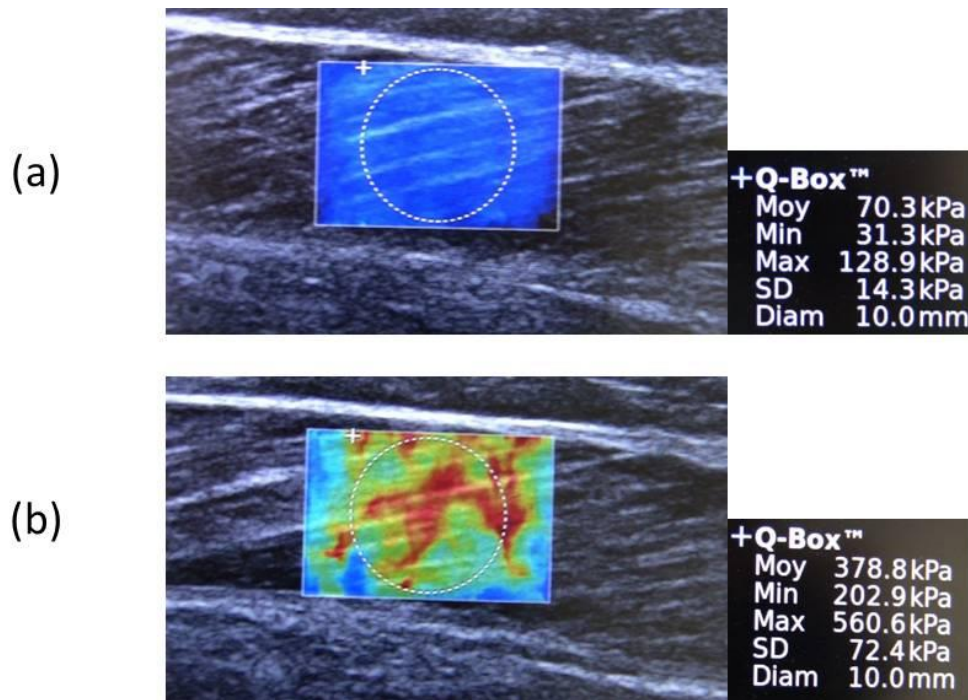
Si l'établissement de la relation couple-angle est commun à la plupart des études utilisant la méthode dynamométrique, il apparaît que des différences existent concernant le matériel et/ou les méthodes utilisées. Dans la littérature, on retrouve ainsi différents dispositifs : dynamomètre isocinétique (Barber et al., 2011; Ross et al., 2011), fauteuil instrumenté (Willerslev-Olsen et al.,

2013), dynamomètre portable (Willerslev-Olsen et al., 2018), oscillations manuelles avec capteurs de force (Alhusaini et al., 2010) ou modélisation mathématique (de Gooijer-van de Groep et al., 2013)... Or, il apparaît qu'un dynamomètre isocinétique permet un positionnement articulaire standardisé et un contrôle précis de la vitesse angulaire contrairement à certaines modalités de mesure nécessitant une mobilisation manuelle. A ce titre, l'utilisation d'un dynamomètre isocinétique peut être considérée comme la méthode « gold standard » dans l'établissement de la relation couple-angle. Chesworth and Vandervoort, (1988) ont montré la bonne reproductibilité de ces mesures chez le sujet sain. Chez le sujet PC, Boiteau et al., (1995) ont rapporté des valeurs de reproductibilité satisfaisantes (ICC=0,84) concernant l'articulation de la cheville mobilisée à des vitesses angulaires lentes (10°/s) et rapides (190°/s) alors que la reproductibilité des mesures semble plus contrastée au niveau du genou (Pierce et al., 2006).

### **II.2.2 Méthode Shear Wave Elastography (SWE)**

La technologie SWE permet notamment de quantifier le niveau de tension spécifique d'un tissu (*i.e.* muscle, tendon...) chez le sujet sain et/ou présentant une affection neurologique centrale (*i.e.* hémiplégie vasculaire de l'adulte, Paralysie Cérébrale de l'enfant...) (Hug et al., 2015). Le SWE est une technique d'imagerie ultrasonore dont les modalités d'application auprès du patient sont proches de l'échographie 2D. Une sonde spécifique est ainsi apposée en regard de la zone écho-anatomique. Par la suite, plusieurs étapes successives caractérisent le mode SWE :

- émission d'ultrasons à très hautes fréquences, focalisés de plus en plus profondément au sein du tissu musculaire.
- naissance puis propagation d'ondes de cisaillement au sein des tissus de part et d'autre de la source d'émission.
- calcul de la vitesse de propagation des ondes de cisaillement par le biais d'une imagerie ultrarapide au sein d'une zone d'intérêt pré-définie (Figure 22).



**Figure 22:** Mesure du module de cisaillement en kPa au sein du muscle GM chez un enfant PC spastique en position de repos (a) et en position d'allongement maximal (b). Le rectangle de couleur indique la zone d'intérêt pré-définie (ROI : *region of interest*) et le cercle en pointillés la zone de mesure (*Q box*). L'image de la zone d'intérêt prend une couleur vive jaune-orangée avec l'élévation du niveau de tension passive. *Données personnelles.*

La vitesse de propagation des ondes de cisaillement est directement liée à leur module de cisaillement par l'équation suivante :

$$\mu = \rho V_s^2$$

Avec  $\mu$  : module de cisaillement,  $\rho$  : densité du muscle ( $1000 \text{ kg.m}^{-3}$ ) et  $V_s^2$  : vitesse de propagation des ondes de cisaillement.

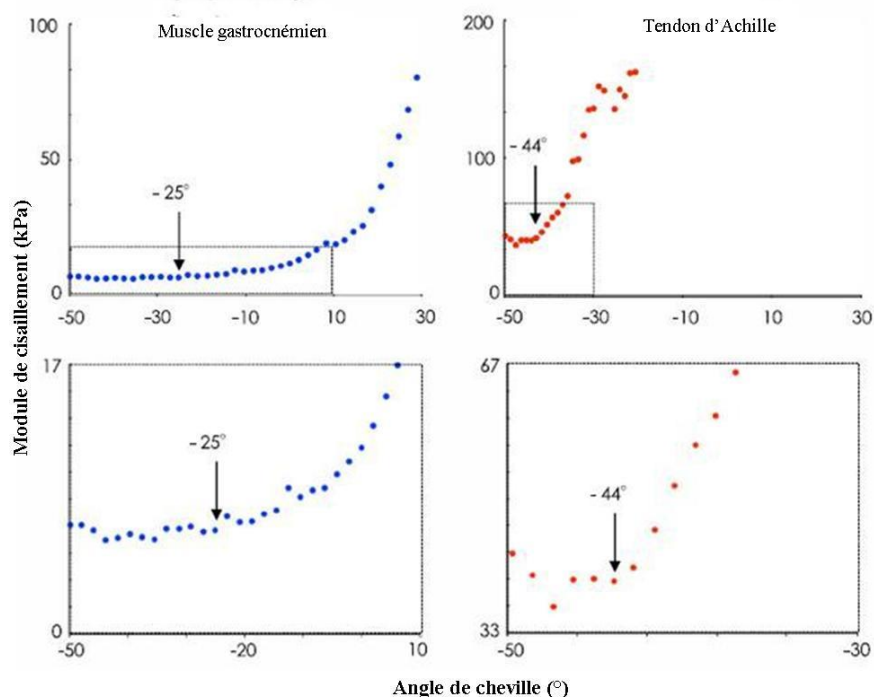
Le module de cisaillement est directement lié au module de Young, qui caractérise les propriétés de résistance d'un matériau, par l'équation suivante :

$$E = 3\mu$$

Avec E : module de Young et  $\mu$  : module de cisaillement.

Plus la vitesse de propagation des ondes de cisaillement est élevée, plus le module de cisaillement est important et plus le muscle présente un niveau de tension passive élevé. En enregistrant le module de cisaillement sur l'ensemble du cycle articulaire lors du mouvement passif, il est alors possible de calculer la RP d'un tissu spécifique par l'établissement de la relation module d'élasticité-angle {raideur= ( $\Delta$  module d'élasticité/ $\Delta$  angle ou longueur) en  $\text{kPa}/^\circ$  ou  $\text{kPa}/\text{cm}$ } (Hug et al., 2015). Par ailleurs, la mesure du module de cisaillement sur l'ensemble du cycle articulaire de la cheville permet de déterminer le slack angle et/ou le slack length (*i.e.* angle et/ou longueur au-delà duquel le muscle commence à développer une résistance passive à son allongement) d'un muscle spécifique tel que les gastrocnémiens. Dans le cas du slack length, la longueur musculaire doit être mesurée de façon concomitante ou estimée par une régression mathématique (Maïsetti et al., 2012).

L'intérêt du paramètre de slack angle/length réside dans le fait qu'il peut être diminué chez l'enfant PC présentant une rétraction de l'UMT du Triceps sural (Tardieu et al. 1982). La détermination de ce paramètre fait appel à une détection visuelle à partir de la relation module de cisaillement-angle articulaire ou longueur musculaire par un investigateur expérimenté (Figure 23) (Hug et al. 2015). Hug et al (2015) ont rapporté une bonne répétabilité intra-session de cette mesure chez le sujet sain concernant les muscles gastrocnémiens et le TA lorsque l'expérimentation était réalisée genou en extension complète (erreur standard de mesure=1,9°). A notre connaissance, il n'existe pas de données de reproductibilité inter-session de ce paramètre chez le sujet sain ou le sujet présentant une affection neurologique centrale.



**Figure 23: Détection visuelle du slack angle pour le muscle GM (-25°) et le TA (-44°) réalisée à partir de la relation module de cisaillement-angle de cheville chez le sujet sain. D'après Hug et al., (2015).**

Les bases théoriques de la méthode SWE décrites précédemment ont été validées au sein d'organes isotropes, homogènes et non-visqueux, tels que le sein ou le foie. A l'inverse, le muscle est un tissu anisotrope (densité différente), inhomogène et présentant des propriétés visco-élastiques (Lee et al., 2019). Néanmoins, plusieurs travaux successifs suggèrent que la mesure du module de cisaillement est un moyen valide de mesure du niveau de tension passive au sein du muscle squelettique. Dans une étude ex-vivo, Koo et al., (2013) ont rapporté une concordance élevée entre la force et le module de cisaillement mesuré au sein des muscles tibial antérieur et gastrocnémien chez le poulet lors de leur allongement passif. De façon similaire, Eby et al., (2013) ont montré au sein du muscle brachial du porc la capacité de la technologie SWE à réaliser des mesures précises lorsque l'orientation de la sonde est parallèle aux fibres musculaires. Chez l'homme sain, il a été rapporté que

les mesures SWE réalisées au sein des muscles gastrocnémiens étaient significativement corrélées à son allongement ( $r=0,964$ ,  $p=0,036$ ; Nakamura et al., 2016) ainsi qu'à la force passive développée ( $r=0,8$ ,  $p<0,05$ , Chernak et al., 2013; Maisetti et al., 2012). Chez l'enfant PCB, il a été montré au sein du muscle gastrocnémien latéral que le module de cisaillement augmentait avec l'amplitude de FD de cheville (Brandenburg et al., 2016). De la même façon, chez le sujet PCU, la vitesse de propagation des ondes de cisaillement augmente avec le couple passif et l'allongement des fascicules du muscle GM lors du mouvement de FD (Lee et al., 2016). La littérature suggère donc que la technologie SWE permet une mesure valide du niveau de tension passive intrinsèque du muscle.

A l'instar de l'échographie, les mesures SWE restent pour autant opérateur-dépendante (Creze et al., 2018). Les valeurs mesurées sont en effet largement influencées par la pression appliquée sur la sonde, la taille de la zone d'intérêt choisie pour la mesure (Kot et al., 2012) et l'angle que forme la sonde avec l'axe des fibres musculaires (Creze et al., 2018). Plusieurs études ont toutefois rapporté une bonne reproductibilité des mesures SWE réalisées au sein de plusieurs muscles placés en position courte ou de repos chez le sujet adulte sain (Dubois et al., 2015; Lacourpaille et al., 2012). Chez l'adulte hémiparétique vasculaire, Mathevon et al., (2018) ont rapporté une reproductibilité inter-session correcte de cette mesure au sein du muscle GM parétique en position de repos ( $CV=9,86\%$ ) contrairement à celle réalisée au sein du muscle non-parétique ( $CV=17,64\%$ ). Par ailleurs, la reproductibilité des mesures réalisées au niveau du muscle tibial antérieur au repos ( $15,60\% \leq CV \leq 18,50\%$ ) et au niveau du muscle GM maintenu manuellement en position d'étirement maximal ( $24,05\% \leq CV \leq 40,58\%$ ) était insuffisante. A ce jour, aucune étude de reproductibilité n'a été réalisée chez le sujet PC (enfant ou adulte). Il semble donc prématuré d'envisager l'utilisation de cette technologie en pratique clinique courante.

## **II.3 Quels sont les principaux résultats retrouvés dans la littérature ?**

### **II.3.1 Méthode dynamométrique**

La méthode dynamométrique a été utilisée à de nombreuses reprises chez le sujet sain pour caractériser les propriétés passives de l'UMT des muscles fléchisseurs plantaires. Tardieu et al., (1982) ont été les précurseurs de ce type de mesure chez l'enfant PC, mettant en évidence un excès de RP de l'UMT des muscles fléchisseurs plantaires de cheville combinée à une apparition plus précoce du slack angle (*i.e.* angle à partir duquel les structures anatomiques commencent à développer une tension passive). Plus récemment, d'autres travaux ont confirmé l'augmentation de RP de l'UMT des muscles fléchisseurs plantaires chez l'enfant et/ou l'adolescent PC spastique par rapport à des sujets sains (Alhusaini et al., 2010; Barber et al., 2011; de Gooijer-van de Groep et al., 2013). Toutefois, les valeurs enregistrées chez le sujet PC présentent des variations importantes {+225%, (Alhusaini et al., 2010) à +51%, (Barber et al., 2011) par rapport à un groupe contrôle}. Une étude n'a pas trouvé de différences entre enfants PC spastiques de bon niveau fonctionnel (GMFCS I) et des enfants sains



(Kruse et al., 2017) alors que deux autres travaux rapportent des résultats plus discutables (Ross et al., 2011; Willerslev-Olsen et al., 2013). Peu d'études ont étudié les relations entre la mesure de RP et les paramètres cliniques tels que l'amplitude de FD de cheville. de Gooijer-van de Groep et al., (2013) ont calculé que l'augmentation de RP de l'UMT des muscles fléchisseurs plantaires permettrait d'expliquer 84% de la variation d'amplitude de FD maximale de cheville au sein d'un groupe d'adolescent PC. Willerslev-Olsen et al., (2018) retrouvent des corrélations négatives plus modérées ( $r=-0,47$ ,  $p<0,01$  et  $r=-0,54$ ,  $p=0,04$  pour les enfants sains et PC respectivement) entre les deux paramètres chez le très jeune enfant (*i.e.* moins de 29 mois). Toutefois, Tardieu et al., (1982) n'ont pas retrouvé une telle relation chez l'enfant PC présentant une rétraction sévère (FD maximale moyenne : -9°). Les études ayant estimé la RP des muscles gastrocnémiens à l'aide de mesures combinant enregistrement dynamométrique et échographique rapportent des résultats divergents. Theis et al., (2016) ont retrouvé une augmentation significative de la RP des muscles gastrocnémiens chez l'enfant PC GMFCS III et IV. De façon opposé, Kruse et al., (2017) ne retrouvent aucune différence chez des sujets de bon niveau fonctionnel (GMFCS I à II) par rapport à des enfants sains.

Peu d'études ont évalué le niveau de RP du TA malgré l'altération de ses propriétés morphologiques. Les résultats issus des deux études ayant réalisé ce type de mesure sont divergents. Kruse et al., (2017) rapportent une diminution du niveau de RP du TA chez l'enfant PC par rapport à l'enfant sain contrairement à Theis et al., (2016) qui ne retrouvent aucune différence.

La méthode dynamométrique permet d'évaluer la résistance de l'ensemble de l'UMT sans distinction possible entre ses différents constituants. Lorsqu'elle s'associe aux techniques d'échographie 2D, elle permet une mesure indirecte de la force du muscle qui peut se révéler imprécise. Ces limitations peuvent désormais être contournées par l'utilisation de la technologie SWE qui se développe depuis plusieurs années dans le champ musculo-squelettique (Hug et al., 2015).

### **II.3.2 Méthode Shear Wave Elastography (SWE)**

Peu d'études utilisant la technologie SWE ont été réalisées chez l'enfant PC. L'augmentation de la vitesse de propagation des ondes de cisaillement a été rapportée au sein des muscles gastrocnémiens médial (Bilgici et al., 2017; Kwon et al., 2012) et latéral (Brandenburg et al., 2016) ainsi qu'au niveau du muscle soléaire (Kwon et al., 2012; Vola et al., 2018) chez l'enfant PCU ou PCB par rapport à des enfants sains d'âge comparable {5 ans, (Kwon et al., 2012) à 16 ans, (Vola et al., 2018)}. Lee et al., (2016) rapportent une augmentation de la vitesse de propagation des ondes de cisaillement du muscle GM au sein du membre parétique, cheville positionnée à angle neutre (*i.e.* 0°), par rapport au membre non-parétique.

Deux études récentes ont rapporté l'effet d'une injection de toxine botulique au sein des muscles gastrocnémiens sur la valeur du module de cisaillement (Brandenburg et al., 2018; Ceyhan Bilgici et al., 2018). Bilgici et al., (2018) ont rapporté une diminution significative de cette valeur au

sein du muscle GM alors que Brandenburg et al., (2018) retrouvent une tendance similaire au sein du muscle GL un mois après l'injection de toxine botulique.

Concernant le TA, aucune étude n'a rapporté de mesures du module de cisaillement chez l'enfant PC contrairement à l'adulte sain (DeWall et al., 2014; Suydam et al., 2015).

## **II.4 Comment interpréter ces résultats ?**

### **II.4.1 Influence du protocole expérimental utilisé**

Les paramètres des protocoles expérimentaux mis en œuvre au sein des études utilisant la méthode dynamométrique et/ou la méthode SWE présentent des différences qui peuvent expliquer en partie la divergence des résultats et la variabilité des données retrouvée dans la littérature.

Plusieurs paramètres sont à prendre en considération :

- positionnement du sujet : si les enfants sont dans leur grande majorité installés en position assise, la position du genou diffère entre les études : contrôle aléatoire de la position du genou {20° à 40° de flexion (Ross et al., 2011) , 70° de flexion (de Gooijer-van de Groep et al., 2013), 50° de flexion (Willerslev-Olsen et al., 2013)} ou en extension complète {0°(Alhusaini et al., 2010; Barber et al., 2011; Kruse et al., 2017)}. Or, la position du genou a une influence capitale sur le niveau de tension de l'UMT du Triceps sural. La position genou tendu est en effet associée à une mise en tension des muscles gastrocnémiens et est donc susceptible d'entraîner une plus grande valeur de RP par rapport à la position genou fléchi ou le muscle soléaire est principalement sollicité (Maïsetti et al., 2012). En outre, il semble que la position de la hanche ait également une influence sur le niveau de tension généré au niveau des muscles fléchisseurs plantaires (*i.e.* augmentation avec la flexion de hanche, Andrade et al., 2016). En conséquence, l'angle maximal de FD est supérieur lorsque la hanche est positionnée en rectitude (*i.e.* 0) plutôt qu'à 30° de flexion (Andrade et al., 2016). Il a été émis l'hypothèse selon laquelle la mise en tension des fascias et des structures nerveuses périphériques joueraient un rôle dans ce résultat (Nordez et al., 2017).

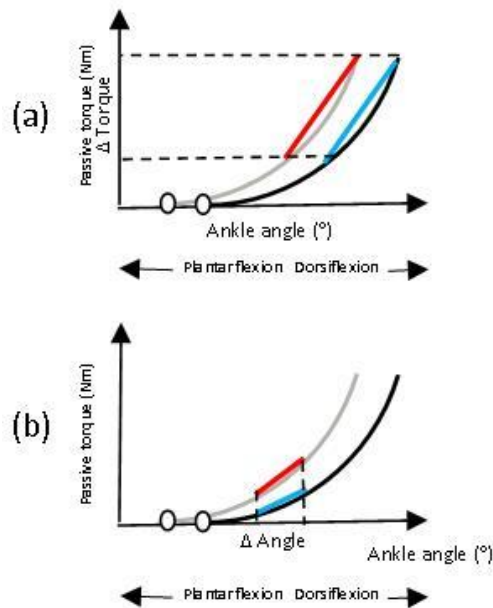
-vitesse angulaire : la vitesse angulaire délivrée par le dynamomètre isocinétique varie selon les études entre 1°/s (Theis et al., 2016) et 27°/s (Willerslev-Olsen et al., 2013). L'utilisation d'oscillations manuelles à l'aide d'un matériel de fabrication artisanale afin de générer le mouvement passif de FD-FP de cheville peut conduire à des valeurs plus élevées et différentes entre sujets PC (60°/s) et sains (88°/s) (Alhusaini et al., 2010). Or, en dehors de toute présence de spasticité contrôlée par EMG, le couple maximal passif développé par l'UMT augmente avec la vitesse angulaire du fait des caractéristiques visco-élastiques des tissus (McNair et al., 2002; Nordez et al., 2008). Il convient donc d'utiliser une vitesse angulaire minimale et standardisée pour permettre la comparaison des résultats entre les études.

-contrôle EMG : si un monitoring EMG de l'activation des muscles antagonistes (soléaire et gastrocnémiens) et synergiques (tibial antérieur) au mouvement passif de FD est classiquement mis en œuvre au sein des études, il peut toutefois être absent (Ross et al., 2011) ou peu décrit. Le seuil utilisé pour décrire l'état de repos musculaire n'est parfois pas précisé (Alhusaini et al., 2010) ou varie selon les études : 5% de la contraction maximale volontaire (Barber 2011), < 3 écart-types de la valeur minimale (de Gooijer-van de Groep et al., 2013), < 5 $\mu$ V (Willerslev-Olsen et al., 2018), < 3 fois le niveau basale (Willerslev-Olsen et al., 2013) ... Or, une étude récente a montré chez le sujet sain que le couple passif de la cheville et le module de cisaillement des muscles gastrocnémiens variaient significativement en fonction de la présence d'une activation musculaire correspondante à 1%, 2% ou 5% de la contraction maximale volontaire (Le Sant et al., 2019a).

#### **II.4.2 Résultats issus de la méthode dynamométrique**

Les études rapportant les mesures de RP des muscles fléchisseurs plantaires se caractérisent par des différences importantes en ce qui concerne le traitement des données enregistrées. Ces différences méthodologiques influencent-elles l'interprétation des résultats ? Que signifie sur le plan physiopathologique l'augmentation de RP des muscles fléchisseurs plantaires décrite dans la littérature ?

Dans une majorité d'études, la relation couple-angle est caractérisée à l'aide d'une régression linéaire, permettant ainsi un calcul simple du paramètre de RP (pente de la courbe couple-angle, cf. II.2.1). Néanmoins, la portion de la courbe sur laquelle ce paramètre est calculé influence fortement les résultats (Ross et al., 2011). La diminution de l'amplitude maximale de FD passive de cheville (Hägglund and Wagner, 2011), caractérisée par une diminution de la longueur des muscles fléchisseurs plantaires (*e.g.* soléaire et gastrocnémiens) (Wren et al., 2004, 2010) et une apparition plus précoce du slack angle dans le secteur de FP (Barber et al., 2011; Tardieu et al., 1982) peut entraîner un décalage vers la gauche de la relation couple-angle. Le couple passif maximal et la forme de la courbe peuvent néanmoins rester identiques (Figure 24).



**Figure 24: Calcul de la pente (régression linéaire) de la relation couple-angle déterminée sur un secteur de couple passif relatif (a) et un secteur angulaire absolu (b) chez un sujet PC (courbes grises) et un sujet sain (courbes noires). Le slack angle (points blancs) apparaît plus précocement dans le secteur de FP lors du mouvement passif de FD chez le sujet PC (D'après Boulard et al., 2019a).**

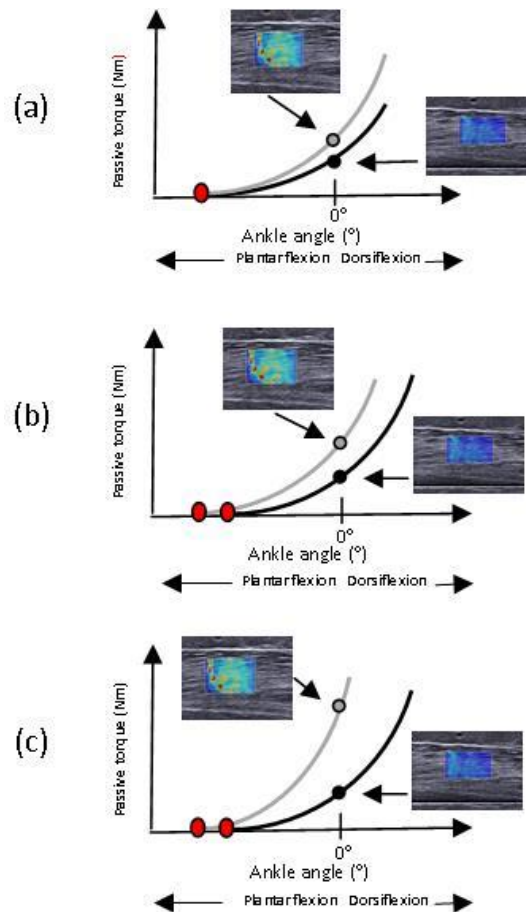
Dans ce cas de figure, lorsque la pente de la courbe est calculée sur un secteur articulaire donné et restreint (e.g. 0 à 5°), les sujets PC présentent des valeurs fortement supérieures aux sujets sains (+225%, Alhusaini et al., 2010) (Figure 23, b). L'augmentation de la RP enregistrée chez le sujet PC peut ici refléter majoritairement la présence d'une diminution de longueur musculaire plutôt qu'une modification de ses propriétés élastiques. Cette problématique peut être dépassée en déterminant une régression linéaire sur une portion de courbe indexée sur le couple passif maximal (Figure 23, a). Cette méthode permet ainsi la comparaison de valeurs enregistrées chez un même sujet au cours du temps ou entre plusieurs sujets présentant des paramètres cliniques variables. Néanmoins, aucun consensus ne semble exister dans la littérature concernant le secteur de couple passif à utiliser (30-100%, 20-80% et 50-90% du couple passif maximal pour Barber et al., 2011; Kruse et al., 2017; Theis et al., 2016 respectivement).

Au-delà des aspects méthodologiques, il semble que le niveau moteur et d'indépendance fonctionnelle des sujets étudiés influencent les résultats. Theis et al., (2016) retrouvent une augmentation de RP des muscles fléchisseurs plantaires de cheville chez l'enfant GMFCS III-IV par rapport à des sujets sains contrairement à Kruse et al., (2017) chez le sujet GMFCS I-II.

Les divergences de résultats concernant la RP du TA peuvent résulter de considérations méthodologiques similaires à celles évoquées ci-dessus (pente de la courbe force-longueur calculée sur une portion de courbe différente).

### **II.4.3 Résultats issus de la méthode Shear Wave Elastography (SWE)**

De la même façon que pour la méthode dynamométrique, l'augmentation de la vitesse de propagation des ondes et/ou du module de cisaillement rapportée au sein du muscle parétique et spastique de l'enfant PC doit être interprétée à la lumière de la méthodologie utilisée au sein des études précédemment citées (cf. II.3.2). Dans la majorité de ces études, les enfants sont positionnés sur le ventre avec le pied laissé libre en dehors de la table sans aucun contrôle de la position de la cheville (Bilgici et al., 2017; Kwon et al., 2012; Vola et al., 2018). La position du pied est alors la conséquence de l'action de la gravité au niveau de la cheville, dépendante de l'installation du sujet (couché sur le ventre ou sur le dos) et du positionnement des articulations de la hanche et du genou. Sans connaissances de la position de la cheville et un contrôle précis de celle-ci, donc de la longueur musculaire, les valeurs enregistrées sont susceptibles de présenter une grande variabilité. Par ailleurs, les mesures sont réalisées dans une position statique de repos (Bilgici et al., 2017; Kwon et al., 2012; Vola et al., 2018) ou à un angle fixe (Brandenburg et al., 2016; Lee et al., 2016) et ne peuvent fournir d'informations sur le niveau de RP spécifique d'un muscle, qui requiert une évaluation sur l'ensemble du cycle articulaire. Dans ce cas de figure et de façon similaire à la méthode dynamométrique, l'élévation du module de cisaillement à un angle donné peut-être la traduction d'un possible raccourcissement des muscles fléchisseurs plantaires plutôt qu'une altération de leurs propriétés élastiques (Figure 25).



**Figure 25: Mesures SWE au sein du muscle GM réalisées à angle neutre (*i.e.* 0°). Les mesures SWE sont plus élevées pour le sujet PC par rapport au sujet sain quelle que soit la situation physiopathologique théorique (D'après Boulard et al., 2019a):**

- (a) : pas de différence de slack angle (points rouges) et de FD maximale, mais augmentation de l'inclinaison de la courbe couple-angle chez le sujet PC ≈ **augmentation de la RP**
- (b) : slack angle plus précoce et diminution de la FD maximale chez le sujet PC. Pas de différence de forme de la courbe couple-angle ≈ **diminution de longueur musculaire**
- (c) : slack angle plus précoce, diminution de la FD maximale et augmentation de l'inclinaison de la courbe couple-angle chez le sujet PC ≈ **augmentation de la RP et diminution de longueur musculaire.**

A titre d'exemple, l'étude de Brandenburg et al., (2016) montre une élévation du module de cisaillement mesuré au sein du muscle gastrocnémien latéral à différents angles articulaires (20° et 10° de FP, 0°) chez l'enfant PCB par rapport à l'enfant sain mais les valeurs augmentent de façon similaire entre les différentes positions articulaires au sein des deux groupes.

Des mesures SWE sur l'ensemble du cycle articulaire sont nécessaires chez l'enfant PC pour améliorer la compréhension des propriétés élastiques du muscle parétique et spastique. Une étude de ce type a été récemment réalisée au sein des muscles gastrocnémiens, mettant notamment en évidence la présence d'un slack angle décalé vers le secteur de FP chez le sujet hémiplegique vasculaire par rapport au sujet sain (Le Sant et al., 2019b). Par ailleurs, les mesures SWE permettent d'appréhender différents niveaux de tension passive au sein d'un même corps musculaire (zones proximales,

intermédiaires et distales) (Le Sant et al., 2019b) et de réaliser une cartographie du niveau de tension passive au sein de muscles synergiques d'une même fonction (Le Sant et al., 2019, 2017). La méthode SWE apparaît donc comme un outil novateur, offrant l'opportunité d'accroître les connaissances sur les propriétés élastiques à l'échelle du fascicule musculaire. Néanmoins, il manque à ce jour des preuves de la fiabilité des mesures, notamment chez l'enfant PC.

## **II.5 Comment expliquer l'augmentation de la raideur passive chez l'enfant PC spastique ?**

L'augmentation de la RP au niveau de l'UMT du Triceps sural et des muscles gastrocnémiens peut être reliée à l'altération des propriétés musculaires à l'échelle microscopique, décrite dans les paragraphes III.3.1 et III.3.2 (1<sup>ère</sup> partie), sans qu'il soit réellement possible de quantifier l'influence de chaque élément. La figure 26 décrit les interactions possibles entre les mécanismes physiopathologiques retrouvés chez l'enfant PC et l'altération des propriétés musculaires à différents niveaux :

- **Le corps musculaire** des principaux muscles fléchisseurs plantaires, soléaire et gastrocnémiens, présente une diminution de longueur, probablement à la suite d'une altération des mécanismes physiologiques de la croissance musculaire.
- **Le tendon d'Achille** présente une augmentation de sa longueur, à la suite de l'excès de tension appliqué sur sa structure, du fait du déséquilibre de croissance entre le squelette osseux et les tissus musculaires.
- **Les fascicules musculaires** des muscles gastrocnémiens présentent une diminution de leur capacité d'allongement. Nous émettons l'hypothèse que la modification des caractéristiques de la matrice extra-cellulaire pourrait avoir une influence sur la capacité d'allongement des fascicules musculaires.
- **Les fascicules, fibres et myofibrilles** présentent une diminution de leur longueur alors que les **sarcomères** présentent une diminution de leur nombre en série. La diminution du nombre de cellules satellites rapportée au sein du muscle rétracté de l'enfant PC peut être une des causes de cette altération morphologique.
- **Les sarcomères** présentent une augmentation de leur longueur, sous l'influence d'un excès de tension lié à l'altération des mécanismes de la croissance musculaire. Au sein du sarcomère, les modifications des caractéristiques de la protéine Titine et leurs conséquences sont encore débattues dans la littérature.

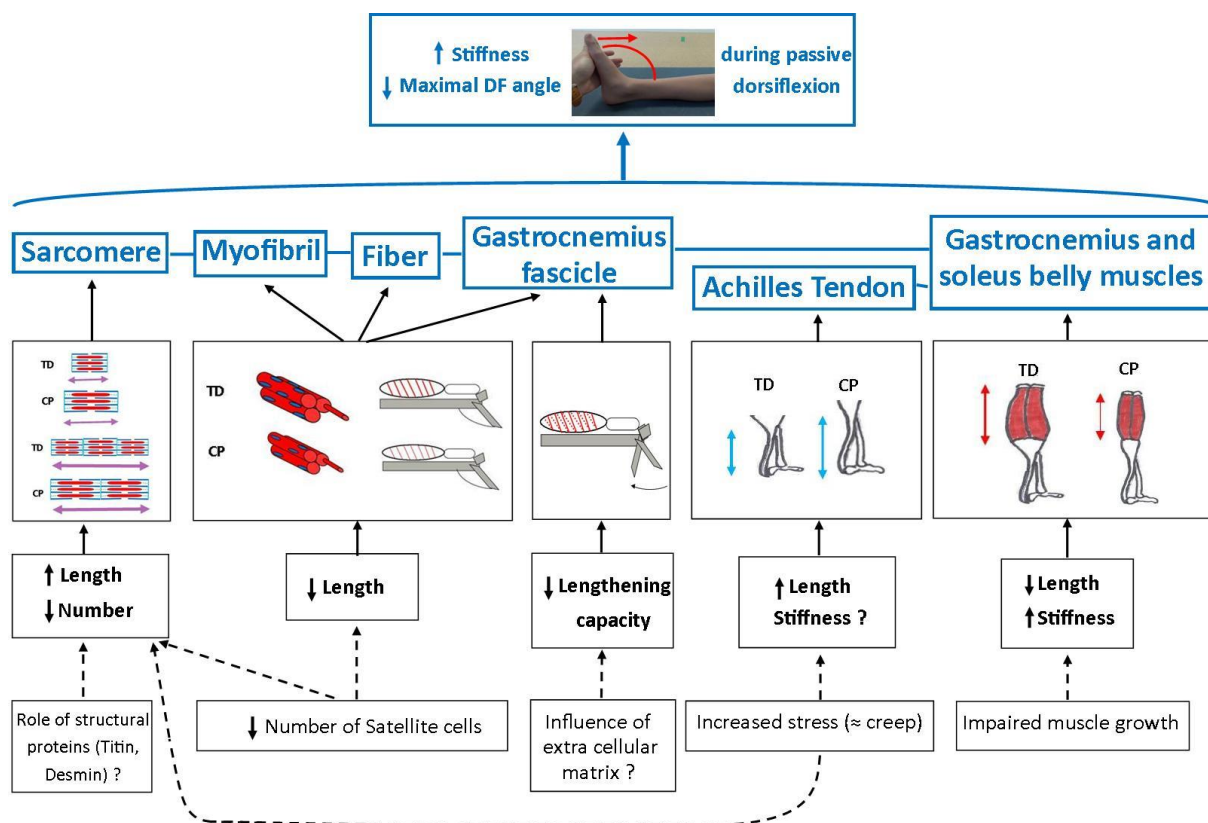


Figure 26 : Diagramme conceptuel présentant les relations connues (traits pleins) et hypothétiques (traits hachés) entre les mécanismes physiopathologiques et les structures musculaires du niveau microscopique au macroscopique, favorisant la diminution de FD passive au niveau de la cheville et l'augmentation de RP. (D'après Boulard et al., 2019a)

## SYNTHESE

De façon similaire et dans la lignée du concept de spasticité, le terme de « raideur passive » (RP) est utilisé de façon ambiguë dans la littérature. Répondant à une définition biomécanique précise, la RP est néanmoins mesurée à l'aide de matériel et de protocoles expérimentaux variés. L'utilisation de méthodologies différentes concernant le traitement des données pose la question de l'interprétation des résultats. Dans plusieurs situations, l'excès de RP pourrait être le résultat d'un raccourcissement du corps musculaire plutôt qu'une altération de ses propriétés élastiques. L'augmentation de la RP des muscles fléchisseurs plantaires apparaît liée à l'altération de différentes structures tant au niveau macroscopique que microscopique, résultant de mécanismes physiopathologiques encore mal compris.

Afin de répondre à certaines lacunes autour de la mesure de la RP des muscles fléchisseurs plantaires, nous avons réalisé trois études présentant une méthodologie similaire (contributions # 2, 3 et 4). Le paragraphe suivant décrit les paramètres du protocole expérimental et du traitement des données communs et distincts aux différentes études.



### III. Instrumentation et traitement des données

Les travaux présentés dans les paragraphes suivants répondent à un protocole expérimental et à une méthode de traitement des données similaires. Les caractéristiques communes aux différentes études sont donc présentées ci-dessous.

#### III.1 Protocole expérimental

Pour chaque enfant, la procédure suivante a été réalisée :

- un **examen clinique** était réalisé au début de la session de mesures instrumentales. L'amplitude maximale de FD genou tendu était mesurée par goniométrie manuelle, la spasticité était évaluée à l'aide de l'échelle d'Ashworth et/ou de l'échelle de Tardieu et le niveau de sélectivité motrice de la cheville à l'aide de l'échelle de Boyd. La longueur du tibia était mesurée à l'aide d'un mètre ruban en position de décubitus ventral, entre la malléole latérale et l'interligne inter-condyloire latérale.

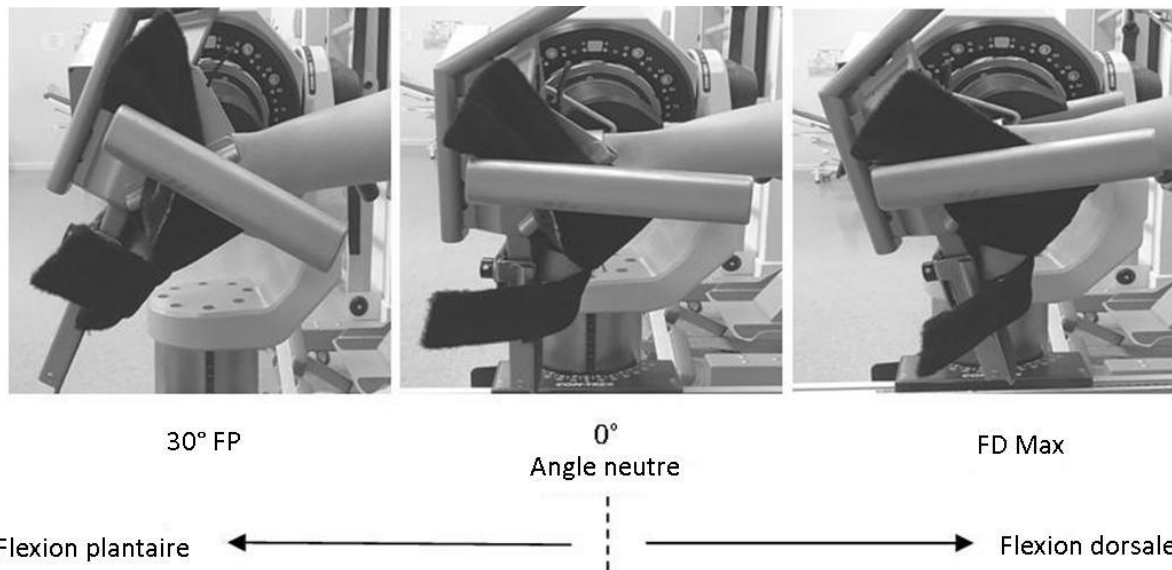
- **installation** des enfants en position de décubitus ventral sur un dynamomètre isocinétique CON-TREX® (Medimex, France). Le genou était positionné en extension complète (*i.e.* 0°). La cheville était positionnée et fermement attachée à l'aide de velcros au module de cheville du dynamomètre. L'axe articulaire de la cheville était positionné en regard de l'axe de rotation du dynamomètre. Une sangle maintenait fermement la cuisse du côté testé.

- contrôle de l'absence d'activité musculaire lors des évaluations passives par un **enregistrement EMG** (Delsys DE 2.1, Delsys Inc, Boston, MA, USA) au niveau des muscles tibial antérieur et gastrocnémien latéral.

- la fréquence d'échantillonnage pour le couple passif, l'angle et l'amplitude articulaire était de 2000 Hz.

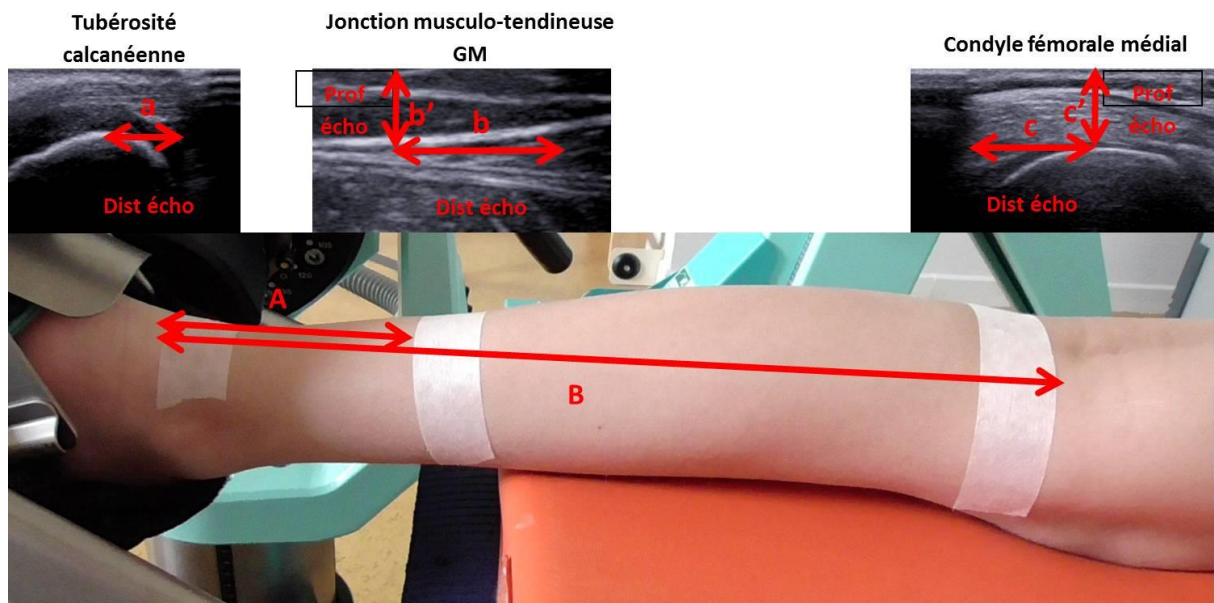
- évaluation de l'**amplitude maximale de FD** de cheville, genou tendu, de façon instrumentale (**contributions # 3 et 4**) lors d'une mobilisation passive à 2°/s. L'amplitude maximale de FD de cheville était déterminée comme l'angle où le sujet ressentait une sensation d'étirement maximal au niveau des muscles postérieurs de la jambe, au-delà de laquelle la position devenait trop inconfortable et/ou douloureuse.

- **mobilisation passive de la cheville** par le dynamomètre isocinétique à 2°/s pendant 5 - 6 cycles de FP-FD (Maganaris, 2003) dans le secteur articulaire (30°/ 25° de FP-FD maximale) (Figure 27).



**Figure 27:** Exemple de positionnement de la cheville d'un sujet sur le dynamomètre isocinétique Con-Trex®. La cheville est mobilisée passivement dans le secteur 30° FP-FD max. (D'après Boulard et al., 2019b)

- **Mesures échographiques 2D (contribution # 3, mesure de la longueur du muscle GM et du TA)** : la cheville était positionnée à 30° de FP puis le condyle médial du genou, la jonction musculo-tendineuse et l'insertion distale du TA sur le calcaneus étaient successivement repérés par échographie 2D (Supersonic Imagine®, Aixplorer®, Aix-en-Provence, France). Lors de chaque localisation, l'emplacement de la sonde était alors marqué à l'aide d'un feutre indélébile sur la peau du sujet et une bande adhésive écho-réfléchissante était positionnée en regard de la zone anatomique. A l'aide des outils de mesure fournis par le logiciel de l'échographe, les distances entre les repères anatomiques observables sur les images échographiques (condyle médial du genou, jonction musculo-tendineuse et apophyse calcaneenne) et les repères matérialisés par les bandes adhésives (visibles sous la forme d'une bande noire sur l'image échographique) étaient mesurées. De façon similaire, les distances entre les repères fournies par les bandes adhésives étaient mesurées de façon externe à l'aide d'un mètre ruban. Les longueurs de l'UMT du Triceps sural et du TA étaient alors mesurées selon la méthode décrite dans la littérature chez l'enfant PC spastique (Figure 27) (Barber et al., 2011; Kruse et al., 2018) (Figure 28). La longueur du muscle GM était ensuite déduite des deux précédentes mesures.



**Figure 28: Méthode de mesure de la longueur de l'UMT du Triceps sural, du muscle GM et du TA combinant repérage échographique et mesure de longueur externe à l'aide d'un mètre ruban. Les longueurs de l'UMT et TA sont calculées d'après le théorème de Pythagore de la façon suivante :**

- (1) Longueur UMT=  $\sqrt{[(a+B+c)^2 - c'^2]}$
- (2) Longueur TA=  $\sqrt{[(a+A-b)^2 - b'^2]}$
- (3) Longueur GM=Longueur (UMT-TA)

*(Dist et Prof écho : distance et profondeur mesurée sur l'image échographique)*

- **Mesures SWE (contributions # 3 et 4).** La sonde de l'échographe (4-15 MHz, SuperLinear 15-4, Vermon, Tours, France), réglé en mode SWE (Supersonic Imagine®, Aixplorer®, Aix-en-Provence, France), était positionnée sur la zone la plus charnue du muscle GM repérée par échographie 2D. Après s'être assurée de visualiser correctement les fascicules musculaires, la zone d'intérêt était réglée de façon à prendre en compte le maximum de tissu musculaire en excluant les aponévroses superficielles et profondes. La sonde était maintenue manuellement durant les deux derniers cycles de FD au cours desquels l'enregistrement SWE était réalisé.

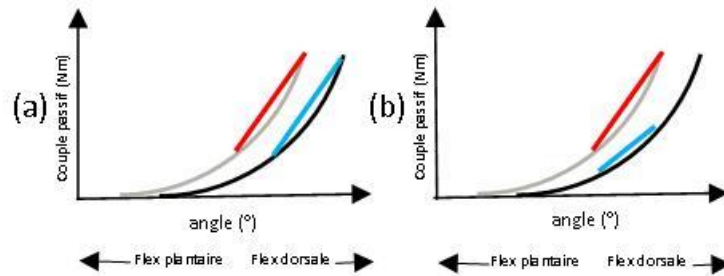
### III.2 Traitement des données

Les données prises en compte dans les analyses étaient recueillies à partir du dernier cycle de FD de cheville après s'être assuré de l'absence de différence avec le cycle précédent. Dans les rares cas contraires, l'avant-dernier cycle était sélectionné. Le traitement des données comprenait les calculs suivants :

- **Raideur passive relative ;  $RP_{rel}$**  : calcul de la pente de la relation couple-angle, représentant le paramètre de RP de l'UMT du Triceps sural au sein des membres parétique et non-parétique à l'aide d'une régression linéaire selon 3 secteurs de couple passif maximal différents lors de la contribution

# 2: 30-100% (méthode 1, Barber et al., 2011), 20-80% (méthode 2, Theis et al., 2016), 50-90% (méthode 3, Kruse et al., 2017) et le secteur 20-80% pour les contributions # 3 et 4 (Figure 29).

- **Raideur passive absolue ;  $RP_{abs}$**  : pour tenir compte de la différence d'amplitude de FD maximal entre les deux membres, la pente de la relation couple-angle a également été calculée au sein du membre non-parétique sur un secteur articulaire absolu (*i.e.* secteur articulaire identique à celui du membre parétique) (Figure 29).

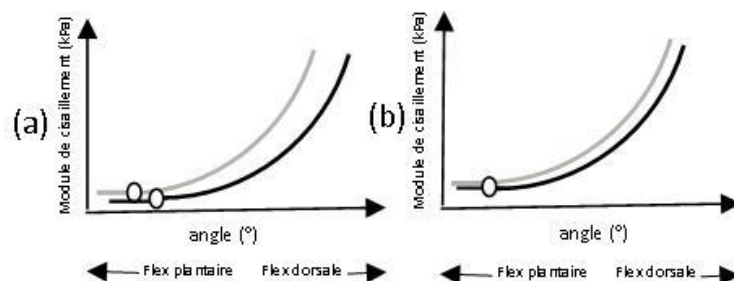


**Figure 29 : Calcul de la  $RP_{rel}$  (e.g. méthode 1 : 30%-100%) (a) de la  $RP_{abs}$  (b) chez un sujet PCU au niveau du membre parétique (courbe grise) et non-parétique (courbe noire).**

- **Module de cisaillement à angle fixe (contributions # 3 et 4)** : comme proposé par Le Sant et al., (2019b), le module de cisaillement a été comparé entre les membres parétique et non-parétique à leur angle maximal de FD ainsi qu'à l'angle maximal de FD commun aux deux membres (*i.e.* angle maximal de FD côté parétique).

- **Slack angle (contributions # 3 et 4)** (*i.e.* angle à partir duquel commence l'augmentation du module de cisaillement) : déterminé visuellement par le même investigateur à partir de la relation module de cisaillement-angle articulaire au niveau des deux membres (Figure 30).

- **Slack angle corrigé (contributions # 3 et 4)** : afin de tenir compte de la différence de slack angle entre les deux membres et pour fournir des données complémentaires sur les propriétés élastiques du muscle GM (Herbert et al., 2002), la valeur du module de cisaillement obtenue à l'angle de FD maximal commun aux deux membres à partir du slack angle a été considérée (Figure 30) (Le Sant et al., 2019b).



**Figure 30 : Détermination du slack angle (a) et du slack angle corrigé (b) chez un sujet PCU au niveau du membre parétique (courbe grise) et non-parétique (courbe noire).**

-  **$RP$  muscle GM (contributions # 3 et 4)** : la relation module de cisaillement-angle de cheville a été modélisée du slack angle à l'angle de FD maximal par une relation exponentielle ( $y=ae^{kx}$ ) où le coefficient ( $k$ ) était considéré comme la valeur de  $RP$  du muscle GM (Gillett et al., 2018).

- **Relation couple passif-module de cisaillement (contribution # 3) :** cette relation a été établie à partir du slack angle pour chacun des deux membres puis modélisée par une régression linéaire.

L'ensemble des données présenté ci-dessus était comparé entre les membres parétique et non-parétique. Pour chacune des relations établies (couple passif-angle articulaire, module de cisaillement-angle articulaire, couple passif-module de cisaillement), le coefficient de détermination ( $R^2$ ) de la relation modélisée était établi.

# **IV. Contribution # 2 à l'avancée des connaissances - Méthodologie de la mesure de raideur passive de l'UMT du Triceps sural.**

## **IV.1 Contexte général et objectifs**

Nous avons vu précédemment que la mesure de la RP de l'UMT du Triceps sural doit faire l'objet d'un protocole rigoureux, mis en œuvre à l'aide d'un matériel spécifique. Au-delà de la procédure mise en place lors des expérimentations pour le recueil des mesures, le traitement lui-même des données requiert une importance capitale. Nous avons vu que la prise en compte de la différence d'amplitude de FD maximale de cheville entre deux membres comparés était capitale dans le choix d'un secteur articulaire ou de couple passif lors du calcul de la pente de la relation couple-angle. Comparer cette valeur calculée sur un même secteur articulaire entre deux membres présentant une différence significative d'amplitude maximale de FD conduit en effet à comparer deux portions différentes de la relation couple-angle (Alhusaini et al., 2010). De fait, il en résulte des différences de valeurs importantes entre les deux membres, permettant ainsi d'expliquer en partie les données de la littérature. Il semble donc que le choix d'un secteur relatif au couple maximal enregistré lors du mouvement passif permette de s'affranchir de la problématique liée aux différences cliniques. Or, aucun consensus n'existe selon les études qui rapportent trois secteurs de couple passif différents : 30-100% (méthode 1, Barber et al., 2011), 20-80% (méthode 2, Theis et al., 2016), 50-90% (méthode 3, Kruse et al., 2017). Par ailleurs, la plupart des travaux incluent dans leur population d'étude des enfants PCU et PCB alors que leurs caractéristiques cliniques varient fortement (altération du taux de croissance musculaire et de la force des muscles fléchisseurs plantaires) (Barber et al., 2016; Wiley and Damiano, 1998) et que le schéma de marche en équin est une problématique plus spécifique des sujets PCU (Winters et al., 1987). Enfin, la littérature rapporte peu de données de reproductibilité concernant la relation couple-angle de cheville chez l'enfant PC (Boiteau et al., 1995).

L'objectif principal de cette étude est d'étudier l'influence de trois méthodes différentes de calcul de la pente de la relation couple-angle sur la reproductibilité inter-session de sa mesure chez l'enfant PCU. L'objectif secondaire est de comparer ces données entre les membres parétique et non-parétique en fonction de la différence d'amplitude maximale de cheville entre les deux membres.

## **IV.2 Population et statistiques**

### **\* Population**

13 enfants PCU spastiques ont été recrutés pour cette étude. Les critères d'inclusions comprenaient (1) un diagnostic de PCU spastique, (2) un âge compris entre 5 et 12 ans, (3) la capacité de suivre des consignes simples, (4) l'absence d'injections de toxine botulique ou de plâtres

d'allongement dans les trois mois précédant l'évaluation, (5) l'absence de flessums de genou  $> 10^\circ$ . Les enfants étaient exclus en cas d'antécédents de chirurgie des membres inférieurs. Les caractéristiques générales de la population sont présentées dans le tableau 1.

n	13
Sexe (Garçon/Fille)	6/7
Côté parétique (droit/gauche)	6/7
Age (Années)	9,8 (1,8)
Poids (kg)	32,6 (9,6)
Taille (cm)	137,8 (13,5)
Longueur tibia côté parétique (cm)	32,9 (4)
Longueur tibia côté non-parétique (cm)	33,9 (4,1)
GMFCS Level, n	I; n=13
Echelle d'Ashworth Modifiée	2,46 (0,77)
Echelle de Tardieu	1,2 (0,86)
Echelle de Boyd	1,23 (0,44)
Angle de FD maximal côté parétique ( $^\circ$ )	2,1 (6,5)
Angle de FD maximal côté non-parétique ( $^\circ$ )	12,7 (3,8)
Nombre injections de toxine botulique	6,5 (2)
Nombre semaines plâtres d'allongement	6,5 (5,6)
Nombre séances de kinésithérapie/semaine	1,5 (0,6)
Attelle de nuit (oui/non)	11/2
Attelle de marche (oui/non)	10/3

**Tableau 1: Caractéristiques générales de la population étudiée. (GMFCS : Gross Motor Functional Classification System ; FD : flexion dorsale)**

\* Mesures réalisées

Couple lors d'une mobilisation articulaire passive dans le secteur  $25^\circ$  de FP-FD maximale. Cette mesure a permis le calcul de la pente de la relation couple-angle au niveau des membres parétique et non-parétique dans trois secteurs de couple passif différents ( $RP_{rel}$ ):

- 30%-100% (Méthode 1)
- 20%-80% (Méthode 2)
- 50%-90% (Méthode 3)

Le calcul de la pente de la relation couple-angle a également été réalisé au niveau du membre non-parétique dans le même secteur angulaire que le membre parétique ( $RP_{abs}$ ) pour chacune des méthodes utilisées.

\* Statistiques

Les coefficients de détermination ( $R^2$ ) de la relation couple-angle ont été déterminés à partir d'une régression linéaire. Comme recommandé par Hopkins, (2000), la reproductibilité inter-session de la RP a été calculée pour chaque méthode utilisée (*i.e.* 30-100%, 20-80%, 50-90%) et pour chaque

membre (*i.e.* membres parétique et non-parétique sur le secteur de couple passif relatif, membre non-parétique sur le secteur angulaire absolu correspondant à celui du membre parétique) par le coefficient de corrélation intra-classe (ICC), l'erreur standard de mesure (ESM) et le coefficient de variation (CV). L'ICC fournit une mesure de reproductibilité relative, évaluant la variation de rang de chaque sujet au sein de l'échantillon lors de mesures répétées (Hopkins, 2000). D'après Fleiss, (1981), une valeur d'ICC>0,75 représente une « excellente » reproductibilité, une valeur d'ICC comprise entre 0,74 et 0,4 correspond à une reproductibilité « modérée », une valeur d'ICC<0,40 représente une « faible » reproductibilité. De la même façon, une faible ESM indique une forte reproductibilité et inversement (Hopkins 2000). Le CV (écart-type/moyenne) correspond au niveau de variation de la mesure lors des mesures répétées. La reproductibilité est considérée comme « bonne » lorsque le CV<10% et « modérée » lorsque le CV est compris entre 10 et 20%. L'ensemble des variables a passé le test de normalité de Kolmogorov-Smirnov et le test de l'égalité de variance de Levene. Un test *t* pairé a été utilisé afin de comparer l'angle de FD maximal entre les membres parétique et non-parétique. Une ANOVA à trois facteurs a été réalisée afin de déterminer l'effet de la méthode de calcul de la pente (*i.e.* méthodes 1, 2 et 3), de la session (*i.e.* 1 ou 2) et du membre testé (*i.e.* parétique, non-parétique et non-parétique sur le secteur angulaire identique au membre parétique) sur la valeur de RP et le coefficient de détermination de la relation couple-angle. Une ANOVA à 2 facteurs a été réalisée pour déterminer l'effet de la méthode de calcul de la pente et du membre testé sur le paramètre de CV. Quand l'ANOVA présentait un résultat significatif, un test post-hoc de Fisher était réalisé. Les données sont présentées sous forme de moyenne (écart-type). Le niveau de significativité statistique était fixé à  $p<0,05$ .



### IV.3 Résultats

L'ensemble des résultats concernant les valeurs de RP est résumé dans le tableau 2.

Reproductibilité inter-session		Moyenne (écart-type)		ICC	CV (%)	ESM (Nm/°)
Méthode	côté	Session 1	Session 2			
Méthode 1	RP <sub>rel</sub> parétique	0,24 (0,09) <sup>Q</sup>	0,26 (0,06) <sup>Q</sup>	0,57	12,41 <sup>Ψ</sup>	0,05
	RP <sub>rel</sub> non-parétique	0,25 (0,05)	0,25 (0,06)	0,84	6,5	0,02
	RP <sub>abs</sub> non-parétique	0,18 (0,003)	0,18 (0,03)	0,93	3,48	0,01
Méthode 2	RP <sub>rel</sub> parétique	0,20 (0,06) <sup>αQ</sup>	0,21 (0,04) <sup>αQ</sup>	0,69	9,72 <sup>Ψ</sup>	0,03
	RP <sub>rel</sub> non-parétique	0,20 (0,03) <sup>α</sup>	0,20 (0,04) <sup>α</sup>	0,86	5,36	0,01
	RP <sub>abs</sub> non-parétique	0,15 (0,02) <sup>α</sup>	0,16 (0,02) <sup>α</sup>	0,83	4,59	0,01
Méthode 3	RP <sub>rel</sub> parétique	0,26 (0,13) <sup>Q</sup>	0,30 (0,11) <sup>Q</sup>	0,6	19,21* <sup>Ψ</sup>	0,07
	RP <sub>rel</sub> non-parétique	0,29 (0,06)	0,30 (0,08)	0,82	9,15*	0,03
	RP <sub>abs</sub> non-parétique	0,19 (0,06)	0,19 (0,04)	0,82	6,84*	0,02

\* CV significativement supérieure par rapport à la méthode 2.

<sup>Ψ</sup> CV significativement supérieure par rapport à RP<sub>rel</sub> non-parétique et RP<sub>abs</sub> non-parétique.

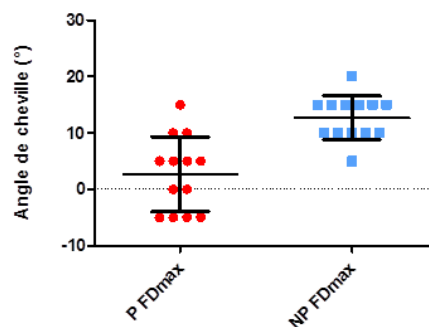
<sup>α</sup> Valeurs de RP significativement inférieures par rapport aux méthodes 1 et 3.

<sup>Q</sup> Valeurs de RP<sub>rel</sub> significativement supérieures au membre parétique par rapport aux valeurs de RP<sub>abs</sub> au niveau du membre non-parétique.

**Tableau 2: Résultats de reproductibilité inter-session des valeurs de RP (Nm/°) au niveau du membre parétique (RP<sub>rel</sub>) et au niveau du membre non-parétique sur son secteur de couple passif relatif (RP<sub>rel</sub>) et son secteur angulaire absolu (RP<sub>abs</sub>), calculées selon trois méthodes différentes. (ICC: coefficient de corrélation intra-classe, CV: coefficient de variation, ESM : erreur standard de mesure).**

#### \* Données cliniques

L'angle de FD maximal de cheville était significativement inférieur au niveau du membre parétique par rapport au membre non-parétique (p<0,0001) (Figure 31).

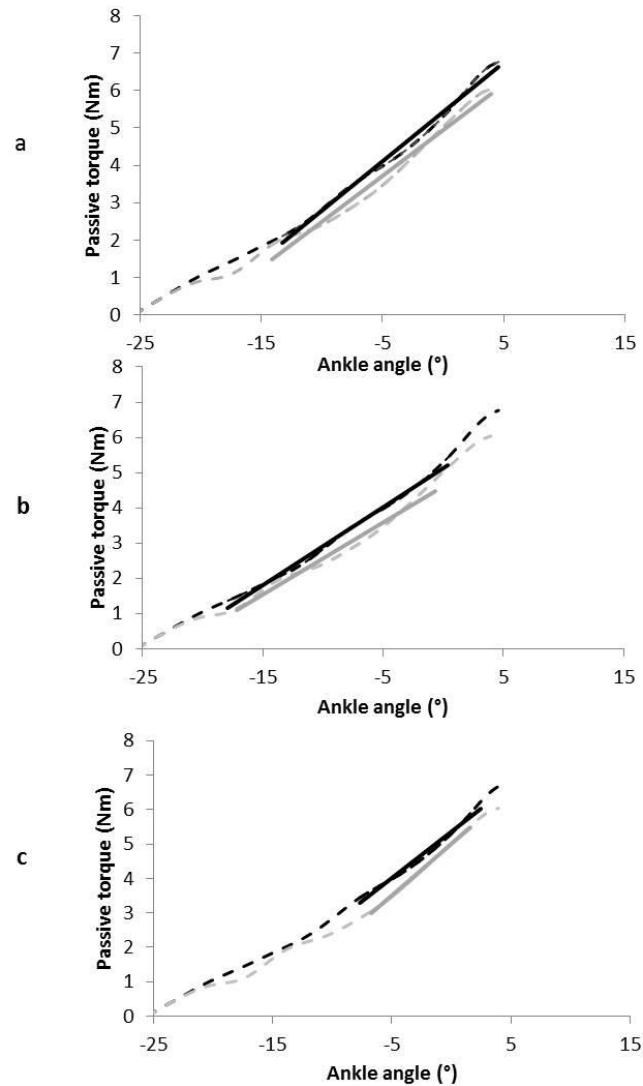


**Figure 31 : Angle de FD maximal de cheville genou tendu au niveau du membre parétique (P) et non-parétique (NP) (valeurs individuelles, moyennes et écart-types).**

#### \* Coefficient de détermination (R<sup>2</sup>)

Considérant le coefficient de détermination de la courbe (R<sup>2</sup>), les analyses statistiques (ANOVA à 3 facteurs) montrent que la méthode 2 présente une valeur supérieure (R<sup>2</sup>=0,96) par rapport à la méthode 3 (R<sup>2</sup>=0,94) (p<0,001) pour le membre parétique. De façon similaire, les méthodes 1 et 2 (R<sup>2</sup>=0,97) présentaient des valeurs supérieures par rapport à la méthode 3 (R<sup>2</sup>=0,94)

pour le membre non-parétique lorsque le calcul était réalisé sur le même secteur articulaire absolu ( $p < 0,001$  et  $0,0001$  respectivement) (Figure 32).



**Figure 32: Relations couple-angle moyennes au niveau du membre parétique établie lors de la première (pointillés noirs) et de la seconde session (pointillés gris). La pente de la courbe est calculée selon trois méthodes différentes correspondant à des secteurs de couple passif maximal; 30-100% (a), 20-80% (b), 50-90% (c) du couple passif maximal. (D'après Boulard et al., 2019b).**

\* Pente de la courbe (RP)

La figure 33 présente les résultats obtenus lors de la première session avec chacune des trois méthodes utilisées pour les membres parétique et non-parétique ( $RP_{rel}$ ) ainsi que pour le membre non-parétique dans le même secteur angulaire que le membre parétique ( $RP_{abs}$ ).

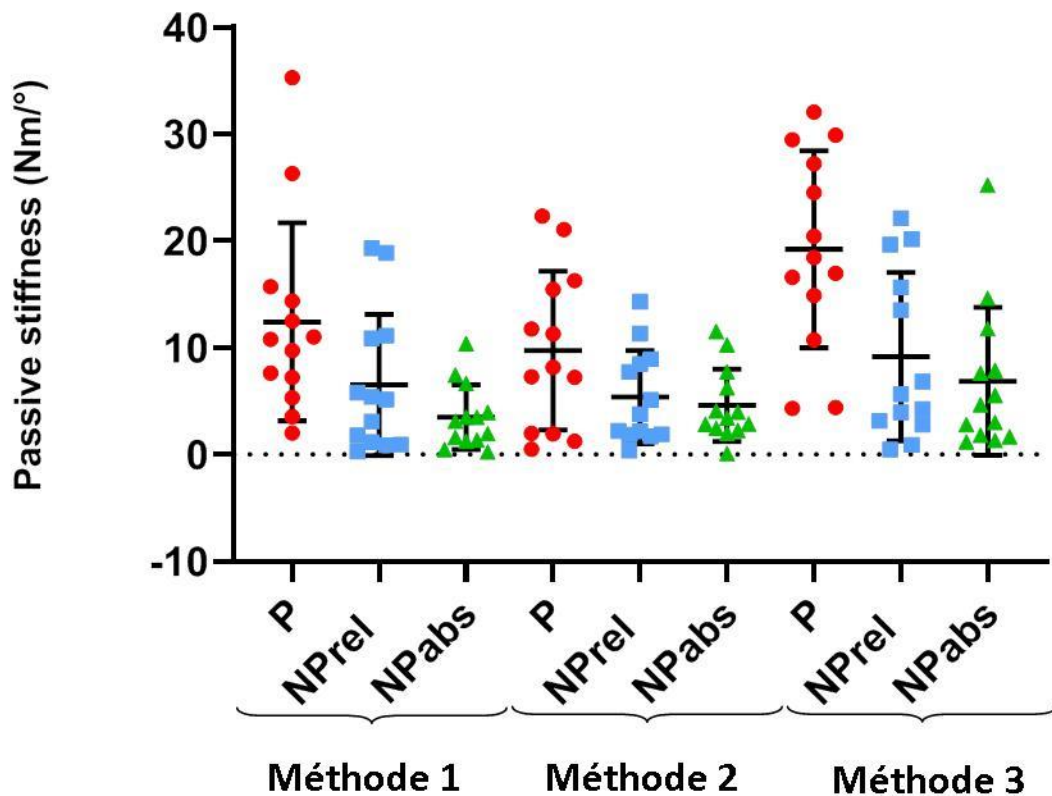


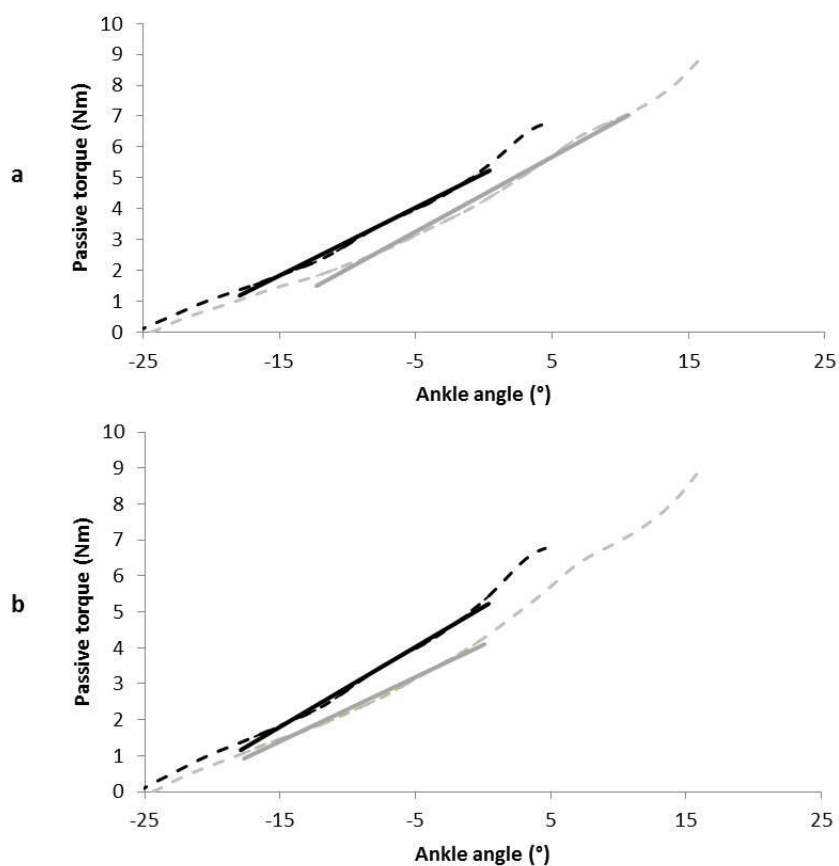
Figure 33 : Raideur passive de l'UMT du Triceps sural calculée dans trois secteurs de couple différents (méthode 1 : 30%-100%; Méthode 2 : 20%-80%; Méthode 3 : 50%-90%) au niveau du membre parétique (P, rouge), non-parétique (NPrel, bleu) et non-parétique dans le même secteur angulaire que le membre parétique (NPabs, vert). (Valeurs individuelles, moyennes et écart-types)

Considérant la valeur de la RP, les analyses statistiques (ANOVA à 3 facteurs) montraient :

- Un effet significatif de la méthode ( $p < 0,0001$ ). Le test post-hoc révélait une valeur significativement inférieure ( $0,19 \text{ Nm/}^\circ$ ) obtenue avec la méthode 2 par rapport aux deux autres méthodes ( $0,23 \text{ Nm/}^\circ$ ,  $p = 0,009$  et  $0,26 \text{ Nm/}^\circ$ ,  $p < 0,0001$  pour les méthodes 1 et 3 respectivement) alors que la différence n'était pas significativement différente entre les méthodes 1 et 3 ( $p = 0,06$ ).

- Une interaction méthode x membre significative ( $p = 0,009$ ). Le test de post-hoc révélait une valeur de  $RP_{\text{abs}}$  significativement supérieure au niveau du membre parétique par rapport au membre non-parétique quelle que soit la méthode utilisée ( $p < 0,001$ ,  $p = 0,007$  et  $p < 0,0001$  avec les méthodes 1, 2 et 3, respectivement) (Figure 34, b). Aucune différence significative de  $RP_{\text{rel}}$  n'a été retrouvée entre les deux membres quelle que soit la méthode utilisée ( $p = 0,69$ ,  $0,86$  et  $0,40$  avec les méthodes 1, 2 et 3, respectivement) (Figure 34, a).

- L'absence d'interaction impliquant le paramètre de session (session x méthodes,  $p = 0,56$  ; sessions x membre x méthodes,  $p = 0,42$ ).



**Figure 34 : Relations couple-angle moyennes au niveau du membre parétique (pointillés noirs) et non-parétique (pointillés gris). La pente de la courbe est calculée selon un secteur de couple maximal passif relatif (20-80%) (a) et un secteur angulaire absolu (secteur identique entre les deux membres) (b).**

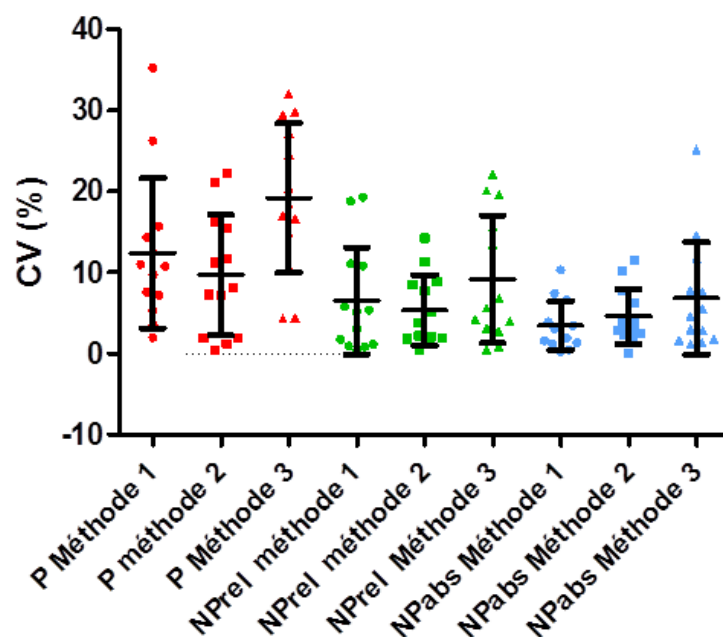
\* Reproductibilité inter-session

Considérant les données de reproductibilité inter-session de la valeur de RP (Tableau 2, Figure 32), les analyses statistiques (ANOVA à 2 facteurs) montraient :

- Un effet significatif de la méthode ( $p=0,001$ ). Les tests de post-hoc révélèrent que les CV étaient significativement supérieures avec la méthode 3 (CV moyen=11,7%) par rapport à la méthode 2 (CV moyen=6,6%) ( $p=0,03$ ) et de façon non-significative par rapport à la méthode 1 (CV moyen=7,5%) ( $p=0,07$ ). Les CV n'étaient pas significativement différents entre les méthodes 1 et 2 ( $p=0,69$ ) (Figure 34).

- Un effet significatif du membre testé ( $p<0,001$ ). Le membre parétique présentait des valeurs de CV (CV moyen=13,8%) significativement supérieures par rapport au membre non-parétique (CV moyen  $RP_{rel}$  =7%,  $p=0,04$ ; CV moyen  $RP_{abs}$  =5%,  $p=0,01$ ). Il n'y avait pas de différence significative entre les valeurs calculées au niveau du membre non-parétique (CV  $RP_{rel}$  et  $RP_{abs}$ ,  $p=0,53$ ) (Figure 35).

- L'absence d'interaction significative méthode x membre testé ( $p=0,08$ ).



**Figure 35 :** CV inter-session de la valeur de RP calculée dans trois secteurs de couple différents (30%-100%, ronds ; 20%-80%, carrés ; 50%-90%, triangles) au niveau du membre parétique (P, rouge), non-parétique (NPrel, vert) et non-parétique dans le même secteur angulaire que le membre parétique (NPabs, bleu). (Valeurs individuelles, moyennes et écart-types)

#### IV.4 Discussion

Les résultats de cette étude confirment que les valeurs de RP et leur reproductibilité inter-session sont influencées par la méthode de traitement des données. La fidélité des méthodes 1 (*i.e.* 30%-100% du couple passif maximal) et 2 (*i.e.* 20%-80%) au modèle linéaire apparaît supérieure à celle de la méthode 3 (*i.e.* 50%-90%) ( $R^2=0,97$  pour les méthodes 1 et 2 et  $0,94$  pour la méthode 3). En outre, la reproductibilité inter-session de la méthode 3 pour le membre parétique (CV= 19,2% et ICC=0,6) est significativement inférieure aux deux autres (valeurs moyennes CV=7,5% et ICC=0,78 ; CV=6,6% et ICC=0,79 pour les méthodes 1 et 2 respectivement). Les valeurs de RP de l'UMT du Triceps sural obtenues à l'aide de la méthode 2 (valeurs moyennes=0,19 Nm/°) sont ainsi significativement inférieures à celles retrouvées avec les deux autres méthodes (valeurs moyennes=0,23 Nm/°,  $p=0,009$  et 0,26 Nm/°,  $p<0,0001$  respectivement pour les méthodes 1 et 3). Ce résultat peut être expliqué par l'occultation de la partie finale de la relation couple-angle (80%-100%) qui permet d'éviter la contribution des éléments élastiques passifs (*e.g.* peau, ligaments, tissu de soutien...) (Abellaneda et al., 2009). Les valeurs de RP obtenues à l'aide de la méthode 2 pourraient ainsi être plus spécifiques de la contribution du tissu musculaire que les deux autres méthodes. En outre, il a été décrit chez le sujet adulte sain une augmentation significative de l'activité EMG des muscles fléchisseurs plantaires au-delà de 80% du couple passif maximal, suggérant l'exclusion de la portion finale de la relation couple-angle dans le traitement des données (McNair et al., 2001). Au final, cette étude suggère de privilégier le calcul de la pente de la relation couple-angle sur le secteur 20%-80% (méthode 2) du couple passif maximal plutôt que sur les secteurs 30%-100%

(méthode 1) et 50%-90% (méthode 3). Il semble néanmoins possible d'optimiser la méthodologie en choisissant le slack angle comme limite inférieure du secteur articulaire à utiliser pour le traitement des données et ainsi rendre la mesure de RP plus spécifique des caractéristiques de chaque sujet. Ce paramètre a été calculé à partir d'une mesure dynamométrique chez l'adolescent PC par Barber et al., (2011). Nous n'avons pu l'inclure dans nos analyses du fait d'un manque d'expertise dans la procédure à mettre en œuvre.

Les résultats de cette étude montrent que la mesure de la RP de l'UMT du Triceps sural était reproductible d'une session à l'autre chez l'enfant PC. A notre connaissance, une seule étude avait rapporté un résultat similaire chez l'enfant PC (Boiteau et al., 1995). De la même façon que chez le sujet adulte hémiplégique vasculaire (Harlaar et al., 2000), la reproductibilité au niveau du membre parétique serait inférieure par rapport au membre non-parétique, malgré l'absence d'activation musculaire réflexe. Ce résultat peut être expliqué en partie par la variabilité accrue de la mesure de RP chez le sujet PC par rapport au sujet sain (Ross et al., 2011). La reproductibilité inter-session de la mesure de RP est un résultat important car elle permet d'envisager son application clinique à des fins de suivi et d'évaluation des traitements.

Les résultats de cette étude ne montrent par ailleurs aucune différence significative de  $RP_{rel}$  entre les membres parétique et non-parétique. Ce résultat est en accord avec ceux rapportés par Kruse et al., (2017) qui ne retrouvent aucune différence de  $RP_{rel}$  de l'UMT du Triceps sural calculée avec la méthode 3 (50%-90%) entre des enfants PC spastiques (âge moyen : 11,9 ans ; GMFCS I-II) et des sujets contrôles. A l'inverse, d'autres auteurs ont rapporté des valeurs significativement supérieures de  $RP_{rel}$  chez des sujets PC spastiques d'âges différents *{i.e. moins de 27 mois, (Willerslev-Olsen et al., 2018); 3 ans, (Willerslev-Olsen et al., 2013), 15 ans, (de Gooijer-van de Groep et al., 2013); 18 ans, (Barber et al., 2011)}* par rapport aux sujets contrôles. Au-delà des différences des caractéristiques intrinsèques des sujets entre les études (*i.e. âge, niveau fonctionnel...*) qui peuvent influencer fortement sur les valeurs mesurées, l'absence de différence de  $RP_{rel}$  malgré une différence significative de FD maximale entre les deux membres peut s'expliquer par le caractère « non-sain » du membre non-parétique (Wiley and Damiano, 1998).

De façon similaire, aucune différence de RP de l'UMT du Triceps sural entre les membres parétique et non-parétique n'a été rapportée chez l'adulte présentant une hémiplégie vasculaire alors que le membre parétique présentait des valeurs significativement supérieures par rapport aux sujets contrôles (Freire et al., 2017). Nos résultats pourraient ainsi confirmer l'altération de paramètres échographiques quantitatifs (*i.e. écho-intensité et écho-pattern*) observée au niveau des muscles GM des deux membres chez l'enfant PCU spastique par rapport aux enfants contrôles, sans qu'aucune différence n'ait été retrouvée entre les membres parétique et non-parétique (Obst et al., 2017).

Pour compléter l'analyse de la RP chez le sujet PCU et comparer les deux membres parétique et non-parétique, nous avons proposé de calculer la RP sur un secteur angulaire absolu (*i.e. en référence à celui déterminé pour le membre parétique,  $RP_{abs}$* ), en complément de la mesure de la  $RP_{rel}$

(*i.e.* décrite ci-dessus, méthode 2). Cette méthode peut-être critiquable dans le sens où elle conduit à comparer le paramètre de RP calculé sur deux portions de courbe différentes entre deux membres présentant une différence significative d'angle de FD maximal (Ross et al., 2011). Néanmoins, en l'absence de différence de  $RP_{rel}$ , il nous a semblé qu'il s'agissait d'un bon moyen d'objectiver et de quantifier l'augmentation de la résistance ressentie par le clinicien lors de l'étirement des muscles fléchisseurs plantaires au niveau du membre parétique de l'enfant PCU. Les résultats montrent alors une augmentation significative des valeurs de  $RP_{abs}$  au niveau du membre parétique par rapport au membre non-parétique (37%, 28% et 45% pour les méthodes 1, 2 et 3 respectivement). La différence de  $RP_{abs}$  entre les deux membres peut s'expliquer par un décalage vers la gauche de la courbe couple-angle pour le membre parétique qui peut être en lien avec l'altération des propriétés musculaires morphologiques rapportée chez l'enfant PCU (*i.e.* diminution de longueur des muscles gastrocnémiens, augmentation de longueur du TA; Malaiya et al., 2007; Mohagheghi et al., 2007). D'autres études doivent néanmoins confirmer ce résultat.

#### **IV.5 Conclusion**

Cette étude a montré que la méthode 2 (*i.e.* calcul de la pente de la relation couple-angle sur le secteur 20%-80% du couple passif maximal) présentait une meilleure reproductibilité inter-session de la mesure de RP et un coefficient de détermination de la relation couple-angle supérieur par rapport à la méthode 3. Les valeurs de RP obtenues avec la méthode 2 étaient significativement inférieures par rapport aux deux autres méthodes, suggérant une moindre influence des éléments passifs non musculaires intervenant en toute fin d'amplitude (ligaments, tissu de soutien, capsule articulaire...) et un meilleur reflet des caractéristiques mécaniques du muscle (*i.e.* gastrocnémien). Ces résultats suggèrent une utilisation privilégiée de la méthode 2 lors du calcul de la RP de l'UMT du Triceps sural chez l'enfant PCU. Bien que « non-sain », le membre non-parétique peut être utilisé en tant que membre contrôle lorsque le calcul de la RP s'effectue sur le même secteur articulaire que le membre parétique ( $RP_{abs}$ ). Dans cette condition, la mesure réalisée de  $RP_{abs}$  pourrait alors objectiver l'augmentation de la résistance ressentie par le clinicien lors de l'évaluation de l'angle de FD maximal passif de cheville du membre parétique par rapport au membre non-parétique.

# V. Contribution # 3 à l'avancée des connaissances - Mesures biomécaniques et élastographiques de la raideur passive

## V.1 Contexte général et objectifs

Les résultats de l'étude précédente montrent que l'analyse de la mesure de la RP de l'UMT du muscle Triceps sural est conditionnée par la méthode utilisée pour la calculer. Chez l'enfant PCU, l'absence de différence de  $RP_{rel}$  de l'UMT du Triceps sural entre les membres parétique et non-parétique suggère l'absence de différence de propriétés élastiques entre les deux membres malgré un déficit d'amplitude articulaire de FD fréquent du côté parétique. Lorsque le paramètre de RP est calculé sur le même secteur articulaire absolu entre les deux membres (secteur articulaire du membre parétique), la mise en évidence d'une augmentation de la  $RP_{abs}$  au sein du membre parétique comparé au membre non-parétique pourrait être selon certaines données liée à un raccourcissement des muscles fléchisseurs plantaires du côté parétique (Barrett and Lichtwark, 2010; Malaiya et al., 2007; Mohagheghi et al., 2007). Nous avons précédemment étayé l'hypothèse selon laquelle la diminution de longueur des muscles fléchisseurs plantaires pouvait être un facteur confondant concernant la mesure de la RP (cf. II.4.2 et II.4.3). Or, le couple passif enregistré par le dynamomètre lors de la mobilisation articulaire de la cheville dans le secteur de FD résulte de la résistance produite par l'ensemble des structures anatomiques (musculo-tendineuses, capsulaires, ligamentaires,...) sans qu'il soit possible de distinguer la contribution de chacune. L'émergence de la technologie SWE permet depuis plusieurs années d'étudier spécifiquement le niveau de tension passive d'un muscle superficiel, tel que les gastrocnémiens. A ce jour, les mesures SWE ont été réalisées au sein des muscles gastrocnémiens uniquement à un angle fixe de cheville chez l'enfant PCU (Lee et al., 2016) et PCB (Brandenburg et al., 2016), entraînant ainsi l'impossibilité de calculer le paramètre de RP tel que décrit précédemment (cf. II.1) par le biais de la relation module de cisaillement-angle de cheville. Par ailleurs, au-delà de l'évaluation du niveau de tension passive spécifique d'un muscle tel que les gastrocnémiens, la technologie SWE permet d'identifier le slack angle (Hug et al., 2013; Le Sant et al., 2019b), paramètre qui fournit des informations complémentaires sur les propriétés passives d'un muscle.

Considérant que les propriétés élastiques du muscle parétique étaient altérées par rapport au membre non-parétique, l'objectif de cette étude était de caractériser les propriétés élastiques du muscle GM lors de son allongement passif à l'aide de la technologie SWE. La mesure de la tension passive du muscle GM était couplée à l'enregistrement du couple passif lors du mouvement de FD. Parallèlement, les longueurs du muscle GM et du TA ont été mesurées à angle fixe (*i.e.*  $-30^\circ$  de flexion plantaire) à partir d'une méthode couplant repérage échographique et mesures externes.



## V.2 Population et statistiques

### \* Participants

Les caractéristiques générales de la population sont présentées dans le tableau 3. 11 enfants PCU spastiques ont été recrutés pour cette étude. Les critères d'inclusions comprenaient (1) un diagnostic de PCU spastique, (2) un âge compris entre 5 et 12 ans, (3) la capacité de suivre des consignes, (4) l'absence d'injections de toxine botulique ou de plâtres d'allongement dans les trois mois précédant l'évaluation, (5) l'absence de flessum de genou  $> 5^\circ$ . Les enfants étaient exclus en cas d'antécédents de chirurgie des membres inférieurs.

n	11
Sexe (Garçon/Fille)	5/6
Côté parétique (droit/gauche)	6/5
Taille (cm)	148,4 (11,83)
Poids (kg)	38,7 (12,5)
Age (Années)	11,1 (1,74)
GMFCS, n	I; n=11
Echelle d'Ashworth Modifiée	1,75
Echelle de Boyd	1,71
Angle de FD maximal côté parétique ( $^\circ$ )	10,9 (7,4)
Angle de FD maximal côté non-parétique ( $^\circ$ )	16,9 (6,4)
Longueur tibia côté parétique (cm)	34,6 (5,2)
Longueur tibia côté non-parétique (cm)	36 (5,2)
Nombre injections de toxine botulique	6,8 (3,6)
Attelle de nuit (oui/non)	10/2
Attelle de marche (oui/non)	10/2

**Tableau 3: Caractéristiques générales de la population étudiée. (GMFCS : Gross Motor Functional Classification System ; FD : flexion dorsale)**

### \* Mesures réalisées

- **Angle de FD maximal** mesuré de façon instrumentale sur le dynamomètre isocinétique correspondant à l'angle où le sujet manifeste une sensation d'inconfort maximal.
- **Longueurs de l'UMT du Triceps sural, du corps musculaire du muscle GM et du TA** par échographie 2D et mesures externes, cheville positionnée à  $30^\circ$  de FP.
- **Couple passif** lors d'une mobilisation articulaire dans le secteur  $30^\circ$  de FP-FD maximale. Cette mesure a permis le calcul de la pente de la relation couple-angle au niveau des membres parétique et non-parétique dans le secteur de couple 20%-80% ( $RP_{rel}$ ) et au niveau du membre non-parétique dans le même secteur angulaire que le membre parétique ( $RP_{abs}$ ).
- **Module de cisaillement** lors d'une mobilisation articulaire passive dans le secteur  $30^\circ$  de FP-FD maximale. Cette mesure a permis de déterminer le slack angle au niveau des membres parétique et non-parétique et de modéliser la relation module de cisaillement-angle articulaire à partir d'une équation exponentielle ( $y=ae^{kx}$ ).

\* Statistiques

La distribution de chaque variable a été analysée avec le test de normalité de Kolmogorov-Smirnov. Un test  $t$  pairé a été utilisé pour comparer tous les paramètres mesurés entre les deux membres. La taille de l'effet était estimée à l'aide du coefficient  $d$  de Cohen et les valeurs  $d=0,2$  ;  $0,5$  et  $0,8$  étaient respectivement interprétées comme faible, modérée et forte (Cohen, 1969). Les données sont présentées sous forme de moyenne (écart-type). Le seuil de significativité statistique a été fixé à  $p<0,05$ .

### V.3 Résultats

\* Données cliniques

L'amplitude maximale de FD de cheville était significativement diminuée au niveau du membre parétique par rapport au membre non-parétique ( $10,9^\circ$  (7,4) vs  $16,9^\circ$  (6,4), respectivement;  $p=0,002$ ,  $d=0,91$ ) alors que le couple passif maximal enregistré à cette amplitude n'était pas significativement différent entre les deux membres ( $10,6\text{Nm}$  (4,7) vs  $11,5\text{Nm}$  (4,7) pour les membres parétique et non-parétique, respectivement;  $p=0,49$ ).

\* Données morphologiques

Du fait d'un problème technique lors de l'acquisition des données, les mesures échographiques de la longueur du muscle GM et du TA n'ont pu être réalisées chez un sujet. Les mesures pour les 10 autres sujets ont été normalisées par rapport à la longueur du tibia et sont donc présentées en pourcentage. Aucune différence de longueur de l'UMT n'a été retrouvée entre les deux membres [ $96,9\%$  (11,3) vs  $95,5\%$  (9,1) pour les membres parétique et non-parétique, respectivement;  $p=0,2$ ] alors que le membre parétique présentait une longueur de TA significativement augmentée [ $46,5\%$  (8) vs  $42,7\%$  (7);  $p=0,002$ ,  $d=0,53$ ] et une tendance à une diminution de la longueur du corps musculaire du muscle GM ( $50,4\%$  (8) vs  $52,9\%$  (6,6);  $p=0,05$ ,  $d=0,35$ ] par rapport au membre non-parétique.

\* Données biomécaniques

Aucune différence de  $RP_{\text{rel}}$  n'a été retrouvée entre les deux membres [ $0,28$  (0,14)  $\text{Nm}/^\circ$  vs  $0,25$  (0,08)  $\text{Nm}/^\circ$  pour les membres parétique et non-parétique, respectivement;  $p=0,39$ ] alors que la  $RP_{\text{abs}}$  était significativement supérieure au niveau du membre parétique par rapport au membre non-parétique [ $0,28$  (0,14)  $\text{Nm}/^\circ$  vs  $0,17$  (0,06)  $\text{Nm}/^\circ$ , respectivement;  $p=0,01$ ,  $d=1,01$ ] (Figures 36 et 37).

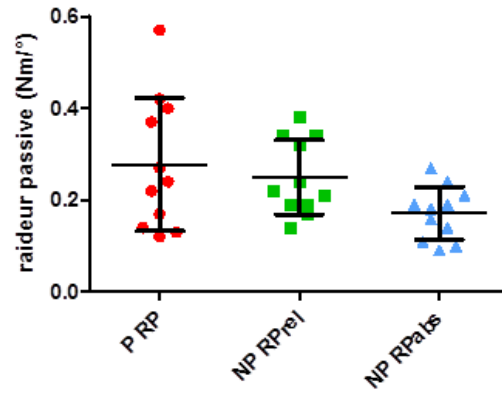


Figure 36 : Valeurs de RP calculées au niveau des membres parétique (P RP, rouge), non-parétique (NP RPrel, vert) et non-parétique dans le même secteur angulaire que le membre parétique (NP RPabs, bleu). (Valeurs individuelles, moyennes et écart-types)

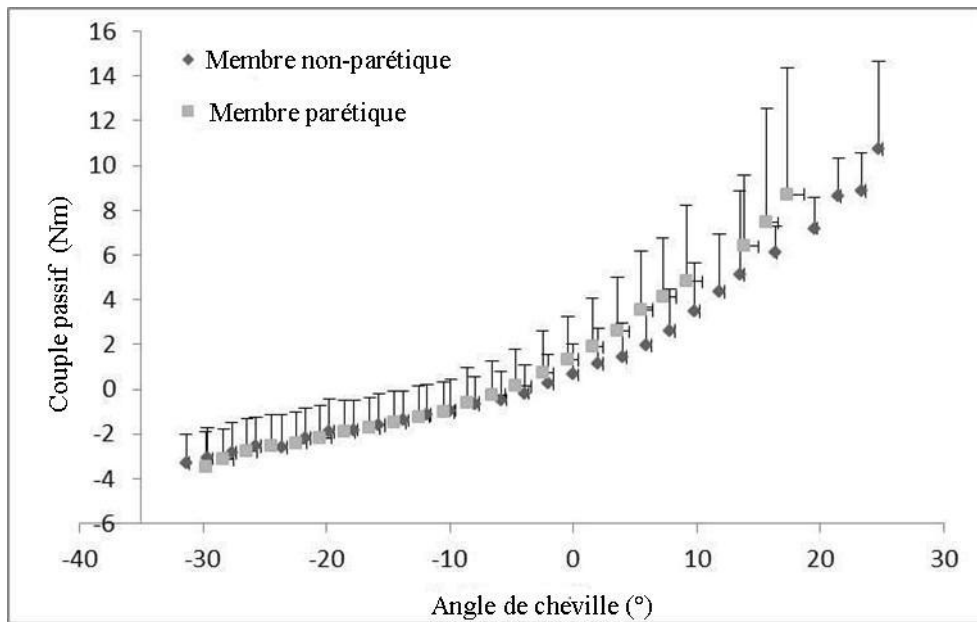


Figure 37: Relations couple-angle moyennes et écart-types pour l'ensemble des sujets (n=11) au niveau des membres parétique et non-parétique.

\* Données SWE

L'ensemble des mesures SWE est présenté au sein du tableau 4 et de la figure 38.

	Non-parétique	Parétique	<i>p</i>
GM slack angle (°)	-13,9 (7,2)	-17,5 (6,3)	<b>0,04</b>
GM $\mu$ à slack angle (kPa)	29,7 (9,6)	37,7 (14,5)	0,07
GM $\mu$ à FD Max (kPa)	183,3 (83)	179,4 (87,9)	0,9
GM $\mu$ au même angle (kPa)	114,6 (59,4)	179,4 (87,9)	<b>0,02</b>
GM $\mu$ à partir du slack angle (kPa)	134,3 (78,4)	153,4 (53,2)	0,4
( <i>k</i> ) : coefficient équation exponentielle GM $\mu$ - angle	0,059 (0,01)	0,056 (0,01)	0,62

Tableau 4: Résultats concernant les mesures SWE réalisées au sein du muscle GM entre les membres parétique et non-parétique. ( $\mu$ = module de cisaillement)

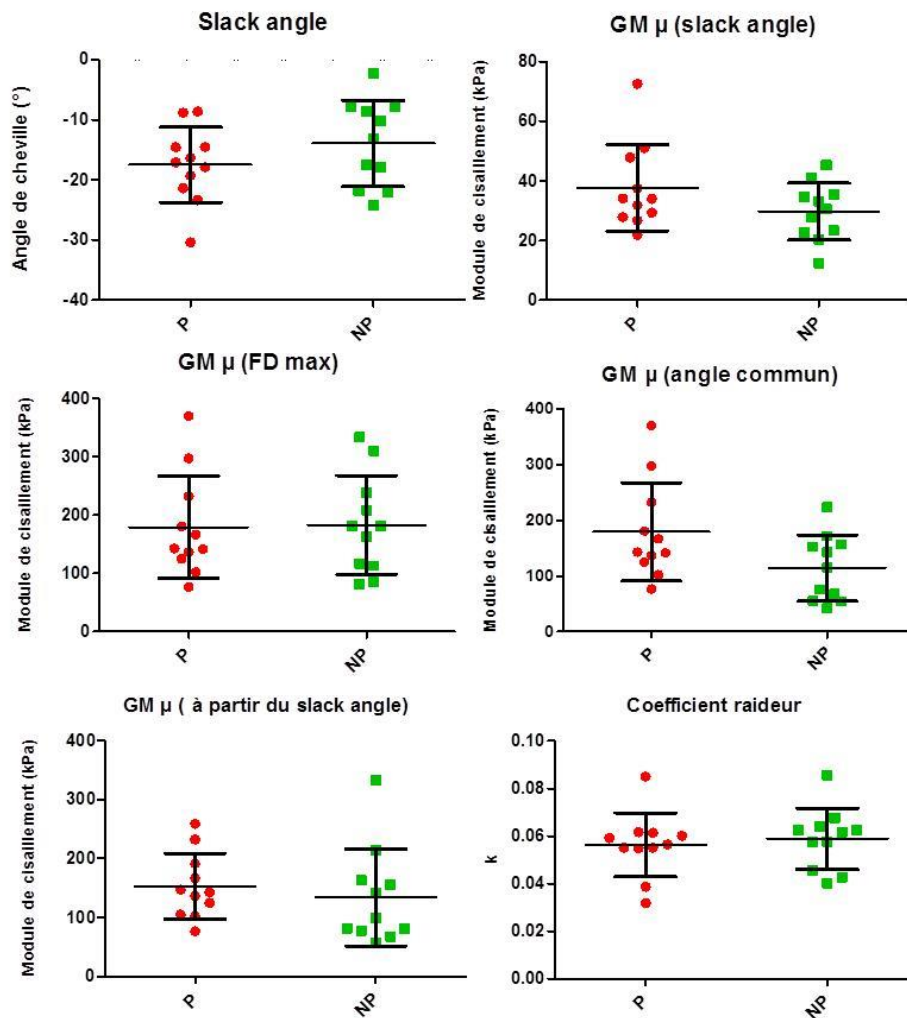
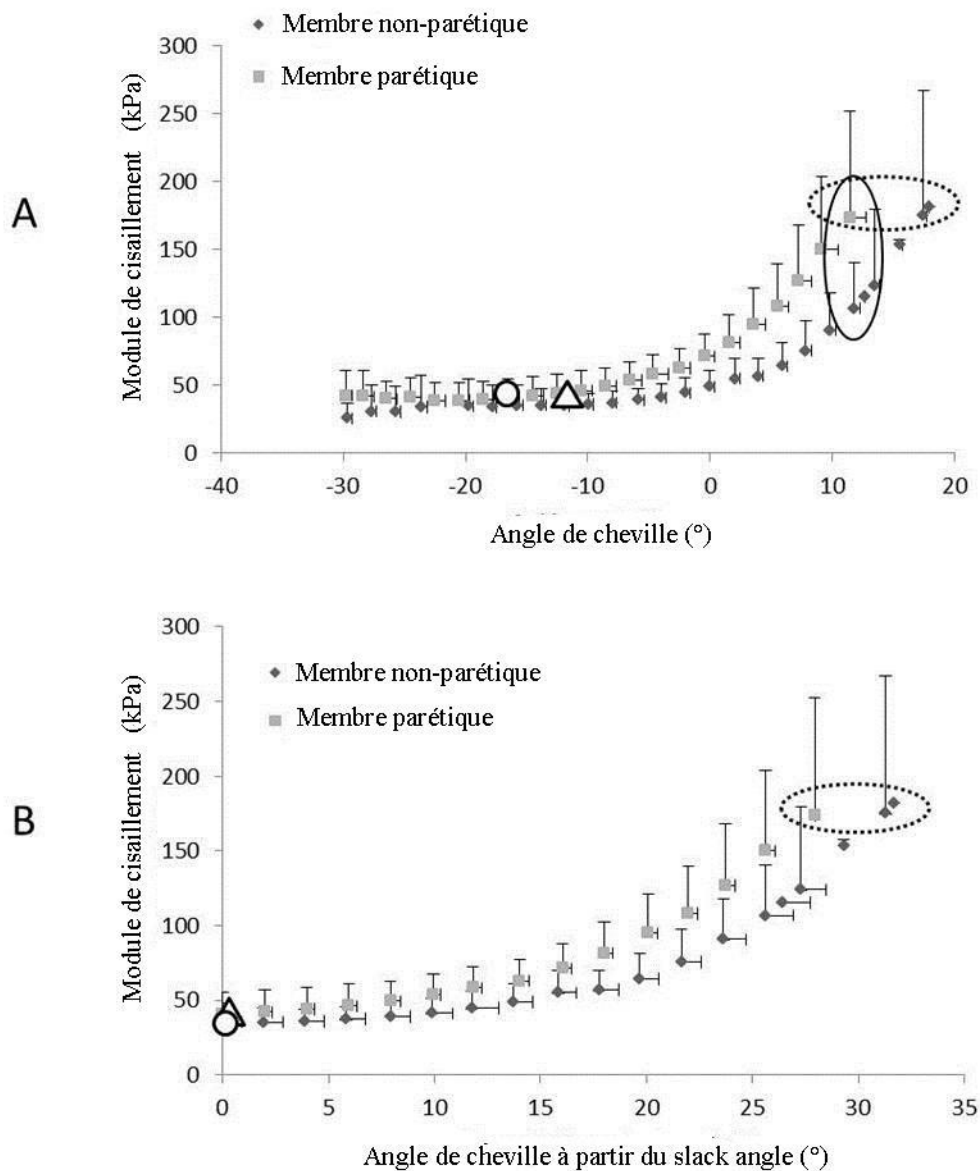


Figure 38 : Données SWE au niveau des membres parétique (P, rouge) et non-parétique (NP, vert). (Valeurs individuelles, moyennes et écart-types)

Concernant la valeur du module de cisaillement, aucune différence significative n'a été retrouvée entre les deux membres à l'angle de FD maximal ( $p=0,5$ ) (Figure 39A) alors qu'une valeur significativement supérieure était retrouvée au niveau du muscle GM parétique à l'angle de FD maximal commun aux deux membres (*i.e.* angle de FD maximal côté parétique, Figure 39A) ( $p=0,02$ ,  $d=0,91$ ). Le slack angle du muscle GM parétique est observé à un angle de FP significativement supérieur par rapport au muscle GM non-parétique ( $p=0,04$ ,  $d=0,55$ ) (Figure 39A). En prenant en compte cette différence, le module de cisaillement obtenu à l'angle de FD maximal commun aux deux membres à partir du slack angle n'était pas différent entre les deux membres (Figure 39B) ( $p=0,4$ ).

La courbe représentant la relation module de cisaillement-angle articulaire était bien modélisée par l'équation exponentielle [ $R^2=0,96$  (0,03) et 0,96 (0,02) pour les membres parétique et non-parétique, respectivement] (Figure 39A et B). Aucune différence significative entre les deux membres n'a été retrouvée concernant le paramètre de RP ( $k$ ) ( $p=0,62$ ).

La courbe représentant la relation module de cisaillement-couple passif était bien modélisée par la régression linéaire [ $R^2=0,97$  (0,04) et 0,96 (0,02) pour les membres parétique et non-parétique, respectivement]. Aucune différence significative entre les deux membres n'a été retrouvée concernant la pente de la régression linéaire [17,6 (9) et 16,2 (4,8) kPa/Nm pour les membres parétique et non-parétique respectivement,  $p=0,64$ ].



**Figure 39: Relations module de cisaillement-angle de cheville moyennes et écart-types (n=11) de -30° de FP de cheville à l'angle de FD maximal (A) et depuis le slack angle (B) durant le mouvement de FD passif pour les membres parétique et non-parétique. Le slack angle moyen est présenté pour chaque membre (cercles et triangles blancs pour les membres parétique et non-parétique, respectivement). La comparaison du module de cisaillement entre les deux membres à un angle commun de cheville (*i.e.* angle de FD maximal au niveau du membre parétique) est illustrée par l'ellipse en trait plein, à l'angle maximal de FD de cheville par l'ellipse en pointillés (A), et à l'angle maximal de FD de cheville depuis le slack angle par une ellipse en pointillés (B).**

#### V.4 Discussion

Cette étude rapporte pour la première fois chez l'enfant PC spastique un enregistrement continu du module de cisaillement du muscle GM lors d'une mobilisation passive sur l'ensemble du cycle articulaire de cheville. Lee et al., (2016) ont les premiers rapporté des valeurs de module de cisaillement du muscle GM mesurées à différents angles statiques (*i.e.* angle neutre, FP et FD

maximale et deux angles intermédiaires) chez l'enfant PCU spastique. L'enregistrement continu des valeurs de module de cisaillement permet d'éviter un possible effet de relaxation musculaire lors des positionnements statiques prolongés et ainsi de mieux refléter la physiologie musculaire lors du mouvement passif. En accord avec les résultats rapportés par Lee et al., (2016), nous avons observé :

- L'absence de différence significative du module de cisaillement mesuré à l'amplitude maximale de FD (-2,1% côté parétique,  $p=0,9$ ) malgré une différence significative entre les deux membres de l'angle de FD maximal (-35,5% côté parétique,  $p=0,002$ ).
- Une augmentation significative du module de cisaillement au niveau du membre parétique mesuré à un angle commun entre les deux membres (*i.e.* angle de FD maximal côté parétique) (+56,5% côté parétique,  $p=0,02$ ).

Ces résultats suggèrent l'absence de différences significatives entre les deux membres concernant les propriétés élastiques du muscle GM de l'enfant PCU spastique mais un décalage de la relation module de cisaillement-angle articulaire de cheville vers le secteur de flexion plantaire au niveau du membre parétique. Ce constat est renforcé par d'autres résultats émanant de l'analyse des données de cette étude.

Nous avons ainsi observé des valeurs de slack angle significativement décalées vers le secteur de flexion plantaire au niveau du membre parétique par rapport au membre non-parétique pour 9 des 11 sujets inclus (-3,6° côté parétique,  $p=0,04$ ). Cependant, en prenant en compte cette différence de slack angle entre les deux membres, leurs valeurs du module de cisaillement du muscle GM n'étaient pas significativement différentes (+14% côté parétique,  $p=0,4$  ; Tableau 4). A ce jour, ces données de slack angle issues de l'enregistrement continu du module de cisaillement durant l'ensemble du cycle articulaire de cheville n'ont pas été décrites dans la littérature chez l'enfant PC. Il est cependant possible de considérer ces résultats en lien avec un raccourcissement des muscles gastrocnémiens en position de repos (Malaiya et al., 2007; Mohagheghi et al., 2007). Concernant cette hypothèse de raccourcissement musculaire, le niveau maximal de tension passive du muscle GM serait alors atteint dans une position plus précoce de FP-FD de cheville. Les mesures échographiques 2D réalisées à l'angle fixe de -30° de FP-allongement significatif du TA (+3,8%,  $p=0,002$ ) et un raccourcissement non significatif du muscle GM (-2,5%,  $p=0,05$ ) côté parétique- semblent corroborer cette explication. L'ensemble des résultats issus des mesures SWE sont en accord avec ceux retrouvés à l'aide de mesures similaires chez le sujet adulte hémiplegique vasculaire par comparaison avec des sujets contrôles (Le Sant et al., 2019b).

Enfin, l'absence de différence entre les deux membres concernant le coefficient  $k$  de l'équation exponentielle modélisant la relation module de cisaillement-angle de cheville illustre une forme similaire de la courbe (du slack angle à l'amplitude de FD maximale) et constitue ainsi un argument complémentaire en faveur de l'absence de différence de propriétés élastiques passives du muscle GM entre les deux membres. Ce résultat peut être rapproché de ceux de l'étude de Brandenburg et al., (2016) rapportant un taux d'augmentation similaire du module de cisaillement du muscle

gastrocnémien latéral lors de son allongement (*i.e.* lors de trois positionnements statiques successifs : -20°, -10° et 0° de FP) entre des enfants PCB et contrôles, malgré des valeurs systématiquement supérieures chez les sujets PC.

Une augmentation de la RP du muscle GM chez le sujet PC spastique (*i.e.* GMFCS I-II, (Kruse et al., 2017) ; GMFCS III-IV, (Theis et al., 2016a)) par rapport à des sujets contrôles a été rapportée dans la littérature à partir de mesures combinant des enregistrements biomécaniques (*i.e.* couple passif) et échographiques. Nos résultats, montrant à partir de données SWE l'absence de différence de propriétés élastiques passives du muscle GM entre les membres parétique et non-parétique, peuvent s'expliquer par le caractère « non-sain » du muscle GM non-parétique (Obst et al., 2017), déjà évoqué précédemment (Contribution # 2 ; Boulard et al., 2019b)..

Les résultats concernant les paramètres de  $RP_{rel}$  et  $RP_{abs}$  de l'UMT du muscle Triceps Sural issus de cette contribution # 3 corroborent ceux présentés lors de la précédente étude (contribution # 2). Nous ne revenons pas dans ce paragraphe sur les éléments de discussion permettant d'interpréter ces résultats (cf. paragraphe IV.4).

## V.5 Conclusion

Chez l'enfant PCU, les résultats de cette étude montrent au niveau du membre parétique par rapport au membre non-parétique que la diminution de l'angle de FD maximal de cheville est associée à l'augmentation de la  $RP_{abs}$  de l'UMT du Triceps sural et de la tension passive à un angle commun (*i.e.* angle de FD maximal passif du membre parétique) du muscle GM. L'absence de différence significative de  $RP_{rel}$  concernant l'UMT du Triceps sural et de RP (*i.e.* paramètre  $k$ ) du muscle GM combinée au décalage du slack angle à une position de FP majorée suggère que les résultats retrouvés pourraient être liés à la diminution de longueur des muscles fléchisseurs plantaires plutôt qu'à une différence significative des propriétés musculaires structurelles (*i.e.* paramètres histologiques à l'échelle microscopique) entre les deux membres. Les mesures échographiques montrant une tendance à une diminution de longueur du corps musculaire du GM et une augmentation significative de la longueur du TA semblent corroborées cette hypothèse. Les résultats de cette étude confirment que les mesures SWE fournissent une mesure valide du niveau de tension passive au sein du muscle parétique et spastique de l'enfant PC. L'utilisation de la technologie SWE, combinée à l'évaluation des propriétés morphologiques à l'aide de l'échographie 2D, offrirait ainsi la possibilité d'étudier l'altération des propriétés musculaires intervenant au cours de la croissance de l'enfant PC spastique.



# **VI. Contributions # 4 et 5 à l'avancée des connaissances - Application aux étirements musculotendineux passifs.**

## **VI.1 Contribution # 4 : effets immédiats d'une session d'étirement**

### **VI.1.1 Contexte général et objectifs**

Les techniques d'étirements passifs sont quotidiennement utilisées auprès des enfants PC spastiques afin de prévenir le développement des rétractions et l'apparition d'un schéma de marche en équin au cours de la croissance. Néanmoins, les effets de ces techniques restent encore largement débattus dans la littérature et aucun consensus n'existe concernant leurs modalités d'applications (Harvey et al., 2017; Pin et al., 2006; Wiart et al., 2008). L'efficacité des techniques d'étirement sur le gain d'amplitude articulaire apparaît particulièrement controversée. Les données de la littérature rapportent un gain d'amplitude articulaire de FD maximale de cheville de 10° environ après une session d'étirement manuel (Kalkman et al., 2018b; Theis et al., 2013) alors qu'un programme de plusieurs semaines peut conduire à un gain de seulement 3° (Theis et al., 2015). Le gain d'amplitude articulaire peut s'accompagner d'un allongement des fascicules et du corps musculaire du GM (Kalkman et al., 2018b; Theis et al., 2013) ainsi que du TA (Theis et al., 2013). Néanmoins, il a été rapporté chez l'enfant PC par rapport à l'enfant sain une diminution de la part d'allongement du corps musculaire du GM au profit du TA au cours de l'étirement (Kalkman et al., 2018a). Ce déficit d'extensibilité du muscle GM peut être lié à l'augmentation du ratio de RP (muscle GM/ TA) constatée chez l'enfant PC par rapport à l'enfant sain (Theis et al., 2016). Selon certaines données de la littérature, sous l'effet de l'étirement imprimé par le thérapeute ou le dynamomètre, le muscle GM opposerait une résistance trop importante pour permettre un gain de longueur suffisant, diminuant ainsi les effets potentiels de l'étirement passif. Il est rapporté un allongement supérieur du TA par rapport au corps musculaire du GM à la suite d'une simple session d'étirement (Theis et al., 2013) et une augmentation significative de la longueur du TA en présence de muscles gastrocnémiens rétractés (Wren et al., 2010). En conséquence, la capacité des techniques d'étirements passifs à favoriser l'allongement musculaire avec pour effet la prévention des rétractions musculotendineuses semble influencée par le niveau de RP du corps musculaire des muscles gastrocnémiens.

Le manque de preuves concernant l'efficacité des techniques d'étirements passifs dans la prévention des rétractions peut être en partie expliqué par la faible description des modalités de leurs mises en œuvre (Apostolopoulos et al., 2015). Le paramètre d'intensité de l'étirement (*i.e.* angle de FD ou couple passif) apparaît ainsi faiblement contrôlé. Les étirements manuels sont réalisés en fonction de la sensation d'inconfort ressentie par le sujet et leurs intensités ne sont pas quantifiées par le biais d'une mesure objective. Or, le paramètre d'intensité de l'étirement semble influencer de façon

importante les effets de ces techniques sur les propriétés musculaires comme cela a été montré chez le sujet sain (Fowles et al., 2000; Freitas et al., 2016; Ryan et al., 2008) ainsi que chez le sujet hémiparalysé vasculaire (Gao et al., 2011; Yeh et al., 2005, 2007). Freitas et al., (2015) ont montré chez le sujet sain qu'une intensité suffisante d'étirement était nécessaire (*i.e.* 60 à 80% de l'angle maximal de FD passif) pour obtenir une diminution significative du niveau de RP de l'UMT du Triceps sural et des muscles gastrocnémiens. De même, une haute intensité (*i.e.* 80% à 100% de l'angle de FD ou du couple passif maximal) et une longue durée d'étirement (*i.e.* 8 à 60 minutes) sont associées à une augmentation significative de l'angle de FD maximal et/ou à la diminution du taux de RP chez le sujet adulte sain (Fowles et al., 2000; Freitas et al., 2016; Hirata et al., 2017; Ryan et al., 2008) ainsi que chez le sujet hémiparalysé vasculaire (Gao et al., 2011; Yeh et al., 2005).

Peu d'études ont rapporté l'effet des techniques d'étirements passifs sur les propriétés élastiques du muscle de l'enfant PC. Kalkman et al., (2018b) ont rapporté récemment que le gain articulaire de FD maximal à la suite d'une session d'étirement des muscles fléchisseurs plantaires était associé à une augmentation de la tolérance de l'étirement (*i.e.* augmentation du couple passif maximal) plutôt qu'à une modification de la RP de l'UMT du Triceps sural et du muscle GM. Ces résultats divergent de ceux rapportés lors de travaux similaires chez l'adulte sain (Freitas et al., 2015; Morse et al., 2008; Ryan et al., 2008). Toutefois, la RP du muscle GM était mesurée de façon indirecte par le ratio de l'allongement des fascicules musculaires par la variation de couple passif de cheville, représentant de ce fait la résistance à l'étirement développée par l'ensemble de l'UMT du Triceps sural (Kalkman et al., 2018b). Depuis plusieurs années, la technique de SWE est utilisée afin de mesurer de façon spécifique le niveau de tension passive des muscles gastrocnémiens chez le sujet sain (Freitas et al., 2015, 2016; Hirata et al., 2016, 2017), l'adulte hémiparalysé vasculaire (Le Sant et al., 2019b) ainsi que chez l'enfant PCB (Brandenburg et al., 2016) et PCU (Lee et al., 2016). La technique de SWE a permis de fournir de nouvelles connaissances concernant les propriétés élastiques des muscles fléchisseurs plantaires de cheville chez le sujet adulte sain. Il a ainsi été rapporté que la variation du couple passif de cheville à la suite d'un étirement ne reflétait pas la variation du niveau de tension passive du muscle GM mesuré par la technologie SWE (Freitas et al., 2015, 2016). Par exemple, à une intensité d'étirement sous-maximal (*e.g.* 60% du couple passif maximal), le couple passif de cheville peut diminuer sans modification du niveau de tension passive du muscle GM (Freitas et al., 2015, 2016). Par ailleurs, les mesures SWE permettent de calculer le slack angle du muscle GM (Hug et al., 2013; Le Sant et al., 2019b) (*i.e.* l'angle au-delà duquel le niveau de tension passive commence à augmenter significativement) qui peut varier à la suite d'une simple session d'étirement passive (Hirata et al., 2016, 2017). Il apparaît donc que la mesure spécifique du niveau de tension passive à l'échelle du fascicule musculaire est nécessaire afin de mieux comprendre les effets des étirements et l'influence des paramètres d'application. A ce jour, ce type de mesure n'a pas été réalisé chez l'enfant PC spastique.

Considérant l'influence supposée de la RP de l'UMT du muscle Triceps sural et du muscle GM sur la faible efficacité des techniques d'étirements passifs et l'importance d'utiliser des paramètres d'étirement contrôlés (*i.e.* intensité, durée, positionnement des sujets), l'objectif de cette étude est de décrire les effets immédiats d'une unique session d'étirements des muscles fléchisseurs plantaires, réalisée avec des paramètres contrôlés, sur l'angle de FD maximal de cheville et les propriétés élastiques à l'échelle de l'UMT du Triceps sural et du muscle GM chez l'enfant PCU.

### VI.1.2 Population, méthode et statistiques

#### \* Participants

12 enfants PCU spastiques ont été recrutés pour cette étude. Les critères d'inclusion et d'exclusion étaient les mêmes que lors de la précédente étude (cf.V.2). Le tableau 5 reprend les principales caractéristiques de la population étudiée.

n	12
Sexe (Garçon/Fille)	6/6
Côté parétique (droite/gauche)	6/6
Taille (cm)	147,9 (11,3)
Poids (kg)	38,1 (12,1)
Age (années)	11,1 (1,7)
GMFCS Levels, n	I; n=12
Echelle d'Ashworth modifiée	1,7
Echelle de Boyd	1,8
Angle de FD maximal côté parétique (°)	12,3 (8,6)

**Tableau 5: Caractéristiques générales de la population étudiée. (GMFCS : Gross Motor Functional Classification System ; FD : flexion dorsale)**

#### \* Paramètres de la session d'étirement

Entre chaque session d'évaluation pré- et post-étirement, les enfants restaient positionnés en décubitus ventral sur le dynamomètre isocinétique CON-TREX®. La cheville du membre parétique était positionnée passivement à l'aide du dynamomètre à un angle correspondant à 80% de l'angle maximal de FD de cheville enregistré lors de l'évaluation initiale. La position d'étirement était maintenue durant 5 minutes à cet angle fixe. Les paramètres de cette session d'étirement ont été déterminés à partir des données de la littérature :

- Durée: il a été rapporté chez le sujet adulte sain qu'une session de 5 minutes d'un étirement passif à un angle fixe influençait significativement le niveau de tension passive du muscle GM (Hirata et al., 2016, 2017) et nécessitait un temps similaire ou moins important que les protocoles proposés chez l'enfant PC (Kalkman et al., 2018b; Theis et al., 2013).
- Intensité: la position d'étirement correspondant à 80% de l'angle de FD maximal de cheville était bien tolérée et suffisamment importante pour influencer le niveau de tension passive du

muscle GM selon les données chez l'adulte sain (Freitas et al., 2015) et chez l'adulte hémiparétique vasculaire (Yeh et al., 2005).

\* Mesures réalisées

- **Angle de FD maximal**, mesuré de façon instrumentale sur le dynamomètre isocinétique avant et immédiatement à l'issue de l'étirement, correspondant à l'angle où le sujet manifeste une sensation d'inconfort maximal.
- **Couple passif** lors d'une mobilisation articulaire dans le secteur 30° de FP-FD maximale. Cette mesure a permis le calcul de la pente de la relation couple-angle au niveau du membre parétique avant et à l'issue de la session d'étirement dans le secteur de couple 20%-80% ( $RP_{rel}$ ) et dans le même secteur angulaire que celui obtenu initialement avant l'étirement ( $RP_{abs}$ ).
- **Module de cisaillement** lors d'une mobilisation articulaire passive dans le secteur 30° de FP-FD maximale. Cette mesure a permis de déterminer la variation de slack angle au niveau du membre parétique entre les phases pré- et post-étirement et de modéliser lors de chacune de ces phases la relation module de cisaillement-angle articulaire à partir d'une équation exponentielle ( $y=ae^{kx}$ ).

\* Statistiques

La distribution de chaque variable a été analysée avec le test de normalité de Kolmogorov-Smirnov. Un test  $t$  apparié a été utilisé pour comparer tous les paramètres entre les phases pré- et post-étirement. La taille de l'effet était estimée à l'aide du coefficient  $d$  de Cohen et les valeurs  $d= 0,2 ; 0,5$  et  $0,8$  étaient respectivement interprétées comme faible, modérée et forte (Cohen, 1969). Le test de corrélation de Pearson a été utilisé afin d'analyser la relation entre le gain de FD maximal et le gain de couple maximal. Les données sont présentées sous forme de moyenne (écart-type). Le seuil de significativité statistique a été fixé à  $p<0,05$ .

### VI.1.3 Résultats

L'ensemble des résultats est rapporté dans le tableau 6 et la figure 40.

	Pré-étirement	Post-étirement	<i>p</i>
<b>FD max (°)</b>	12,3 (8,6)	18,5 (8,5)	<b>&lt;0,001</b>
<b>Couple max (Nm)</b>	10,8 (4,6)	15 (6,1)	<b>&lt;0,001</b>
<b>Couple max au même angle (Nm)</b>	10,8 (4,6)	10 (4,3)	0,09
<b>RP<sub>rel</sub> (Nm/°)</b>	0,28 (0,1)	0,38 (0,2)	<b>&lt;0,05</b>
<b>RP<sub>abs</sub> (Nm/°)</b>	0,28 (0,1)	0,23 (0,1)	<b>0,01</b>
<b>GM slack angle (°)</b>	-17,4 (6,3)	-14 (7)	<b>0,02</b>
<b>GM <math>\mu</math> à FD Max (kPa)</b>	204,3 (120,3)	251,1 (116)	0,16
<b>GM <math>\mu</math> au même angle (kPa)</b>	204,3 (120,3)	132,9 (44,7)	<b>0,03</b>
<b>GM <math>\mu</math> à partir du slack angle (kPa)</b>	153,1 (50,9)	162,2 (84,46)	0,68
<b>coefficient équation exponentielle GM <math>\mu</math>- angle (<i>k</i>)</b>	0,055 (0,01)	0,050 (0,02)	0,43

Tableau 6: Résultats concernant les données biomécaniques et SWE entre les phases pré- et post-étirement au niveau du membre parétique. ( $\mu$ = module de cisaillement)

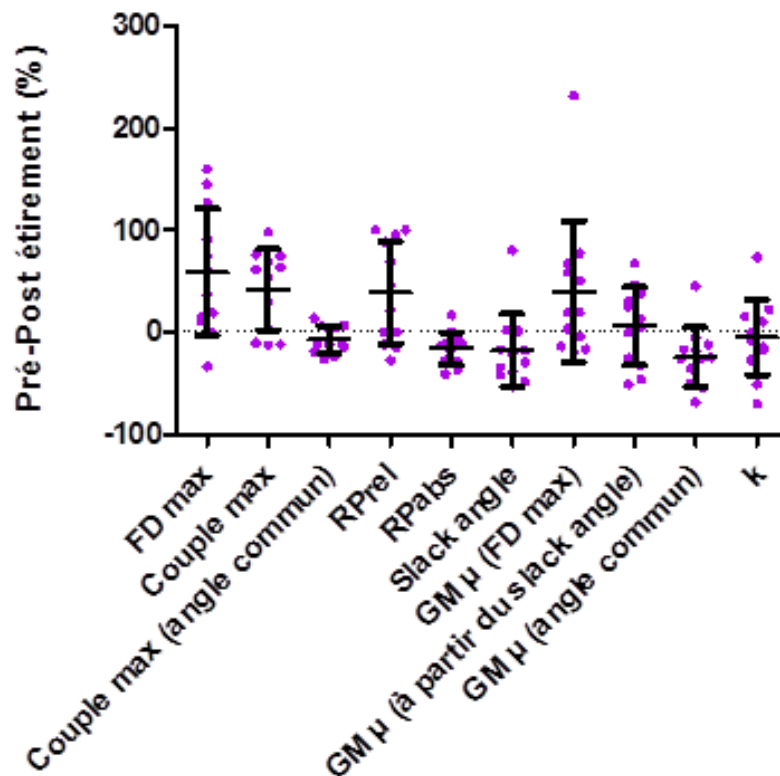
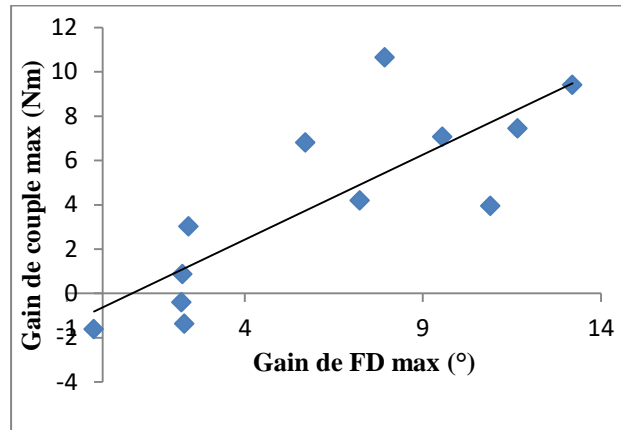


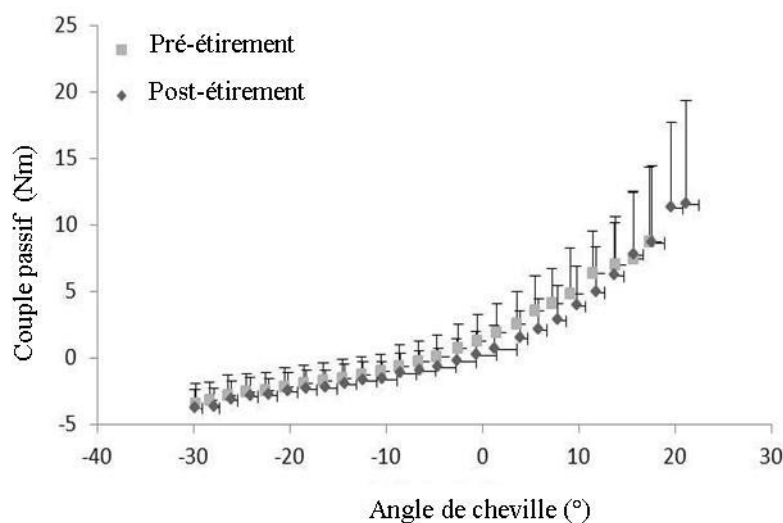
Figure 40 : Variation des mesures biomécaniques (relation couple-angle) et SWE entre les phases pré- et post-étirement. (Valeurs individuelles, moyennes et écart-types en pourcentage des mesures initiales pré-étirement).

En moyenne, l'angle de FD maximal et le couple passif maximal de cheville ont augmenté significativement de 6,2° (de 12,3° (8,6) à 18,5° (8,5) ;  $p<0,001$ ,  $d=0,77$ ) et de 4,2 Nm (de 10,8 Nm (4,6) à 15 Nm (6,1) ;  $p<0,001$ ,  $d=0,81$ ) (Figure 40). Le gain de FD maximale était fortement corrélé au gain de couple maximal ( $r=0,82$ ,  $p<0,001$ ) (Figure 41).



**Figure 41 : Relation entre le gain de FD maximale et de couple passif maximal à l'issue de la session d'étirement ( $r=0,82$ ,  $p<0,001$ ).**

Aucune différence significative n'a été retrouvée concernant le couple passif à un angle commun (*i.e.* angle de FD maximal lors de la phase pré-étirement) ( $p=0,09$ ) (Figure 42). La courbe de la relation couple-angle était bien modélisée par la régression linéaire ( $R^2=0,94$  (0,02), 0,95 (0,01) et 0,95 (0,02) concernant les phases pré-étirement, post-étirement sur le secteur angulaire absolu et sur le secteur de couple passif relatif respectivement). La  $RP_{rel}$  de l'UMT du Triceps sural était significativement augmentée ( $p<0,05$ ,  $d=0,59$ ) alors que la  $RP_{abs}$  était significativement diminuée ( $p=0,01$ ,  $d=0,46$ ) (Figure 40).

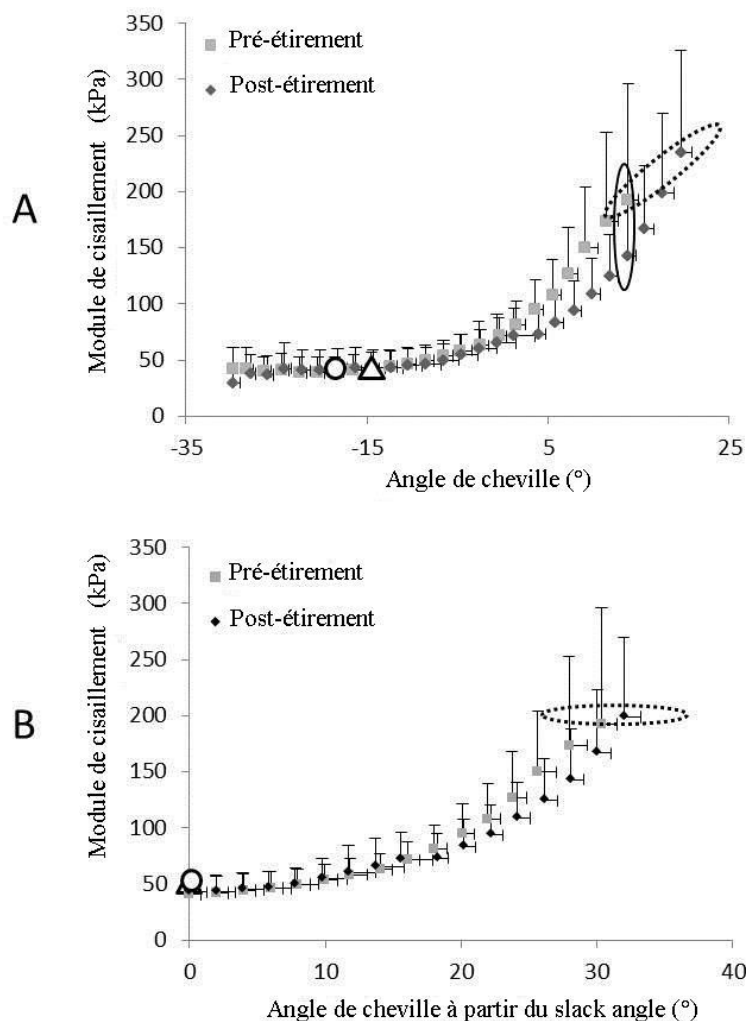


**Figure 42: Relations couple-angle moyennes et écart-types ( $n=12$ ) lors des phases pré- et post-étirement au niveau du membre parétique.**

Le slack angle du muscle GM était significativement déplacé vers le secteur de FD {de  $-17,4^\circ$  (6,3) à  $-14^\circ$  (7) ( $p=0,02$ ,  $d=0,53$ )} (Figures 40 et 43).

Aucune différence significative n'a été retrouvée concernant le module de cisaillement à l'angle de FD maximal de cheville ( $p=0,16$ ) et à partir du slack angle ( $p=0,85$ ) alors que la diminution significative de ce paramètre a été retrouvée à un angle commun (*i.e.* angle de FD de cheville pré-étirement) ( $p=0,03$  ;  $d=0,83$ ) (Figures 40 et 43).

La courbe de la relation module de cisaillement-angle de cheville était bien modélisée par une équation exponentielle ( $R^2=0,96$  (0,03) et  $0,92$  (0,11)) pour les phases pré- et post-étirement respectivement) (Figure 43). Aucune différence significative n'a été retrouvée concernant le coefficient ( $k$ ) ( $p=0,43$ ).



**Figure 43: Relations moyennes module de cisaillement-angle de cheville et écart-types (n=12) de  $-30^\circ$  de FP de cheville à l'angle de FD maximal (A) et depuis le slack angle (B) durant le mouvement de FD passif entre les phases pré- et post-étirement. Le slack angle moyen est présenté pour chaque membre (cercles et triangles blancs pour les phases pré- et post-étirement, respectivement). La comparaison du module de cisaillement entre les deux phases à un angle commun de cheville (*i.e.* angle de FD maximal de cheville lors de la phase pré-étirement) est illustrée par l'ellipse en trait plein et à l'angle maximal de FD de cheville par l'ellipse en pointillés (A), à l'angle maximal de FD de cheville depuis le slack angle par une ellipse en pointillés (B).**

#### VI.1.4 Discussion

Cette étude ayant pour objectif d'étudier les effets immédiats d'une session d'étirement instrumentale de longue durée (*i.e.* 5 minutes continues) et de haute intensité (*i.e.* 80% de l'angle maximal de FD) montre :

- un gain d'amplitude articulaire de FD de cheville.
- une augmentation de la tolérance à l'étirement.
- une diminution de la  $RP_{abs}$  et du module de cisaillement à angle fixe ainsi qu'un décalage du slack angle décalé vers le secteur de FD alors que le module de cisaillement maximal à partir du slack angle n'était pas significativement modifié.

Concernant le gain d'amplitude articulaire de FD de cheville, ces résultats sont comparables à ceux retrouvés dans la littérature après une unique session d'étirement (+10°; Kalkman et al., 2018b; Theis et al., 2013). Ces résultats sont compatibles avec un gain d'amplitude articulaire lié à une augmentation de l'extensibilité musculaire (*i.e.* gain de longueur caractérisé par un décalage vers la droite des courbes couple passif/module de cisaillement-angle de cheville) sans modification des propriétés élastiques de l'UMT des muscles Triceps sural et GM (*i.e.* forme des courbes similaire). Ces résultats sont conformes aux données de la littérature objectivant la variation des propriétés morphologiques (*i.e.* gain de longueur du corps musculaire et des fascicules du GM ainsi que du TA, Kalkman et al., 2018b; Theis et al., 2013) sans variation de la RP de l'UMT du Triceps sural (Kalkman et al., 2018b) après une unique session d'étirement. Néanmoins, la variation du slack angle ne constitue qu'une mesure indirecte de la variation de longueur musculaire et l'absence de mesures échographiques morphologiques empêche de conclure définitivement.

L'absence de modification des propriétés élastiques du muscle GM, caractérisée par l'absence de variation significative du module de cisaillement à l'angle de FD maximal à l'issue de l'étirement, pourrait être liée à un allongement préférentiel du TA au détriment du corps musculaire du GM. Il a ainsi été rapporté une augmentation du ratio d'allongement passif (TA/corps musculaire du GM) (Kalkman et al., 2018a) qui peut être mis en lien avec une augmentation du ratio de RP (corps musculaire du GM/TA) chez l'enfant PC par rapport à l'enfant sain (Theis et al., 2016). Le faible effet des techniques d'étirements passifs sur la modification des propriétés musculaires mécaniques pourrait ainsi être lié à un défaut de transmission de la force d'allongement au corps musculaire, alors absorbée par les tissus tendineux (Kalkman et al., 2019). Ainsi, une étude chez l'enfant PC a récemment proposé de coupler aux programmes d'étirements une intervention de renforcement musculaire afin d'augmenter la RP du TA et ainsi accroître la transmission de la contrainte au tissu musculaire (Kalkman et al., 2019).

Le protocole mis en place dans ce travail comportait l'utilisation du dynamomètre isocinétique dans la réalisation de l'étirement. Ce choix répondait à deux objectifs distincts :

- contrôler au mieux les paramètres de positionnement des sujets et d'intensité du stimulus d'étirement ;



- permettre un étirement de longue durée sans intervention d'une tierce personne durant l'étirement. Cette procédure devait permettre la réalisation efficace de « postures » d'étirement de longue durée à l'aide d'un dispositif instrumental adapté, même si l'utilisation d'un dynamomètre isocinétique ne répond pas complètement aux critères les plus optimaux. Si l'intensité de l'étirement peut être facilement évalué initialement par le couple passif maximal, le phénomène de relaxation musculaire s'opérant lors de l'étirement à angle constant entraîne une réduction progressive du couple passif initialement appliqué aux structures ostéo-musculo-tendineuses. Or, notre dispositif expérimental ne permettait pas de réajuster l'intensité du stimulus ciblé initialement (*i.e.* couple passif maximal) au cours même de l'étirement. Par conséquent, l'étirement des structures musculo-tendineuses réalisé à angle constant s'est sans doute accompagné d'une diminution de l'intensité du stimulus au cours de son déroulement. Or, il a été rapporté une efficacité supérieure des étirements passifs réalisés à couple constant par rapport à ceux réalisés à angle constant sur la modification des propriétés visco-élastiques chez l'adulte hémiplegique vasculaire (Yeh et al., 2005).

Des études complémentaires devront préciser les paramètres d'étirement les plus efficaces à mettre en œuvre au quotidien chez l'enfant PC spastique : quelle intensité et quelle durée optimale des séances ? Quelle installation pour quel positionnement des enfants ?

### **VI.1.5 Conclusion**

Cette étude confirme qu'un gain significatif de FD maximale de cheville peut-être obtenu au niveau du membre parétique après une session d'étirement passif chez l'enfant PCU. Les modalités d'étirement ont été choisies afin de permettre une session de « posture » d'étirement réalisable en institution et/ou à domicile nécessitant l'aide minimale d'une tierce personne lors de l'installation des enfants sur un matériel adapté. Le gain d'angle de FD maximale de cheville semble être associé à une augmentation de la tolérance à l'étirement, comme le suggère sa forte corrélation avec le gain de couple passif maximal, plutôt qu'à une variation significative des propriétés élastiques de l'UMT du Triceps sural et du muscle GM. Aucune différence significative entre les phases pré- et post-étirement du module de cisaillement à partir du slack angle et du coefficient  $k$  n'a ainsi été retrouvée. A l'issue de la session d'étirement, le gain de FD maximale associé à la diminution de la tension passive du muscle GM à un angle fixe (*i.e.* FD maximale pré-étirement) ainsi que le décalage du slack angle vers le secteur de FD peuvent être identifiés comme le résultat d'un allongement du corps musculaire. D'autres études mesurant la variation de longueur des muscles gastrocnémiens et du TA sont nécessaires pour confirmer ce résultat.

## VI.2 Contribution # 5 : effets d'un programme d'étirement de longue durée

### VI.2.1 Contexte général et objectifs

Chez l'adulte sain, il a été montré qu'une unique session d'étirement passif permettait une diminution significative du niveau de RP des muscles fléchisseurs plantaires de cheville. Ce résultat peut s'expliquer par les propriétés visco-élastiques du muscle (*i.e.* phénomène de relaxation musculaire à longueur constante et de « creep » à couple constant) (Ryan et al., 2008). Néanmoins, ces effets semblent de courte durée, les paramètres de RP de l'UMT du Triceps sural revenant à leurs valeurs initiales d'autant plus vite que la durée d'étirement a été courte (8 à 20 minutes à l'issue d'une session d'étirement de 2 à 8 minutes, respectivement) (Ryan et al., 2008). Il est donc opportun de se questionner quant aux effets des programmes d'étirement de longue durée ou répétés de façon régulière. Permettent-ils de dépasser ces effets transitoires et d'obtenir un gain à plus long terme tant au niveau de l'amplitude articulaire que sur les modifications des propriétés musculaires ? Chez le sujet sain, Freitas et al., (2018) suggèrent que les effets des programmes d'étirement de 3 à 8 semaines sont liés à des adaptations neurophysiologiques (*i.e.* augmentation du seuil de tolérance à l'étirement) plutôt qu'à des modifications des propriétés mécaniques (*i.e.* raideur passive). Dans une revue systématique de la littérature, Harvey et al., (2017) ont récemment conclu que les programmes d'étirements passifs de longue durée (*i.e.* jusqu'à 8 semaines) étaient inefficaces concernant le traitement et la prévention des rétractions musculo-tendineuses chez le sujet à risque présentant une atteinte neurologique centrale. Néanmoins, les protocoles d'étirement proposés dans la littérature présentent une grande hétérogénéité de leurs paramètres (*i.e.* intensité et/ou durée de l'étirement). Dans certains cas, il est considéré que c'est l'intensité de l'étirement qui est insuffisante pour générer des adaptations musculaires mécaniques et/ou structurelles (Apostolopoulos et al., 2015; Freitas et al., 2018).

Chez l'enfant PC, les résultats d'une première étude sur les étirements (contribution # 4) ont montré qu'un gain significatif d'amplitude de FD de cheville peut être obtenu à l'issue d'une unique session d'étirement passif des muscles fléchisseurs plantaires de cheville. Ce gain d'amplitude est associé à une augmentation de la tolérance de l'étirement sans modification des propriétés élastiques de l'UMT du Triceps sural et du muscle GM. Au-delà des effets immédiats, l'impact des programmes d'étirement de longue durée a été peu décrit chez l'enfant PC spastique. Theis et al., (2015) ont rapporté chez l'enfant PC GMFCS III-IV un faible gain d'amplitude articulaire de FD (3°) après 6 semaines d'un programme d'étirement manuel des muscles fléchisseurs plantaires. Ce résultat était associé à une réduction du niveau de RP à l'échelle de l'UMT du Triceps sural (-32%) et du muscle GM (-13%) sans altération des propriétés élastiques du TA. Ces résultats suggèrent que les techniques d'étirements passifs réalisées de façon répétée sont susceptibles d'influencer les propriétés élastiques de l'UMT du Triceps sural et du muscle GM. Néanmoins, ces résultats doivent être confirmés en fonction des caractéristiques cliniques des enfants PC (spasticité, niveau fonctionnel...).

Suite à ces données, l'objectif de cette étude est d'évaluer les effets d'un programme d'étirements passifs instrumental des muscles fléchisseurs plantaires de cheville de plusieurs semaines sur l'amplitude de FD maximale de cheville et la RP de l'UMT du Triceps sural chez l'adolescent PC spastique GMFCS I-II.

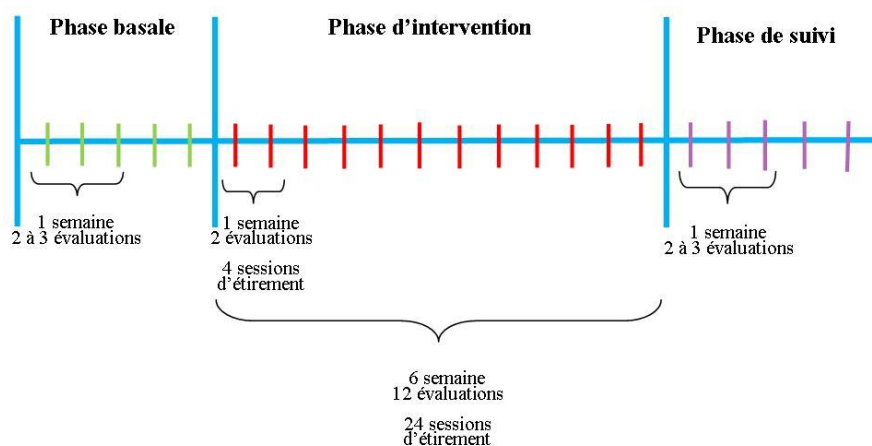
## VI.2.2 Matériel et méthode

### \* Methodologie

Cette étude est envisagée selon une méthodologie de type SCED (Single Case Experimental Design, (Krasny-Pacini and Evans, 2017) de type multiples lignes de bases à travers les sujets. Cette méthodologie a été choisie car elle donne la possibilité d'évaluer les effets d'une intervention au sein d'un petit groupe de sujets. Il s'agissait d'un critère important de faisabilité de l'étude compte tenu de la longueur du suivi et de la lourdeur du protocole.

Le principe de cette méthodologie est de répéter une/des mesure(s) identiques (*i.e.* mesures cibles=angle de FD maximal de cheville et RP de l'UMT du Triceps sural) de façon régulière (*e.g.* plusieurs fois par jour, par semaine ou pas mois...) chez un même sujet au cours de trois phases distinctes : une phase basale (*baseline*), une phase d'intervention et une phase de suivi (*follow-up*). L'intervention thérapeutique évaluée (*i.e.* session d'étirement) n'était pas réalisée lors des phases basale et de suivi où seules des évaluations « contrôles » étaient programmées. L'intérêt de cette méthodologie est d'évaluer les effets d'une intervention thérapeutique par rapport à un état initial basal et le maintien dans le temps des effets thérapeutiques lors d'une phase de suivi.

La durée des phases basale et de suivi était randomisée pour chaque sujet. Leur durée variait de 1 à 3 semaines, incluant 3 à 7 répétitions des mesures cibles. La phase d'intervention présentait une durée de 6 semaines commune à chaque sujet durant laquelle les mesures cibles étaient réalisées lors de 2 sessions par semaine, immédiatement avant et après l'étirement (Figure 44). La durée totale de l'étude variait de 8 à 12 semaines en fonction de la randomisation.



**Figure 44:** Schéma de l'étude de type SCED-multiples lignes de bases à travers les sujets : exemple pour un sujet.

\* Population

Les sujets inclus dans l'étude devaient répondre aux critères d'inclusion suivants: (1) diagnostic de PC spastique de type unilatéral ou bilatéral, (2) âge compris entre 10 et 18 ans (3) angle maximal de FD de cheville genou tendu mesuré par goniométrie manuelle  $\leq 10^\circ$ , (4) flessum de genou  $\leq 10^\circ$ . Le critère d'exclusion comportait la réalisation d'un traitement à visée orthopédique (injection de toxine botulique, plâtres d'allongement, chirurgie) au niveau des muscles fléchisseurs plantaires dans les trois mois précédant la première évaluation. Pour ce format d'étude, notre objectif minima de recrutement était de trois sujets. Il s'agit du nombre minimum de sujets permettant de respecter les consignes méthodologiques de bonne pratique concernant la population de l'étude.

\* Protocole expérimental

L'installation des sujets sur le dynamomètre CON-TREX® lors de chaque session d'évaluation et d'étirement, les mesures de l'angle de FD maximale de cheville et de la RP de l'UMT du Triceps sural ainsi que le traitement des données de RP étaient réalisés de façon similaire à la contribution # 4 (e.g. VI.1).

Pour des raisons de disponibilité du matériel et de contraintes liées à sa durée d'installation, aucun enregistrement EMG de l'activité des muscles gastrocnémiens, soléaire et tibial antérieur n'a pu être réalisé lors des différentes évaluations.

\* Procédure d'étirement

Chaque enfant réalisait 4 sessions par semaine d'étirement des muscles fléchisseurs plantaires au niveau du membre parétique chez le sujet PCU ou le membre présentant l'amplitude de FD la plus limitée chez le sujet PCB durant 6 semaines consécutives (Figure 43). A titre de contrôle, les deux membres étaient évalués lors de la première et de la dernière session d'évaluation des phases basale et de suivi du programme (soit 2 évaluations en phase basale puis 2 autres en phase de suivi).

La durée des sessions d'étirement augmentait toutes les deux semaines de façon progressive:

- 5 minutes lors des deux premières semaines.
- 7 minutes et 30 secondes lors des deux semaines suivantes.
- 10 minutes lors des deux dernières semaines.

L'intensité de l'étirement correspondait à 80% de l'angle maximal de FD de cheville évalué immédiatement avant chaque session d'étirement.

\* Traitement des données et statistiques

Les données étaient traitées à partir des fichiers bruts fournis par le logiciel du dynamomètre CON-TREX® à l'aide d'une macro conçue spécifiquement à cet effet sur le logiciel Excel.

Deux paramètres de RP ont été calculés :

- RP<sub>rel</sub>: pente de la courbe (régression linéaire) calculée lors des évaluations pré- et post-étirement entre 20% et 80% du couple passif maximal. L'angle de FD maximal n'était pas réévalué à l'issue de la session d'étirement, permettant ainsi de calculer la RP sur un secteur articulaire identique lors des évaluations post-étirement.

-  $RP_{abs}$ : pente de la courbe (régression linéaire) calculée entre 20% et 80% du couple passif maximal initialement lors de l'évaluation en phase basale présentant l'angle de FD maximal le plus faible. Le secteur articulaire défini lors de cette évaluation initiale servait ensuite de référence pour les autres sessions d'évaluations des différentes phases (basal, pré-étirement lors de la phase d'intervention puis suivi), afin de comparer la valeur de  $RP_{abs}$  sur un même secteur articulaire tout au long de l'étude.

Les résultats sont présentés sous forme de graphique horizontal et longitudinal et interprétés à partir des outils d'aides visuelles et de statistiques spécifiques proposés par le site de Rumen Manolov (<https://manolov.shinyapps.io/Overlap/>).

Deux outils différents et complémentaires ont été choisis pour décrire les résultats :

- Dual Criterion : il s'agit d'un outil d'aide visuelle à la description des résultats. Le Dual Criterion permet d'établir une ligne de niveau (moyenne) et une ligne de tendance (*i.e.* vers l'augmentation ou vers la diminution) des données de la phase basale. Lorsque le gain d'un paramètre est recherché, l'effet de l'intervention est démontré si un maximum de points en phase de traitement se trouve strictement au-dessus des lignes de niveau et de tendance de la phase basale, projetées sur la phase de traitement (Swoboda et al., 2010). Les outils d'analyse visuelle des résultats doivent être complétés par des outils d'analyses statistiques spécifiques tels que le Tau-U.

- Tau-U : le Tau-U est un outil d'analyse statistique plus complexe. Cet outil prend en compte le chevauchement des points entre les phases basale et de traitement ainsi que l'influence de la tendance des valeurs lors de la phase basale (Manolov and Moeyaert, 2017). Le Tau-U, compris entre +1 et -1, permet de ne pas prendre en compte la valeur de la tendance en phase basale (*i.e.* évolution naturelle des valeurs lors de la phase basale) lorsque celle-ci n'est pas significative ( $p > 0,05$ ) (version *Original Data*, Figure 45). Inversement, lorsque la tendance en phase basale est significative, la version *Detrended Data* permet de fournir un résultat corrigé. Le site <http://www.ktarlow.com/stats/tau> permet de calculer la taille de l'effet (SE : size effect).

### **VI.2.3 Résultats**

#### \* Population :

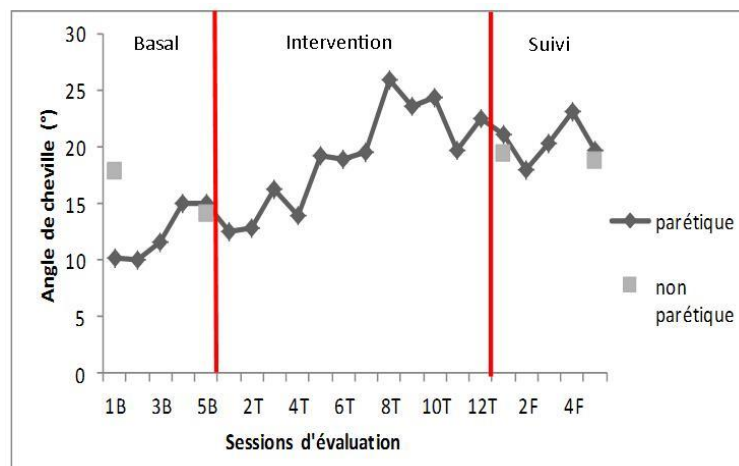
A ce jour, un seul sujet a pu être inclus dans l'étude. Ses caractéristiques sont les suivantes :

- adolescent de sexe masculin, âgé de 16,6 ans
- taille : 163 cm
- poids : 57 kg
- diagnostic de PCU droite dans un contexte d'épisodes infectieux.
- antécédents médicaux : 1 session de 3 fois 1 semaine de plâtres d'allongement, J-2,5 ans avant l'inclusion. 1 injection de toxine botulique.
- antécédents chirurgicaux : intervention chirurgicale multisites J-3 mois avant l'inclusion comprenant :

- ostéotomie de déflexion fémorale distale droite
  - chirurgie d'Evans au niveau du pied droit
  - allongement des muscles ischio-jambier interne
  - abaissement de la rotule droite et désinsertion distale du muscle droit fémoral
  - neurotomies au niveau des muscles semi-membraneux, semi-tendineux et droit fémoral
- FD maximale de cheville genou tendu, mesurée à l'aide d'un goniomètre manuel au niveau du membre parétique : 10°
  - spasticité sur Ashworth ; muscle soléaire : 1+, muscles gastrocnémiens : 2.
  - niveau fonctionnel lors de l'inclusion : GMFCS 1, sujet marchant de façon indépendante et porteur d'une attelle de marche postérieur.

\* Angle de FD maximale de cheville

La figure 45 présente l'évolution de l'angle de FD maximal de cheville, mesuré sur le dynamomètre isocinétique au cours des trois phases de l'étude.



**Figure 45: Evolution de l'angle de FD maximal passif de cheville au cours des trois différentes phases.**

Les outils de visualisation des données « Dual Criterion » et « Conservative Dual Criterion » (version corrigée du Dual Criterion) permettent de s'apercevoir que les valeurs enregistrées lors de la phase intervention sont toutes au-dessus de la ligne représentant la valeur moyenne de la phase basale (ligne rouge, Figure 46) mais en dessous de celle représentant la ligne de tendance (ligne verte, Figure 46).

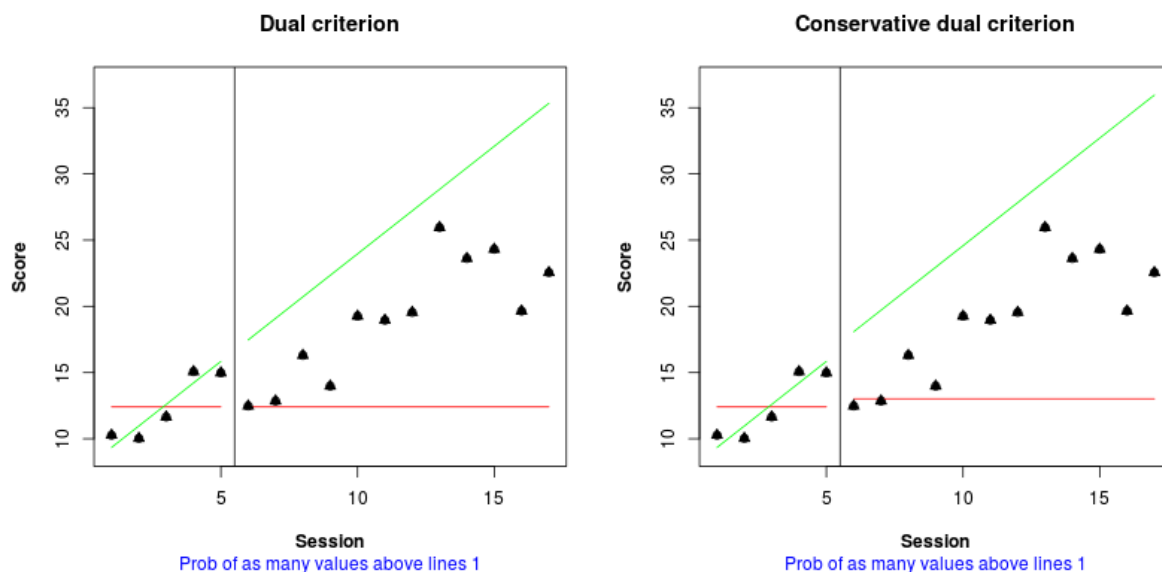


Figure 46: Outils d'analyse visuelle des résultats Dual Criterion et Conservative Dual Criterion concernant le paramètre d'angle maximal de FD. Chaque valeur d'angle maximal de FD passif est représentée par un symbole noir lors de la phase basale (partie gauche de chaque graphique) et de la phase traitement (partie droite de chaque graphique). Les lignes rouge et verte représentent respectivement la moyenne et la tendance des valeurs de la phase basale.

La tendance de la phase basale, calculée via le calculateur de K.Tarlow (2016) (Baseline Corrected Tau Calculator. Retrieved from <http://www.ktarlow.com/stats/tau>) était non-significative ( $Tau=0,600$ ,  $p=0,221$ ). Le Tau a donc été calculé sans correction de tendance (*No Baseline Correction*). La valeur retenue était significative  $Tau=0,531$ ,  $p=0,013$  ( $SE_{tau}=0,291$ ) (Figure 47), suggérant ainsi un effet significatif de l'intervention dans l'augmentation de l'angle maximal de FD passive de cheville.

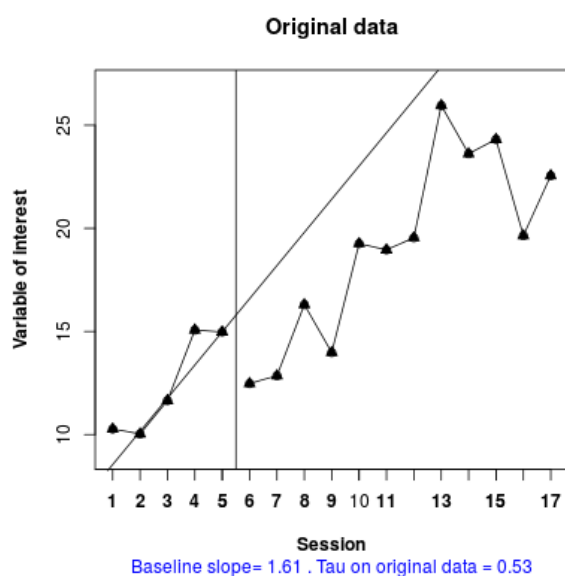
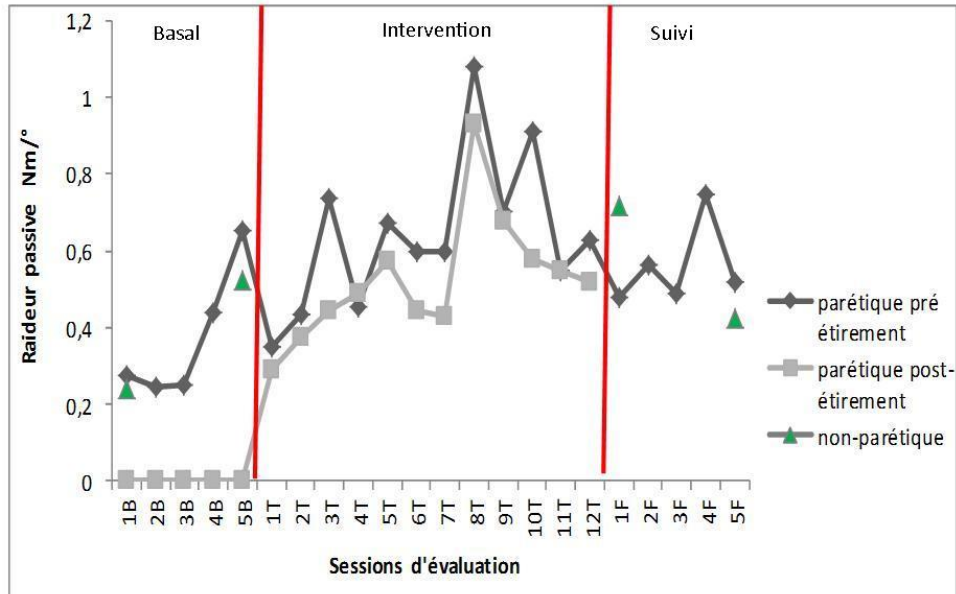


Figure 47: Calcul du Tau sans prise en compte de la tendance en phase basale concernant le paramètre d'angle de FD maximal passif.

\* RP relative ( $RP_{rel}$ ).

La figure 48 présente l'évolution du paramètre de  $RP_{rel}$ .



**Figure 48: Evolution de la  $RP_{rel}$  au cours des différentes phases de l'étude au niveau du membre parétique avant (points noirs) et après la session d'étirement (points gris). La RP du membre non-parétique a été calculée lors des phases basale et de suivi (triangles verts).**

L'analyse visuelle des résultats permet de constater que la  $RP$  (*i.e.* calculée sur le même secteur articulaire à l'issue immédiate de l'étirement, points gris, Figure 48) diminue de façon générale à l'issue immédiate d'une session d'étirement. Néanmoins, cette observation n'a pas fait l'objet de statistiques. Les outils de visualisation des données « Dual Criterion » et « Conservative Dual Criterion » (version corrigée du Dual Criterion) permettent de s'apercevoir que les valeurs enregistrées lors de la phase intervention sont toutes au-dessus de la ligne représentant la valeur moyenne de la phase basale (ligne rouge, Figure 49) mais en dessous de celle représentant la ligne de tendance (ligne verte, Figure 49).



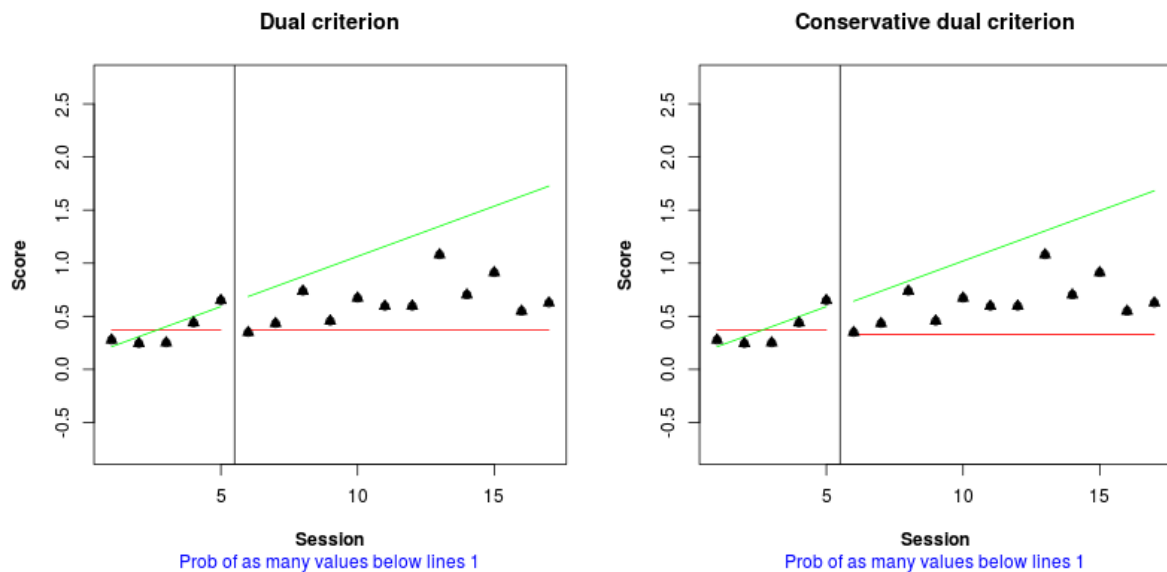


Figure 49: Outils d'analyse visuelle des résultats Dual Criterion et Conservative Dual Criterion concernant le paramètre de  $RP_{rel}$ . Chaque valeur de  $RP_{rel}$  est représentée par un symbole noir lors de la phase basale (partie gauche de chaque graphique) et de la phase traitement (partie droite de chaque graphique). Les lignes rouge et verte représentent respectivement la moyenne et la tendance des valeurs de la phase basale.

La tendance de la phase basale, calculée via le calculateur de K.Tarlow (2016) (Baseline Corrected Tau Calculator. Retrieved from <http://www.ktarlow.com/stats/tau>) était non-significative ( $Tau=0,600$ ,  $p=0,221$ ). Le Tau a donc été calculé sans correction de tendance (*No Baseline Correction*). La valeur retenue était significative  $Tau=0,465$ ,  $p=0,031$  ( $SE_{tau}=0,304$ ) (Figure 50), suggérant un effet significatif de l'intervention dans l'augmentation de la  $RP_{rel}$ .

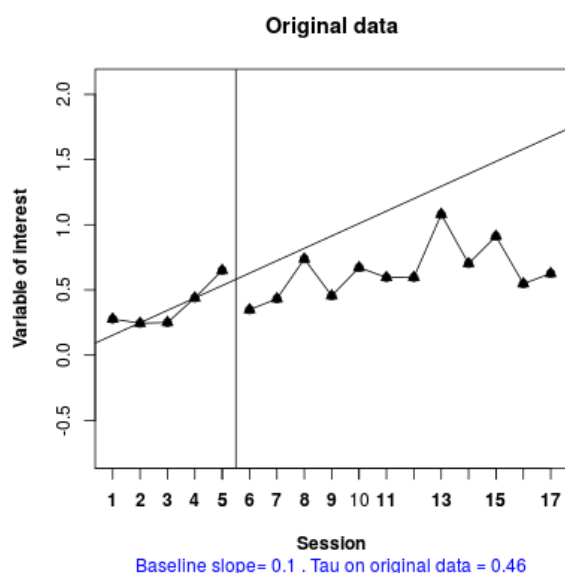


Figure 50: Calcul du Tau sans prise en compte de la tendance en phase basale concernant le paramètre de  $RP_{rel}$ .

\*  $RP_{absolue} (RP_{abs})$

La figure 51 présente l'évolution de la  $RP_{abs}$ .

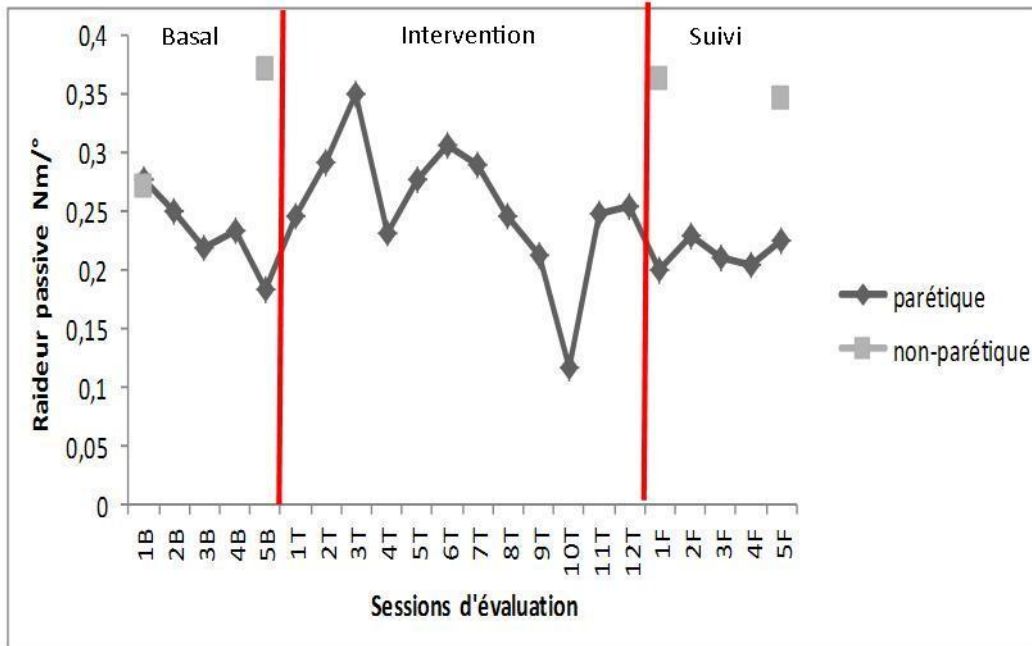


Figure 51: Evolution de la  $RP_{abs}$  au cours des différentes phases de l'étude au niveau du membre parétique. La  $RP$  du membre non-parétique a été calculée lors des phases basale et de suivi (carrés gris).

Les outils de visualisation des données « Dual Criterion » et « Conservative Dual Criterion » (version corrigée du Dual Criterion) permettent de s'apercevoir que les valeurs enregistrées lors de la phase intervention sont toutes quasiment au même niveau que la ligne représentant la valeur moyenne de la phase basale (ligne rouge, Figure 52).

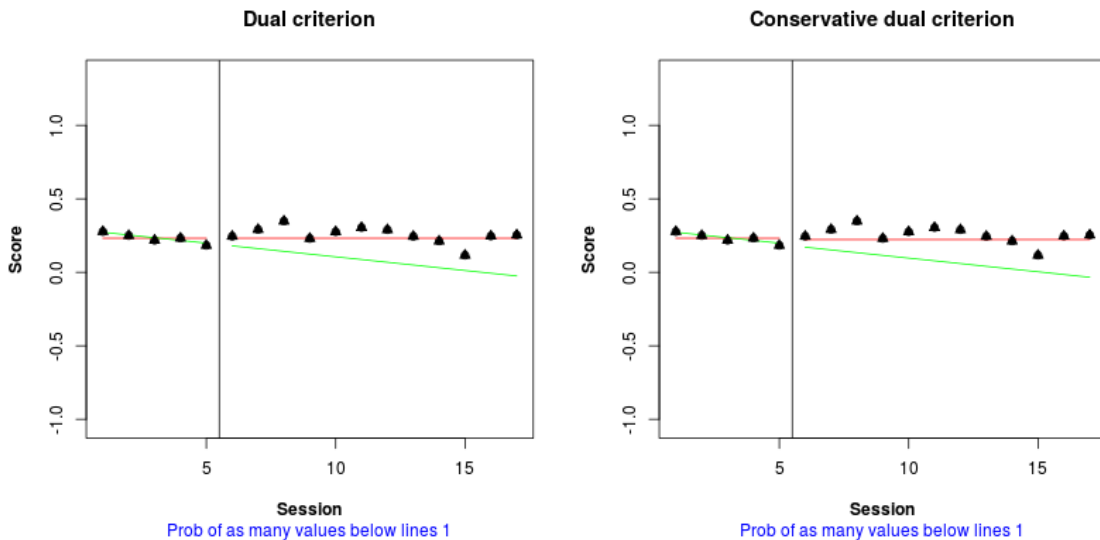
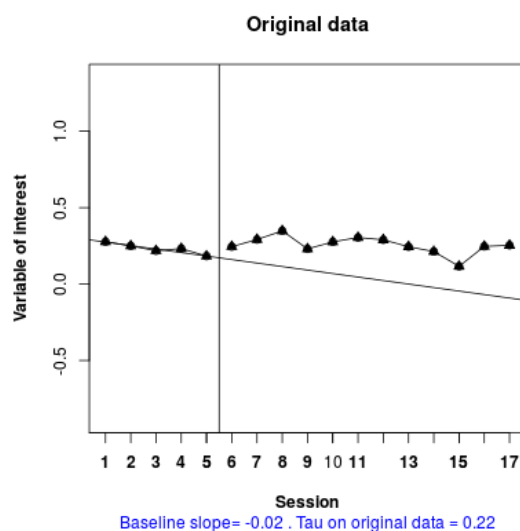


Figure 52: Outils d'analyse visuelle des résultats Dual Criterion et Conservative Dual Criterion concernant le paramètre de  $RP_{abs}$ . Chaque valeur de  $RP_{abs}$  est représentée par un symbole noir lors de la phase basale (partie gauche de chaque graphique) et de la phase traitement (partie droite de chaque graphique). Les lignes rouge et verte représentent respectivement la moyenne et la tendance des valeurs de la phase basale.

La tendance de la phase basale, calculée via le calculateur de K.Tarlow (2016) (Baseline Corrected Tau Calculator. Retrieved from <http://www.ktarlow.com/stats/tau>) était non-significative (Tau=-0,800, p=0,086). Le Tau a donc été calculé sans correction de tendance (*No Baseline Correction*). La valeur retenue était non-significative Tau=0,221, p=0,317 ( $SE_{\tau}=0,334$ ) (Figure 53), suggérant l'absence d'effet de l'intervention sur le paramètre de  $RP_{abs}$ .



**Figure 53:** Calcul du Tau sans prise en compte de la tendance en phase basale concernant le paramètre de  $RP_{abs}$ .

#### VI.2.4 Discussion

Malgré les résultats encourageants des études ayant mesuré les effets immédiats d'une session d'étirements passifs chez le sujet PC, il existe peu de données similaires concernant les effets des programmes d'étirements de plus longue durée (*i.e.* plusieurs semaines). A notre connaissance, seule l'étude de Theis et al. (2015) a rapporté un faible gain de FD maximale de cheville (+3°) associé à une diminution de la RP de l'UMT du Triceps sural (-32%) et du muscle GM (-13%) après 6 semaines d'étirement pluri-hebdomadaires (4 sessions par semaine) chez l'enfant PC GMFCS III-IV.

Nous avons mis en place une étude avec pour objectif de réaliser un travail similaire chez l'adolescent PC GMFCS I-II selon une méthodologie de type SCED (Single Case Experimental Design, (Krasny-Pacini and Evans, 2017)). A ce jour, un seul sujet a pu être inclus dans cette étude, encore en cours de réalisation. Les résultats préliminaires montrent chez notre unique sujet un gain significatif d'angle de FD maximal et de  $RP_{rel}$  sans modification de  $RP_{abs}$  au cours du déroulement de l'étude. Cependant, le niveau de RP mesuré immédiatement à l'issue de chaque session d'étirement semblait diminuer par rapport aux valeurs pré-étirement calculées sur un secteur angulaire identique (Figure 48). Chez le sujet inclus, le gain de FD maximale de cheville obtenue à l'issue d'un programme d'étirement de longue durée des muscles fléchisseurs plantaires semble lié à une augmentation de la tolérance à l'étirement (gain de  $RP_{rel}$ ) sans effets sur les propriétés mécanique de l'UMT du Triceps sural (absence de modification de la  $RP_{abs}$ ). Ces résultats préliminaires sont donc

similaires à ceux obtenus lors d'une simple session d'étirement (contribution # 4). L'évolution de l'angle de FD maximal et de RP (relative et absolue) tout au long des trois phases de l'étude (basale, intervention et de suivi) montrent visuellement une grande variabilité qui peut refléter les conditions expérimentales des mesures réalisées. Ce travail a en effet été mené chez un sujet PCU hospitalisé dans un service de Médecine Physique et de Réadaptation à la suite d'une intervention chirurgicale de type multisites au niveau de son membre inférieur parétique. Or, les horaires des évaluations n'ont pu être standardisés pour des raisons pratiques de faisabilité. Il est donc possible que les activités du sujet en amont des évaluations (*i.e.* séances de rééducation) aient pu fortement influencer les résultats. De la même façon, les processus de cicatrisation et de rééducation du membre opéré ont pu impacter les sensations du sujet influençant ainsi sa tolérance de l'étirement. L'angle de FD maximal et par conséquent le couple maximal passif étaient en effet déterminés lors de chaque évaluation à partir des sensations ressenties par le sujet lors de l'étirement. Or, par définition, les valeurs de RP présentées dans ce travail dépendent directement des paramètres de FD maximale et de couple maximal passif.

#### **VI.2.5 Conclusion**

A ce jour, et à partir des résultats présentés, il n'est pas possible de conclure quant aux effets d'un programme d'étirement de longue durée chez le sujet PC spastique. Néanmoins, ces résultats préliminaires fournissent un exemple original d'évaluation des effets d'une intervention thérapeutique telle qu'une session d'étirement sur plusieurs semaines chez un adolescent PC et doivent pouvoir être poursuivis par d'autres inclusions.

## VII. Discussion générale

Ce travail de thèse s'articule autour de plusieurs hypothèses et objectifs que nous allons détailler au cours de cette partie.

Devant l'hypothèse de la pluralité des interprétations du concept de « *raideur passive* » chez l'enfant PC spastique, notre première contribution était de **réaliser un état des lieux exhaustif autour du concept de « raideur passive » des muscles fléchisseurs plantaires chez l'enfant PC spastique. Ce premier travail avait notamment pour objectif de répondre à la problématique de la définition.**

### VII.1 Que désigne le terme de raideur passive ?

Devant la confusion qui entoure l'usage du terme de « raideur passive » et autres termes désignant des symptômes proches mais néanmoins différents et répondant à des processus physiopathologiques distincts, leur définition est un pré-requis indispensable à une évaluation de qualité. Ainsi, la RP (*i.e.* quantité de force sur un secteur d'amplitude donné, nécessaire à la mobilisation d'une structure anatomique) représente seulement une composante mécanique de l'hyper-résistance de l'UMT parétique et spastique de l'enfant PC alors que la spasticité (*i.e.* hyper-réflexie vitesse dépendante) constitue sa principale composante neurologique. Dissocier les différentes composantes de l'*hyper-résistance* chez le sujet PC spastique est une étape clé dans la compréhension des processus physiopathologiques complexes qui se développent lors de la croissance. La revue de Bar-On et al., (2015) permet d'avoir une vision synthétique des progrès accomplis ces dernières années dans la détection et la quantification instrumentale de la spasticité. Des travaux plus récents ont par la suite permis d'approfondir encore les modalités d'évaluation instrumentale de la spasticité (Sloot et al., 2017) et la compréhension des phénomènes physiopathologiques (Bar-On et al., 2018). Sans pour autant négliger les échelles d'évaluations cliniques qui restent indispensables, nous pensons que l'émergence de nouvelles modalités d'évaluation instrumentale des différentes composantes de l'hyper-résistance et leur accessibilité en pratique clinique permettront de préciser l'indication des traitements et d'optimiser leurs effets. Mais il convient alors de proposer des évaluations valides et reproductibles.

Au-delà de la distinction entre phénomènes neurologiques et mécaniques, le paramètre de RP de l'UMT du Triceps sural pouvait être confondu avec des altérations d'ordre morphologique (*i.e.* diminution de longueur des muscles gastrocnémiens et soléaire, augmentation de longueur du TA). Sur le plan théorique, il convient de distinguer l'augmentation de la résistance de l'UMT et/ou du muscle lors de leur allongement sur un secteur donné, liée à l'altération des propriétés intrinsèques structurelles (*e.g.* infiltration graisseuse, augmentation de la quantité de collagène...), de l'apparition plus précoce de la résistance lors de l'allongement, liée à l'altération des propriétés morphologiques

(e.g. diminution de longueur...). Ainsi, nous pensons dans une approche clinique que trois cas de figure semblent pouvoir exister :

- Augmentation de RP sans modification des propriétés morphologiques : le clinicien perçoit une augmentation de la résistance passive lors de l'allongement de l'UMT. L'amplitude maximale de FD passive peut être diminuée ou rester identique.
- Diminution de longueur musculaire et adaptation de la longueur tendineuse : le clinicien perçoit une apparition plus précoce de la résistance lors de l'allongement de l'UMT sans augmentation de la résistance. L'amplitude maximale de FD passive est diminuée.
- Coexistence des deux phénomènes.

Néanmoins, il s'agit ici d'une proposition qui demande à être vérifiée par de plus amples investigations expérimentales.

Nous avons ensuite émis l'hypothèse que les choix méthodologiques utilisés lors de la mesure de la RP de l'UMT du muscle Triceps sural et plus particulièrement celui de la méthode de traitement des données influençaient significativement les valeurs mesurées. A partir de notre revue narrative de la littérature (contribution # 1) et d'un premier travail expérimental (contribution # 2), notre objectif était de préciser les critères méthodologiques essentiels et de vérifier la reproductibilité des mesures.

## **VII.2 Comment évaluer la raideur passive de l'UMT du Triceps sural ?**

L'évaluation de la RP de l'UMT du Triceps sural et/ou des muscles gastrocnémiens peut être évaluée à l'aide de différents matériels avec des paramètres choisis lors des protocoles expérimentaux d'une grande variabilité. L'hétérogénéité des protocoles expérimentaux semble donc expliquer, au moins partiellement, la variabilité des valeurs rapportées. Une procédure standardisée apparaît nécessaire afin de permettre la comparaison des résultats issus des différentes études. Sans avoir l'ambition de proposer un guide exhaustif concernant la méthodologie la plus appropriée pour mesurer le paramètre de RP à partir de la relation couple-angle de cheville, nous pouvons ainsi proposer quelques critères méthodologiques :

- Matériel : les dynamomètres isocinétiques apparaissent comme les outils « gold standard » dans le contrôle de la position et de la vitesse angulaire. A ce titre, ils doivent être préférés aux outils de conception artisanale, découlant le plus souvent d'initiatives d'équipes de recherche. Le caractère inapproprié des dynamomètres isocinétiques aux morphologies des jeunes enfants et l'absence de prise en compte des déformations du pied (e.g. valgus/varus), ainsi que l'absence d'accessibilité et de disponibilité des dynamomètres isocinétiques « au lit du patient » constituent des limites. Le développement de dynamomètres facilement transportables et réglables en fonction des morphologies rencontrées permettrait de s'affranchir de ces problématiques.

- Vitesse angulaire : afin d'éviter une activation musculaire réflexe durant l'allongement passif, la vitesse angulaire doit rester très faible. Celle-ci doit être standardisée afin de permettre la comparaison des résultats entre études et éviter l'influence de la viscosité musculaire. En se basant sur

les données de la littérature chez le sujet sain (Maïsetti et al., 2012) et l'enfant PC (Theis et al., 2016), nous suggérons de choisir une vitesse angulaire inférieure ou égale à 2°/s.

- Positionnement articulaire: il doit être précisément décrit étant donné son impact sur la longueur musculaire. A titre d'exemple, les muscles gastrocnémiens doivent être étudiés le genou positionné en extension complète (*i.e.* 0°). Par ailleurs, le terme « d'angle neutre » peut désigner une valeur de 90° ou 0° selon les études. Il semble donc important de définir avec précision la façon de noter l'angle articulaire. Dans ce manuscrit, nous avons considéré l'angle neutre de FP/FD à 0° ; les secteurs de FP et FD étant respectivement notés négativement et positivement.

- Conditionnement musculaire: il est nécessaire de réaliser plusieurs cycles de FP/FD avant de mesurer le paramètre de RP afin d'éviter l'influence de la viscosité musculaire (Maganaris, 2003). Durant le premier cycle de mobilisation articulaire, le couple passif peut soudainement augmenter du fait du caractère thixotropique du muscle, notamment lorsque le muscle se trouve à faible longueur avant son allongement (Vattanasilp et al., 2000). Sur la base des données de la littérature, nous suggérons ainsi de réaliser trois (Theis et al., 2016) à cinq cycles (Maïsetti et al., 2012) de mobilisation articulaire.

- Enregistrement EMG: il est nécessaire afin de s'assurer du caractère « passif » de l'investigation. Dans notre démarche expérimentale, nous nous sommes contentés de vérifier l'absence d'activation musculaire concomitante à une variation de couple passif. Cette procédure est insuffisante comme le montre l'étude récente de Le Sant et al., (2019a) qui suggère de fixer un seuil précis à ne pas dépasser.

- Traitement des données: il revêt une importance tout aussi capitale. Il apparaît nécessaire d'éviter de calculer la RP sur un secteur limité (*e.g.* 0 à 5° de FD) lorsque l'on souhaite comparer les données entre enfants sains et PC présentant des amplitudes de FD maximale significativement différentes (Alhusaini et al., 2010). En l'absence de consensus clair dans la littérature, nous avons rapporté que le calcul de la RP de l'UMT du Triceps Sural à partir de la méthode 2 (20%-80% du couple passif maximal) était à privilégier (cf. Contribution # 2).

Bien que la RP de l'UMT du muscle Triceps sural ne reflète pas strictement et spécifiquement le comportement des structures musculaires (*i.e.* soléaire et gastrocnémiens) et tendineuses (*i.e.* TA), le corps musculaire est largement considéré comme le principal contributeur de la résistance qui s'oppose à la mobilisation articulaire passive (Blazevich, 2018). Si la RP de l'UMT du muscle Triceps sural peut être calculée à partir de la relation couple-angle établie par une mesure dynamométrique, les mesures biomécaniques plus spécifiques à l'échelle du muscle et du tendon requièrent une analyse expérimentale plus complexe. L'émergence de la technologie SWE offre désormais une opportunité d'investiguer les propriétés spécifiques d'un muscle superficiel. Nous avons émis l'hypothèse que la technologie SWE peut-être mis en œuvre au sein du muscle GM de l'enfant PCU spastique afin de différencier le membre parétique et non-parétique. Notre objectif était de vérifier cette hypothèse par

le biais d'un deuxième travail expérimental (contribution # 3) et au-delà de tenter de répondre à plusieurs questions qui demeurent quant à l'utilisation de la technologie SWE chez l'enfant PC spastique : constitue-elle un outil valide et reproductible dans cette population ? Dans quelle mesure permet-elle d'accroître les connaissances scientifiques dans le champ musculo-squelettique ? Son application est-elle faisable en pratique clinique quotidienne ?

### **VII.3 Quel est l'apport des mesures SWE ?**

La technologie SWE a permis d'apporter de nouvelles connaissances sur le comportement spécifique de muscles synergistes au sein de leur UMT commune (*i.e.* muscle Triceps sural, muscles Ischio-Jambiers...). Le Sant et al., (2017) ont réalisé une cartographie du niveau de tension passive des muscles fléchisseurs plantaires dans deux positions différentes : genou en position de flexion à 90° et en position d'extension complète à 0°. Elle offre la possibilité de localiser des zones de tension passive différentes (*i.e.* proximale, intermédiaire, distale) au sein d'un même corps musculaire que ce soit chez le sujet sain (Le Sant et al., 2017) ou le sujet hémiplegique vasculaire (Le Sant et al., 2019b). Les relations entre muscles synergistes et la contribution de chacun d'entre eux à la production du couple passif peuvent dès lors être estimées. Ainsi, Edama et al., (2015) ont rapporté que le muscle GM était le principal contributeur du couple passif maximal enregistré durant l'allongement des muscles fléchisseurs plantaires, genou en position d'extension maximale.

Néanmoins, les mesures SWE réalisées au niveau d'un muscle spécifique permettent de mieux appréhender les propriétés mécaniques liées à l'amplitude maximale de FD. A titre d'exemple, l'augmentation du module de cisaillement du muscle GM à l'angle de FD maximal constatée chez l'adulte hémiplegique vasculaire par rapport au sujet sain se retrouve annulée lorsque la différence de slack angle entre les deux populations est prise en compte (Le Sant et al., 2019b). Les résultats de la contribution # 3 présentés précédemment chez le sujet PCU spastique s'inscrivent dans cette lignée :

- décalage de la relation module de cisaillement-angle articulaire de cheville vers le secteur de flexion plantaire au niveau du membre parétique par rapport au membre non-parétique ;
- absence de différence significative de la forme de la courbe module de cisaillement-angle articulaire entre les deux membres ;
- absence de différence significative des valeurs maximales de module cisaillement entre les deux membres.

Ces résultats illustrent la capacité des données SWE à préciser les phénomènes physiopathologiques liés au développement des rétractions musculo-tendineuses chez l'enfant PCU spastique.

De manière plus générale, la technologie SWE permet d'obtenir une compréhension plus claire et complète du comportement des différentes entités anatomiques les unes par rapport aux autres en permettant de dissocier la réponse de l'UMT du Triceps sural d'une part, et du muscle GM d'autre part, à leur allongement. Toutefois, les mesures SWE se limitent à l'évaluation des propriétés élastiques du muscle. Leur association avec des mesures morphologiques, obtenues par l'échographie



2D, permet de compléter les informations recueillies et de lever le doute sur la présence d'un raccourcissement musculaire, dont une des conséquences est de générer une élévation plus précoce de la tension passive au sein du muscle lors de la mobilisation articulaire.

Par contre, l'utilisation de la technologie SWE dans un contexte clinique quotidien reste incertaine. Malgré des résultats convaincants chez le sujet sain concernant la reproductibilité de la mesure du module de cisaillement au repos et sans dispositif de maintien particulier (*i.e.* pied en bout de table soumis à la force gravitationnelle, sujets allongés en décubitus ventral; Dubois et al., 2015; Lacourpaille et al., 2012), les résultats sont plus controversés chez le sujet hémiplegique vasculaire et le sujet PC. De façon surprenante, Mathevon et al., (2018) ont ainsi rapporté une bonne reproductibilité de la mesure du module de cisaillement du muscle GM au repos au niveau du membre parétique (CV=9,86%) mais pas au niveau du membre non-parétique (CV=17,64%) chez le sujet hémiplegique vasculaire. Les données recueillies au niveau du muscle GM évalué dans les mêmes conditions au sein d'un groupe de 10 sujets PCU (Age=7,5, GMFCS I) étaient sensiblement identiques ( $11,21\% \leq CV \leq 14,31\%$  et  $8,09\% \leq CV \leq 10,62\%$  au niveau des membres parétique et non-parétique, respectivement) (Données personnelles, article soumis à la revue *Ultrasound in Medicine and Biology*). A notre connaissance, aucune étude n'a été réalisée concernant la reproductibilité des mesures du module de cisaillement réalisées durant la totalité du secteur articulaire de cheville. Nos travaux personnels ont mis en évidence la difficulté de réaliser chez l'enfant PCU des mesures inter-session reproductibles sur l'ensemble du secteur articulaire de cheville (Données personnelles, non publiées). Plusieurs difficultés ont ainsi pu être mises en évidence ;

- la nécessité de réaliser la mesure au sein d'une zone écho-anatomique standardisée.
- la nécessité de réaliser la mesure chez un sujet au repos, sans mouvements parasites, ce qui relève souvent de la gageure chez l'enfant.
- la pression appliquée sur la peau à l'aide de la sonde (Kot et al., 2012) influence fortement les mesures et doit rester minimale.
- l'orientation de la sonde par rapport aux fascicules musculaires a également une importance capitale. La sonde doit ainsi être positionnée dans l'axe des fascicules musculaires (Eby et al., 2013).

Par ailleurs, si l'enregistrement du module de cisaillement de façon dynamique sur l'ensemble du secteur articulaire de cheville permettait d'apporter des données plus complètes qu'une simple mesure réalisée à angle fixe, une telle procédure reste complexe à mettre en œuvre. Elle nécessite en effet l'utilisation commune d'un dynamomètre et de l'appareil SWE, qui à lui seul représente un investissement financier conséquent. Pour toutes ces raisons, l'utilisation de la technologie SWE reste à ce jour réservée à une application de recherche clinique, le plus souvent en laboratoire.

A l'instar de plusieurs travaux réalisés chez l'adulte sain, nous avons utilisé la technologie SWE afin d'évaluer les effets d'une technique d'étirement globale des muscles fléchisseurs plantaires

sur le module de cisaillement d'un muscle spécifique tel que le GM. Notre hypothèse était que la technologie SWE permettait de mettre en évidence une modification des propriétés élastiques du muscle GM parétique et spastique chez l'enfant PCU par la réalisation d'étirements passifs de haute intensité et de longue durée. Notre objectif était de vérifier cette hypothèse par le biais des contributions # 4 et 5.

#### **VII.4 Comment mettre en œuvre des techniques d'étirements efficaces chez le sujet PC ?**

Les techniques d'étirements sont quotidiennement proposées aux enfants PC. Leur objectif est de prévenir ou de traiter le développement des rétractions et ainsi d'optimiser la fonction tout au long de la croissance. Pourtant, ces techniques n'ont pas fait la preuve de leur efficacité. La revue systématique de Harvey et al., (2017) a confirmé l'absence de preuves d'efficacité des programmes d'étirements passifs de longue durée sur le gain d'amplitude articulaire chez les sujets présentant une affection neurologique. Chez l'enfant PC, il a été rapporté qu'une unique session d'étirement des muscles fléchisseurs plantaires permet un gain d'amplitude articulaire de cheville ( $10^\circ$  chez le sujet GMFCS I-II) alors qu'un programme d'étirement de longue durée peut apparaître moins convaincant (gain de  $3^\circ$  après 8 semaines d'étirement chez le sujet GMFCS III-IV). Au-delà de l'amplitude articulaire, Freitas et al., (2018) ont rapporté dans une revue systématique l'absence d'effet des programmes d'étirement allant de 3 à 8 semaines sur les propriétés musculaires et/ou tendineuses chez le sujet sain. Chez le sujet hémiparétique vasculaire, l'hétérogénéité des protocoles et des paramètres utilisés lors des études empêche toute conclusion claire concernant leurs effets sur les propriétés musculaires (Lecharte et al., 2020). Il a été rapporté un gain significatif de longueur des fascicules musculaires des muscles gastrocnémiens après un programme d'étirement à domicile d'une année chez le sujet hémiparétique vasculaire (Pradines et al., 2019). Chez l'enfant PC, Kalkman et al., (2018b) ont rapporté l'absence d'influence d'une unique session d'étirement des muscles fléchisseurs plantaires sur la valeur de RP du muscle GM chez l'enfant PC GMFCS I-II, et Theis et al., (2015) ont retrouvé une diminution respectivement de 32% et de 13% de la RP de l'UMT du Triceps sural et du muscle GM après 8 semaines d'étirement chez l'enfant PC GMFCS III-IV.

L'hétérogénéité des protocoles mis en œuvre et notamment l'absence de description et/ou de contrôle de certains paramètres tels que l'intensité et/ou la durée/le volume des étirements pourraient expliquer en partie ces résultats controversés (Apostolopoulos et al., 2015; Lecharte et al., 2020). Les travaux chez l'adulte sain ont montré à partir de mesures SWE qu'une haute intensité d'étirement ( $\geq 80\%$  du couple passif maximal) était nécessaire afin d'avoir un réel impact sur le niveau de tension passive du muscle GM (Freitas et al., 2015). Il a été rapporté chez le sujet sain que la diminution de la RP de l'UMT du muscle Triceps sural était dose-dépendante (*i.e.* plus le volume d'étirement est important, plus la diminution de RP est forte) (Fowles et al., 2000; Ryan et al., 2008). Nos résultats semblent confirmer la difficulté de modifier les propriétés mécaniques de l'UMT et du muscle GM à

travers une simple session d'étirement (contributions # 4), mais ne permettent pas d'exclure leur intérêt clinique. Cependant, notre expérience clinique chez l'enfant PC éclaire la difficulté de proposer aux enfants et à leurs familles des moyens adaptés à la réalisation des étirements de longue durée avec des paramètres optimaux. En institution, les « postures » d'étirement répondent à des installations artisanales, donc loin d'être optimales, qui ne permettent pas de contrôler de façon objective l'intensité de l'étirement. A domicile, la problématique est amplifiée par l'absence de matériels spécifiques, obligeant les familles à mettre en œuvre des installations artisanales et fastidieuses qui peuvent se révéler inadaptées, donc inefficaces. Compte tenu de l'importance rapportée dans la littérature d'utiliser des paramètres contrôlés et définis, il est nécessaire d'envisager et de valider des modalités thérapeutiques d'étirements passifs qui soient à la fois réalisables et efficaces.

## VIII. Conclusion et perspectives

Notre hypothèse de travail était de considérer le paramètre de « *raideur passive* » (RP) comme un élément fondamental à prendre en compte dans la compréhension de l'hyper-résistance du muscle parétique et spastique de l'enfant PC, de la même façon que la spasticité. En premier lieu, ce travail de thèse met en évidence la signification physiologique plurielle du terme de « *raideur passive* », à l'instar du terme de « *spasticité* ». Différemment identifié dans la littérature, il apparaît indispensable de considérer trois paramètres fondamentaux :

- Une définition précise de la RP : ainsi, nous proposons une définition strictement biomécanique du terme de « *raideur passive* » (RP) comme la quantité de force nécessaire à la mobilisation d'une structure anatomique sur un secteur d'amplitude donné.

- Le choix du matériel et de la méthode de mesure utilisés :

Les expérimentations menées chez l'enfant PCU spastique ont montré que la mesure de la RP de l'UMT du Triceps sural à l'aide d'un dynamomètre isocinétique était faisable et reproductible dans un contexte de suivi clinique. Nos résultats ont montré que la mesure de la  $RP_{abs}$  permettait de différencier le membre parétique du membre non-parétique de l'enfant PCU contrairement à la mesure de la  $RP_{rel}$ . Sur la base des mesures complémentaires menées en échographie et en SWE au sein du muscle GM, ces résultats peuvent être interprétés comme à l'origine d'une altération des propriétés morphologiques (*i.e.* diminution de longueur du corps musculaire, allongement du tendon) au niveau de l'UMT du Triceps sural du membre parétique par rapport au membre non-parétique. Cependant, lors de la croissance, le rôle des propriétés élastiques dans la diminution progressive de l'amplitude maximale de FD de la cheville parétique par rapport au côté opposé pourrait être ainsi limité. Des études complémentaires incluant des comparaisons avec des enfants sains appariés en âge semblent nécessaires pour améliorer notre compréhension des mécanismes menant au développement des rétractions durant la croissance. Les mesures morphologiques par échographie doivent être couplées aux mesures mécaniques afin d'avoir une vision plus complète du comportement musculaire.

- Un traitement des données adapté :

Ce travail de thèse a confirmé chez l'enfant PCU que la technologie SWE constitue une opportunité de mieux comprendre les propriétés musculaires d'un muscle spécifique (*i.e.* GM) au sein de son UMT (*i.e.* Triceps sural) ainsi que l'impact d'une technique thérapeutique telle qu'une session d'étirements passifs. Le paramètre de slack angle d'un muscle spécifique dont le calcul est permis par les mesures SWE, apparaît d'autant plus pertinent qu'il renseigne à la fois sur les propriétés morphologiques que mécaniques. Néanmoins, des travaux complémentaires cherchant à définir d'une part la réalité physiopathologique de cette mesure, d'autre part les preuves de sa validité et de sa reproductibilité, sont nécessaires avant d'envisager son application clinique.

D'autre part le lien entre la mesure de RP de l'UMT du Triceps sural telle que nous l'avons réalisée et l'angle de FD maximal apparaît incertain chez l'enfant PC. Il pourrait notamment différer en fonction du degré de rétraction des muscles gastrocnémiens parétiques et spastiques. Des travaux complémentaires cherchant à étudier ce lien en fonction des caractéristiques morphologiques des muscles concernés sont également nécessaires. Néanmoins, l'établissement de la relation couple-angle permet d'éclairer le comportement de l'UMT parétique et spastique lors de son allongement passif et de mieux comprendre la cinétique de développement des rétractions au cours de la croissance des enfants PC spastiques. C'est particulièrement vrai pour le muscle Triceps sural, la plupart du temps affecté par des déficits neuromusculaires multiples et par conséquent cible de traitements répétés tout au long de la croissance (*i.e.* injections de toxine botulique, plâtres d'allongement) aux effets non négligeables sur les propriétés musculaires (*i.e.* atrophie).

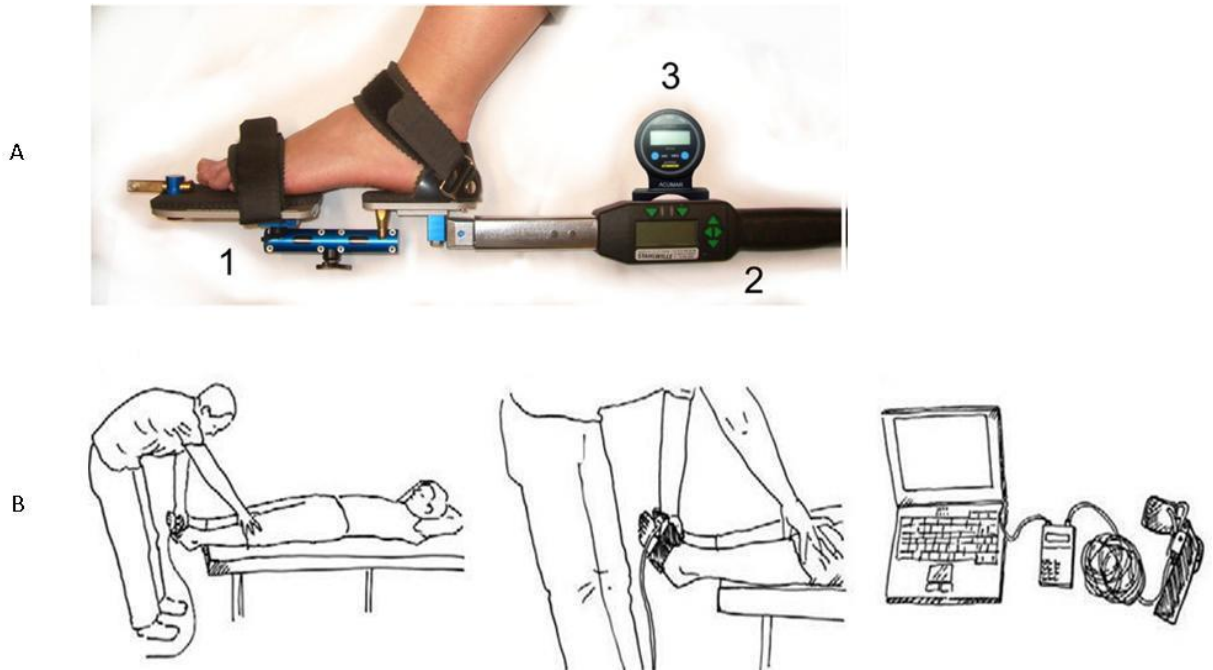
Au-delà de l'évolution naturelle de la paralysie cérébrale, l'établissement de la relation couple-angle tout au long de la croissance permettrait d'évaluer les effets des traitements sur les propriétés musculaires. Cette information apparaît désormais nécessaire pour à la fois comprendre les effets des techniques d'étirements passifs, quotidiennement instaurées chez l'enfant PC spastique, et préciser/contrôler leurs modalités d'application (*i.e.* intensité) ou même d'autres techniques de rééducation pouvant avoir un effet sur les propriétés musculaires.

D'autres modalités thérapeutiques (*i.e.* entraînement à la marche sur tapis roulant incliné (Willerslev-Olsen et al., 2014b), stimulation électrique fonctionnelle (Damiano et al., 2013; Pool et al., 2016), renforcement musculaire intensif (Gillett et al., 2016)...) ont récemment démontré un effet bénéfique dans l'amélioration des propriétés musculaires des muscles Tibial antérieur/Triceps sural. Leur association avec les techniques d'étirements passifs pourrait ainsi optimiser les résultats thérapeutiques et permettre ainsi un effet significatif sur la plasticité musculaire (Kalkman et al., 2020)

Plusieurs questions restent toutefois en suspens : quels sont les effets des programmes thérapeutiques à long terme ? Le muscle spastique de l'enfant PC possède-t-il une capacité de remodelage significative ? Dans quelle mesure une amélioration des propriétés musculaires (*e.g.* gain de longueur fasciculaire) se traduit-elle par un gain de production de force et une amélioration de la fonction (Kalkman et al., 2020) ?

En conclusion, nous pensons que l'évaluation régulière des propriétés morphologiques (*i.e.* longueur et volume) et élastiques (*i.e.* RP) du muscle parétique et spastique permettrait (1) de mieux comprendre le développement des rétractions et ainsi d'optimiser le suivi clinique des enfants PC, (2) d'évaluer l'impact des traitements répétés (*i.e.* injections de toxine botulique...) et des programmes thérapeutiques de longue durée (*i.e.* programme d'étirement et/ou de renforcement musculaire). A l'image des courbes de croissance staturo-pondérale établies dans l'enfance, il serait opportun d'établir un outil similaire de suivi de la croissance de certains groupes musculaires à risque de rétractions chez l'enfant PC (*i.e.* Triceps sural, Ischio-Jambiers...) afin de répondre aux deux objectifs primordiaux susnommés.

Atteindre de tels objectifs suppose d'être en capacité de réaliser des évaluations quotidiennes de façon simplifiée, au « lit du malade » si les conditions l'imposent et donc à l'aide d'un matériel portable s'adaptant à la morphologie de l'enfant en croissance. Des dispositifs permettant de mesurer le couple passif de cheville lors de la mobilisation articulaire ont déjà été testés avec succès chez l'enfant PC (Bénard et al., 2010) et le sujet adulte blessé médullaire et présentant une sclérose en plaque (Figure 54) (Lorentzen et al., 2012).



**Figure 54: Exemples de dispositifs portables instrumentés permettant d'enregistrer le couple passif produit lors de la mobilisation de la cheville chez le sujet présentant une affection neurologique centrale (D'après A : Bénard et al., 2010 ; B : Lorentzen et al., 2012).**

Il semble donc possible d'imaginer un outil adapté à la population pédiatrique permettant dans un premier temps un positionnement standardisé des articulations distales du sujet (*i.e.* cheville, pied). Complété par un système EMG et/ou un échographe 2D d'utilisation simplifiée, l'objectif d'un tel dispositif serait d'obtenir de façon quotidienne au sein des services de rééducation des mesures proches de celles produites dans les laboratoires d'analyse du mouvement.

A la suite de ce travail de thèse, il semble opportun de poursuivre ces travaux chez l'enfant PC spastique. Au sein de notre laboratoire, plusieurs projets peuvent être envisagés : appliquer la technologie SWE aux muscles ischio-jambier, évaluer d'autres modalités thérapeutiques (*i.e.* stimulation électrique fonctionnelle...), établir les relations entre les propriétés élastiques du muscle et les paramètres cliniques et/ou de marche...

## IX. Références

- Abellaneda, S., Guissard, N., and Duchateau, J. (2009). The relative lengthening of the myotendinous structures in the medial gastrocnemius during passive stretching differs among individuals. *Journal of Applied Physiology* 106, 169–177.
- Alexander, C., Elliott, C., Valentine, J., Stannage, K., Bear, N., Donnelly, C.J., Shipman, P., and Reid, S. (2018). Muscle volume alterations after first botulinum neurotoxin A treatment in children with cerebral palsy: a 6-month prospective cohort study. *Developmental Medicine & Child Neurology* 60, 1165–1171.
- Alhusaini, A.A., Crosbie, J., Shepherd, R.B., Dean, C.M., and Scheinberg, A. (2010). Mechanical properties of the plantarflexor musculotendinous unit during passive dorsiflexion in children with cerebral palsy compared with typically developing children: Calf Muscle Stiffness in Children with CP. *Developmental Medicine & Child Neurology* 52, e101–e106.
- Andrade, R.J., Lacourpaille, L., Freitas, S.R., McNair, P.J., and Nordez, A. (2016). Effects of hip and head position on ankle range of motion, ankle passive torque, and passive gastrocnemius tension: Hip angle effects on ankle passive mechanical properties. *Scandinavian Journal of Medicine & Science in Sports* 26, 41–47.
- Apostolopoulos, N., Metsios, G.S., Flouris, A.D., Koutedakis, Y., and Wyon, M.A. (2015). The relevance of stretch intensity and position—a systematic review. *Frontiers in Psychology* 18;6:1128.
- Attias, M., Chevalley, O., Bonnefoy-Mazure, A., De Coulon, G., Cheze, L., and Armand, S. (2016). Effects of contracture on gait kinematics: A systematic review. *Clinical Biomechanics* 33, 103–110.
- Ballaz, L., Plamondon, S., and Lemay, M. (2010). Ankle range of motion is key to gait efficiency in adolescents with cerebral palsy. *Clinical Biomechanics* 25, 944–948.
- Bandholm, T., Magnusson, P., Jensen, B.R., and Sonne-Holm, S. Dorsiflexor muscle-group thickness in children with cerebral palsy: Relation to cross-sectional area. 24(4):299-306.
- Barber, L., Barrett, R., and Lichtwark, G. (2011). Passive muscle mechanical properties of the medial gastrocnemius in young adults with spastic cerebral palsy. *Journal of Biomechanics* 44, 2496–2500.
- Barber, L., Barrett, R., and Lichtwark, G. (2012). Medial gastrocnemius muscle fascicle active torque-length and Achilles tendon properties in young adults with spastic cerebral palsy. *Journal of Biomechanics* 45, 2526–2530.
- Barber, L., Hastings-Ison, T., Baker, R., Kerr Graham, H., Barrett, R., and Lichtwark, G. (2013). The effects of botulinum toxin injection frequency on calf muscle growth in young children with spastic cerebral palsy: a 12-month prospective study. *Journal of Children’s Orthopaedics* 7, 425–433.
- Barber, L., Carty, C., Modenese, L., Walsh, J., Boyd, R., and Lichtwark, G. (2017). Medial gastrocnemius and soleus muscle-tendon unit, fascicle, and tendon interaction during walking in children with cerebral palsy. *Developmental Medicine & Child Neurology* 59, 843–851.
- Barber, L.A., Read, F., Lovatt Stern, J., Lichtwark, G., and Boyd, R.N. (2016). Medial gastrocnemius muscle volume in ambulant children with unilateral and bilateral cerebral palsy aged 2 to 9 years. *Developmental Medicine & Child Neurology* 58, 1146–1152.

- Bar-On, L., Aertbeliën, E., Wambacq, H., Severijns, D., Lambrecht, K., Dan, B., Huenaerts, C., Bruyninckx, H., Janssens, L., Van Gestel, L., et al. (2013). A clinical measurement to quantify spasticity in children with cerebral palsy by integration of multidimensional signals. *Gait & Posture* 38, 141–147.
- Bar-On, L., Van Campenhout, A., Desloovere, K., Aertbeliën, E., Huenaerts, C., Vandendoorent, B., Nieuwenhuys, A., and Molenaers, G. (2014a). Is an Instrumented Spasticity Assessment an Improvement Over Clinical Spasticity Scales in Assessing and Predicting the Response to Integrated Botulinum Toxin Type A Treatment in Children With Cerebral Palsy? *Archives of Physical Medicine and Rehabilitation* 95, 515–523.
- Bar-On, L., Aertbeliën, E., Molenaers, G., and Desloovere, K. (2014b). Muscle Activation Patterns When Passively Stretching Spastic Lower Limb Muscles of Children with Cerebral Palsy. *PLoS ONE* 20;9(3):e91759.
- Bar-On, L., Molenaers, G., Aertbeliën, E., Van Campenhout, A., Feys, H., Nuttin, B., and Desloovere, K. (2015). Spasticity and Its Contribution to Hypertonia in Cerebral Palsy. *BioMed Research International* 2015, 1–10.
- Bar-On, L., Kalkman, B., Cenni, F., O'Brien, T., Holmes, G., Bass, A., Barton, G., C. N. Maganaris, Schless, S., and Molenaers (2016). Muscle and tendon properties during fast passive stretch are different in stiff and spastic muscles in children with spastic cerebral palsy. *Gait & Posture* 49, 11–12.
- Bar-On, L., Kalkman, B.M., Cenni, F., Schless, S.-H., Molenaers, G., Maganaris, C.N., Bass, A., Holmes, G., Barton, G.J., O'Brien, T.D., et al. (2018). The Relationship Between Medial Gastrocnemius Lengthening Properties and Stretch Reflexes in Cerebral Palsy. *Frontiers in Pediatrics* 4;6:259.
- Barrett, R.S., and Lichtwark, G.A. (2010). Gross muscle morphology and structure in spastic cerebral palsy: a systematic review: Gross Muscle Morphology and Structure in CP. *Developmental Medicine & Child Neurology* 52, 794–804.
- Bax, M., Goldstein, M., Rosenbaum, P., Leviton, A., Paneth, N., Dan, B., Jacobsson, B., and Damiano, D. (2005). Proposed definition and classification of cerebral palsy, April 2005. *Developmental Medicine & Child Neurology* 47, 571–576.
- Bénard, M.R., Jaspers, R.T., Huijing, P.A., Becher, J.G., and Harlaar, J. (2010). Reproducibility of hand-held ankle dynamometry to measure altered ankle moment-angle characteristics in children with spastic cerebral palsy. *Clinical Biomechanics* 25, 802–808.
- Bénard, M.R., Harlaar, J., Becher, J.G., Huijing, P.A., and Jaspers, R.T. (2011). Effects of growth on geometry of gastrocnemius muscle in children: a three-dimensional ultrasound analysis: Geometry of gastrocnemius medialis muscle in children. *Journal of Anatomy* 219, 388–402.
- Bilgici, M.C., Bekci, T., Ulus, Y., Ozyurek, H., Aydin, O.F., Tomak, L., and Selcuk, M.B. (2017). Quantitative assessment of muscular stiffness in children with cerebral palsy using acoustic radiation force impulse (ARFI) ultrasound elastography. *Journal of Medical Ultrasonics*. 45(2):295-300.
- Blazevich, A.J. (2018). Adaptations in the passive mechanical properties of skeletal muscle to altered patterns of use. *Journal of Applied Physiology* 126, 1483–1491.
- Blazevich, A.J., Cannavan, D., Waugh, C.M., Fath, F., Miller, S.C., and Kay, A.D. (2012). Neuromuscular factors influencing the maximum stretch limit of the human plantar flexors. *Journal of Applied Physiology* 113, 1446–1455.



- Boiteau, M., Malouin, F., and Richards, C. (1995). Use of Hand Held Dynamometer and a Kin-Com Dynamometer for Evaluating Spastic Hypertonia in Children: A Reliability Study. *Physical Therapy* 75, 796–802.
- Booth, C.M., Cortina-Borja, M.J.F., and Theologis, T.N. (2007). Collagen accumulation in muscles of children with cerebral palsy and correlation with severity of spasticity. *Developmental Medicine & Child Neurology* 43, 314–320.
- Boulard, C., Gross, R., Gautheron, V., and Lapole, T. (2019a). What causes increased passive stiffness of plantarflexor muscle–tendon unit in children with spastic cerebral palsy? *Eur J Appl Physiol* 119, 2151–2165.
- Boulard, C., Gautheron, V., and Lapole, T. (2019b). Reliability outcomes and inter-limb differences in ankle joint stiffness in children with unilateral cerebral palsy depend on the method of analysis. *Journal of Electromyography and Kinesiology* Dec;49:102353.
- Brandenburg, J.E., Eby, S.F., Song, P., Kingsley-Berg, S., Bamlet, W., Sieck, G.C., and An, K.-N. (2016). Quantifying passive muscle stiffness in children with and without cerebral palsy using ultrasound shear wave elastography. *Developmental Medicine & Child Neurology* 58, 1288–1294.
- Brandenburg, J.E., Eby, S.F., Song, P., Bamlet, W.R., Sieck, G.C., and An, K.-N. (2018). Quantifying Effect of Onabotulinum Toxin A on Passive Muscle Stiffness in Children with Cerebral Palsy Using Ultrasound Shear Wave Elastography: *American Journal of Physical Medicine & Rehabilitation* 97, 500–506.
- de Bruin, M., Smeulders, M.J., Kreulen, M., Huijing, P.A., and Jaspers, R.T. (2014). Intramuscular Connective Tissue Differences in Spastic and Control Muscle: A Mechanical and Histological Study. *PLoS ONE* 30;9(6):e101038.
- Cahill-Rowley, K., and Rose, J. (2014). Etiology of impaired selective motor control: emerging evidence and its implications for research and treatment in cerebral palsy. *Developmental Medicine & Child Neurology* 56, 522–528.
- Cans, C. (2007). Surveillance of cerebral palsy in Europe: a collaboration of cerebral palsy surveys and registers. *Developmental Medicine & Child Neurology* 42, 816–824.
- Ceyhan Bilgici, M., Bekci, T., Ulus, Y., Bilgici, A., Tomak, L., and Selcuk, M.B. (2018). Quantitative assessment of muscle stiffness with acoustic radiation force impulse elastography after botulinum toxin A injection in children with cerebral palsy. *Journal of Medical Ultrasonics* 45, 137–141.
- Chabrier, S., Roubertie, A., Allard, D., Bonhomme, C., and Gautheron, V. (2010). Hémiplégie cérébrale infantile : épidémiologie, aspects étiologiques et développements thérapeutiques récents. *Revue Neurologique* 166, 565–573.
- Chernak, L.A., DeWall, R.J., Lee, K.S., and Thelen, D.G. (2013). Length and activation dependent variations in muscle shear wave speed. *Physiological Measurement* 34, 713–721.
- Chesworth, B., and Vandervoort, A. (1988). Reliability of a torque motor system for measurement of passive ankle joint stiffness in control subjects. *Physiother Can* 40, 300–303.
- Choi, J.Y., Park, E.S., Park, D., and Rha, D. (2018). Dynamic spasticity determines hamstring length and knee flexion angle during gait in children with spastic cerebral palsy. *Gait & Posture* 64, 255–259.
- Chruscikowski, E., Fry, N.R.D., Noble, J.J., Gough, M., and Shortland, A.P. (2017). Selective motor control correlates with gait abnormality in children with cerebral palsy. *Gait & Posture* 52, 107–109.

- Cobeljic, G., Bumbasirevic, M., Lesic, A., and Bajin, Z. (2009). The management of spastic equinus in cerebral palsy. *Orthopaedics and Trauma* 23, 201–209.
- Cohen, J. (1969). *Statistical power analysis for the behavioural sciences*.
- Creze, M., Nordez, A., Soubeyrand, M., Rocher, L., Maître, X., and Bellin, M.-F. (2018). Shear wave sonoelastography of skeletal muscle: basic principles, biomechanical concepts, clinical applications, and future perspectives. *Skeletal Radiology* 47, 457–471.
- Cronin, N.J., and Lichtwark, G. (2013). The use of ultrasound to study muscle–tendon function in human posture and locomotion. *Gait & Posture* 37, 305–312.
- Cronin, N.J., Avela, J., Finni, T., and Peltonen, J. (2013). Differences in contractile behaviour between the soleus and medial gastrocnemius muscles during human walking. *Journal of Experimental Biology* 216, 909–914.
- Crosbie, J., Alhusaini, A.A.A., Dean, C.M., and Shepherd, R.B. (2012). Plantarflexor muscle and spatiotemporal gait characteristics of children with hemiplegic cerebral palsy: an observational study. *Developmental Neurorehabilitation* 15, 114–118.
- Damiano, D., Abel, M., Romness, M., Oeffinger, D., Tylkowski, C., Gorton, G., Bagley, A., Nicholson, D., Barnes, D., Calmes, J., et al. (2007). Comparing functional profiles of children with hemiplegic and diplegic cerebral palsy in GMFCS Levels I and II: are separate classifications needed? *Developmental Medicine & Child Neurology* 48, 797–803.
- Damiano, D.L., Quinlivan, J.M., Owen, B.F., Payne, P., Nelson, K.C., and Abel, M.F. (2002a). What does the Ashworth scale really measure and are instrumented measures more valid and precise? *Developmental Medicine and Child Neurology* 44, 112–118.
- Damiano, D.L., Dodd, K., and Taylor, N.F. (2002b). Should we be testing and training muscle strength in cerebral palsy? *Dev Med Child Neuro* 44, 68–72.
- Damiano, D.L., Prosser, L.A., Curatalo, L.A., and Alter, K.E. (2013). Muscle Plasticity and Ankle Control After Repetitive Use of a Functional Electrical Stimulation Device for Foot Drop in Cerebral Palsy. *Neurorehabilitation and Neural Repair* 27, 200–207.
- Dayanidhi, S., and Lieber, R.L. (2014). Skeletal muscle satellite cells: Mediators of muscle growth during development and implications for developmental disorders: Satellite Cells during Growth. *Muscle & Nerve* 50, 723–732.
- Dayanidhi, S., Dykstra, P.B., Lyubasyuk, V., McKay, B.R., Chambers, H.G., and Lieber, R.L. (2015). Reduced satellite cell number in situ in muscular contractures from children with cerebral palsy. *Journal of Orthopaedic Research* 33, 1039–1045.
- Delwaïde, P. (1993). Spasticity. Motor control course.. Presented at 1993 American Academy of Neurology Annual Meetings.
- Desloovere, K., Molenaers, G., Feys, H., Huenaerts, C., Callewaert, B., and Walle, P.V. de (2006). Do dynamic and static clinical measurements correlate with gait analysis parameters in children with cerebral palsy? *Gait & Posture* 24, 302–313.
- DeWall, R.J., Slane, L.C., Lee, K.S., and Thelen, D.G. (2014). Spatial variations in Achilles tendon shear wave speed. *Journal of Biomechanics* 47, 2685–2692.

- Domagalska, M., Szopa, A., Syczewska, M., Pietraszek, S., Kidoń, Z., and Onik, G. (2013). The relationship between clinical measurements and gait analysis data in children with cerebral palsy. *Gait & Posture* 38, 1038–1043.
- Domenighetti, A.A., Mathewson, M.A., Pichika, R., Sibley, L.A., Zhao, L., Chambers, H.G., and Lieber, R.L. (2018). Loss of myogenic potential and fusion capacity of muscle stem cells isolated from contracted muscle in children with cerebral palsy. *American Journal of Physiology-Cell Physiology* 1;315(2):C247-C257.
- Dubois, G., Kheireddine, W., Vergari, C., Bonneau, D., Thoreux, P., Rouch, P., Tanter, M., Gennisson, J.-L., and Skalli, W. (2015). Reliable Protocol for Shear Wave Elastography of Lower Limb Muscles at Rest and During Passive Stretching. *Ultrasound in Medicine & Biology* 41, 2284–2291.
- Eby, S., Chen, Q., Greenleaf, J., and An, K. (2013). Validation of shear wave elastography in skeletal muscle. *J Biomech* 14, 2381–2387.
- Edama, M., Onishi, H., Kumaki, K., Kageyama, I., Watanabe, H., and Nashimoto, S. (2015). Effective and selective stretching of the medial head of the gastrocnemius: Effective and selective stretching. *Scandinavian Journal of Medicine & Science in Sports* 25, 242–250.
- Eek, M.N., and Himmelmann, K. (2016). No Decrease in Muscle Strength after Botulinum Neurotoxin-A Injection in Children with Cerebral Palsy. *Front. Hum. Neurosci.* 6;10:506.
- Elder, G.C.B., BSc, G.S., Pt, K.C., MSc, D.W., Marshall, A., and Leahey, L. (2007). Contributing factors to muscle weakness in children with cerebral palsy. *Developmental Medicine & Child Neurology* 45, 542–550.
- Farmer, S.E., and James, M. (2001). Contractures in orthopaedic and neurological conditions: a review of causes and treatment. *Disabil Rehabil* 23, 549–558.
- Fleiss, J.-L. (1981). The measurement of interrater agreement, *Statistical Methods for Rates and Proportions* 2.
- Foran, J.R., Steinman, S., Barash, I., Chambers, H.G., and Lieber, R.L. (2007). Structural and mechanical alterations in spastic skeletal muscle. *Developmental Medicine & Child Neurology* 47, 713–717.
- Fosang, A.L., Galea, M.P., McCoy, A.T., Reddihough, D.S., and Story, I. (2007). Measures of muscle and joint performance in the lower limb of children with cerebral palsy. *Developmental Medicine & Child Neurology* 45, 664–670.
- Fowler, E.G., Staudt, L.A., Greenberg, M.B., and Oppenheim, W.L. (2009). Selective Control Assessment of the Lower Extremity (SCALE): development, validation, and interrater reliability of a clinical tool for patients with cerebral palsy. *Developmental Medicine & Child Neurology* 51, 607–614.
- Fowler, E.G., Staudt, L.A., and Greenberg, M.B. (2010). Lower-extremity selective voluntary motor control in patients with spastic cerebral palsy: increased distal motor impairment: Selective Voluntary Motor Control in Patients with CP. *Developmental Medicine & Child Neurology* 52, 264–269.
- Fowles, J.R., Sale, D.G., and MacDougall, J.D. (2000). Reduced strength after passive stretch of the human plantarflexors. *Journal of Applied Physiology* 89, 1179–1188.

- Fox, A.S., Carty, C.P., Modenese, L., Barber, L.A., and Lichtwark, G.A. (2018). Simulating the effect of muscle weakness and contracture on neuromuscular control of normal gait in children. *Gait & Posture* 61, 169–175.
- Freire, B., Dias, C.P., Goulart, N.B.A., de Castro, C.D., Becker, J., Gomes, I., and Vaz, M.A. (2017). Achilles tendon morphology, plantar flexors torque and passive ankle stiffness in spastic hemiparetic stroke survivors. *Clinical Biomechanics* 41, 72–76.
- Freitas, S.R., Andrade, R.J., Larcoupaille, L., Mil-homens, P., and Nordez, A. (2015). Muscle and joint responses during and after static stretching performed at different intensities. *European Journal of Applied Physiology* 115, 1263–1272.
- Freitas, S.R., Andrade, R.J., Nordez, A., Mendes, B., and Mil-Homens, P. (2016). Acute muscle and joint mechanical responses following a high-intensity stretching protocol. *European Journal of Applied Physiology* 116, 1519–1526.
- Freitas, S.R., Mendes, B., Le Sant, G., Andrade, R.J., Nordez, A., and Milanovic, Z. (2018). Can chronic stretching change the muscle-tendon mechanical properties? A review. *Scandinavian Journal of Medicine & Science in Sports* 28, 794–806.
- Frisk, R.F., Lorentzen, J., Barber, L., and Nielsen, J.B. (2019). Characterization of torque generating properties of ankle plantar flexor muscles in ambulant adults with cerebral palsy. *Eur J Appl Physiol* 119, 1127–1136.
- Gage, j, Schwartz, M, Koop, S, and Novacheck, T (2009). The identification and treatment of gait problems in cerebral palsy. (Mac Keith Press, London).
- Gajdosik, R.L. (2001). Passive extensibility of skeletal muscle: review of the literature with clinical implications. *Clinical Biomechanics* 16, 87–101.
- Gao, F., Ren, Y., Roth, E.J., Harvey, R., and Zhang, L.-Q. (2011). Effects of repeated ankle stretching on calf muscle–tendon and ankle biomechanical properties in stroke survivors. *Clinical Biomechanics* 26, 516–522.
- Geertsens, S.S., Kirk, H., Lorentzen, J., Jorsal, M., Johansson, C.B., and Nielsen, J.B. (2015). Impaired gait function in adults with cerebral palsy is associated with reduced rapid force generation and increased passive stiffness. *Clinical Neurophysiology* 126, 2320–2329.
- Gillett, J.G., Boyd, R.N., Carty, C.P., and Barber, L.A. (2016). The impact of strength training on skeletal muscle morphology and architecture in children and adolescents with spastic cerebral palsy: A systematic review. *Research in Developmental Disabilities* 56, 183–196.
- Gillett, J.G., Lichtwark, G.A., Boyd, R.N., and Barber, L.A. (2018). Functional Capacity in Adults With Cerebral Palsy: Lower Limb Muscle Strength Matters. *Archives of Physical Medicine and Rehabilitation* 99, 900-906.e1.
- Goldberg, E.J., and Neptune, R.R. (2007). Compensatory strategies during normal walking in response to muscle weakness and increased hip joint stiffness. *Gait & Posture* 25, 360–367.
- Goldstein, M., and Harper, D.C. (2007). Management of cerebral palsy: equinus gait. *Developmental Medicine & Child Neurology* 43, 563–569.
- de Gooijer-van de Groep, K.L., de Vlugt, E., de Groot, J.H., van der Heijden-Maessen, H.C., Wielheesen, D.H., van Wijlen-Hempel, R. (M) S., Arendzen, J., and Meskers, C.G. (2013). Differentiation between non-neural and neural contributors to ankle joint stiffness in cerebral palsy. *Journal of NeuroEngineering and Rehabilitation* 23;10:81.

- Gough, M., and Shortland, A.P. (2012). Could muscle deformity in children with spastic cerebral palsy be related to an impairment of muscle growth and altered adaptation?: Review. *Developmental Medicine & Child Neurology* 54, 495–499.
- Gracies, J.-M. (2005a). Pathophysiology of spastic paresis. II: Emergence of muscle overactivity. *Muscle & Nerve* 31, 552–571.
- Gracies, J.-M. (2005b). Pathophysiology of spastic paresis. I: Paresis and soft tissue changes. *Muscle Nerve* 31, 535–551.
- Gracies, J.-M. (2015). Coefficients of impairment in deforming spastic paresis. *Annals of Physical and Rehabilitation Medicine* 58, 173–178.
- Gracies, J.-M., Burke, K., Clegg, N.J., Browne, R., Rushing, C., Fehlings, D., Matthews, D., Tilton, A., and Delgado, M.R. (2010). Reliability of the Tardieu Scale for Assessing Spasticity in Children With Cerebral Palsy. *Archives of Physical Medicine and Rehabilitation* 91, 421–428.
- Gross, R., Leboeuf, F., Hardouin, J.B., Lempereur, M., Perrouin-Verbe, B., Remy-Neris, O., and Brochard, S. (2013). The influence of gait speed on co-activation in unilateral spastic cerebral palsy children. *Clinical Biomechanics* 28, 312–317.
- Gross, R., Leboeuf, F., Hardouin, J.B., Perrouin-Verbe, B., Brochard, S., and Rémy-Néris, O. (2015). Does muscle coactivation influence joint excursions during gait in children with and without hemiplegic cerebral palsy? Relationship between muscle coactivation and joint kinematics. *Clinical Biomechanics* 30, 1088–1093.
- Hägglund, G., and Wagner, P. (2011). Spasticity of the gastrosoleus muscle is related to the development of reduced passive dorsiflexion of the ankle in children with cerebral palsy: A registry analysis of 2,796 examinations in 355 children. *Acta Orthopaedica* 82, 744–748.
- Handsfield, G.G., Meyer, C.H., Abel, M.F., and Blemker, S.S. (2016). Heterogeneity of muscle sizes in the lower limbs of children with cerebral palsy: CP Muscle Size Heterogeneity. *Muscle & Nerve* 53, 933–945.
- Harlaar, J., Becher, J.G., Snijders, C.J., and Lankhorst, G.J. (2000). Passive stiffness characteristics of ankle plantar flexors in hemiplegia. *Clin Biomech (Bristol, Avon)* 15, 261–270.
- Harvey, L.A., Katalinic, O.M., Herbert, R.D., Moseley, A.M., Lannin, N.A., and Schurr, K. (2017). Stretch for the treatment and prevention of contracture: an abridged republication of a Cochrane Systematic Review. *Journal of Physiotherapy* 63, 67–75.
- Hastings-Ison, T., Blackburn, C., Rawicki, B., Fahey, M., Simpson, P., Baker, R., and Graham, K. (2016). Injection frequency of botulinum toxin A for spastic equinus: a randomized clinical trial. *Developmental Medicine & Child Neurology* 58, 750–757.
- Herbert, R., Moseley, A., Butler, J., and Gandevia, S. (2002). Change in length of relaxed muscle fascicles and tendons with knee and ankle movement in humans. *J Physiol* 637–645.
- Herskind, A., Ritterband-Rosenbaum, A., Willerslev-Olsen, M., Lorentzen, J., Hanson, L., Lichtwark, G., and Nielsen, J.B. (2016). Muscle growth is reduced in 15-month-old children with cerebral palsy. *Developmental Medicine & Child Neurology* 58, 485–491.
- Hirata, K., Miyamoto-Mikami, E., Kanehisa, H., and Miyamoto, N. (2016). Muscle-specific acute changes in passive stiffness of human triceps surae after stretching. *European Journal of Applied Physiology* 116, 911–918.

- Hirata, K., Kanehisa, H., and Miyamoto, N. (2017). Acute effect of static stretching on passive stiffness of the human gastrocnemius fascicle measured by ultrasound shear wave elastography. *European Journal of Applied Physiology* 117, 493–499.
- Hopkins, G. (2000). Measures of reliability in sportsmedicine and science. *Sports Med* 30, 1–15.
- Houx, L., Lempereur, M., Rémy-Néris, O., and Brochard, S. (2013). Threshold of equinus which alters biomechanical gait parameters in children. *Gait & Posture* 38, 582–589.
- Houx, L., Lempereur, M., Rémy-Néris, O., Gross, R., and Brochard, S. (2014). Changes in muscle activity in typically developing children walking with unilaterally induced equinus. *Clinical Biomechanics* 29, 1116–1124.
- Hug, F., Lacourpaille, L., Maïsetti, O., and Nordez, A. (2013). Slack length of gastrocnemius medialis and Achilles tendon occurs at different ankle angles. *Journal of Biomechanics* 46, 2534–2538.
- Hug, F., Tucker, K., Gennisson, J.-L., Tanter, M., and Nordez, A. (2015). Elastography for Muscle Biomechanics: Toward the Estimation of Individual Muscle Force. *Exercise and Sport Sciences Reviews* 43, 125–133.
- Huijing, P.A. (2007). Epimuscular myofascial force transmission between antagonistic and synergistic muscles can explain movement limitation in spastic paresis. *Journal of Electromyography and Kinesiology* 17, 708–724.
- Ishikawa, M., Komi, P.V., Grey, M.J., Lepola, V., and Bruggemann, G.-P. (2005). Muscle-tendon interaction and elastic energy usage in human walking. *Journal of Applied Physiology* 99, 603–608.
- Ito, J., Araki, A., Tanaka, H., Tasaki, T., Cho, K., and Yamazaki, R. (1996). Muscle histopathology in spastic cerebral palsy. *Brain and Development* 18, 299–303.
- Kalkman, B.M., Bar-On, L., Cenni, F., Maganaris, C.N., Bass, A., Holmes, G., Desloovere, K., Barton, G.J., and O’Brien, T.D. (2018a). Muscle and tendon lengthening behaviour of the medial gastrocnemius during ankle joint rotation in children with cerebral palsy. *Experimental Physiology* 103, 1367–1376.
- Kalkman, B.M., Bar-On, L., Cenni, F., Maganaris, C.N., Bass, A., Holmes, G., Desloovere, K., Barton, G.J., and O’Brien, T.D. (2018b). Medial gastrocnemius muscle stiffness cannot explain the increased ankle joint range of motion following passive stretching in children with cerebral palsy. *Experimental Physiology* 103, 350–357.
- Kalkman, B.M., Holmes, G., Bar-On, L., Maganaris, C.N., Barton, G.J., Bass, A., Wright, D.M., Walton, R., and O’Brien, T.D. (2019). Resistance Training Combined With Stretching Increases Tendon Stiffness and Is More Effective Than Stretching Alone in Children With Cerebral Palsy: A Randomized Controlled Trial. *Front. Pediatr.* 13;7:333.
- Kalkman, B.M., Bar-On, L., O’Brien, T.D., and Maganaris, C.N. (2020). Stretching Interventions in Children With Cerebral Palsy: Why Are They Ineffective in Improving Muscle Function and How Can We Better Their Outcome? *Front. Physiol.* 11, 131.
- Kalsi, G., Fry, N.R., and Shortland, A.P. (2016). Gastrocnemius muscle–tendon interaction during walking in typically-developing adults and children, and in children with spastic cerebral palsy. *Journal of Biomechanics* 49, 3194–3199.
- Kamina, P. (2003). *Précis d’anatomie clinique* (Maloine).

- Kawakami, Y., Kanehisa, H., and Fukunaga, T. (2008). The Relationship Between Passive Ankle Plantar Flexion Joint Torque and Gastrocnemius Muscle and Achilles Tendon Stiffness: Implications for Flexibility. *Journal of Orthopaedic & Sports Physical Therapy* 38, 269–276.
- Koo, T.K., Guo, J.-Y., Cohen, J.H., and Parker, K.J. (2013). Relationship between shear elastic modulus and passive muscle force: An ex-vivo study. *Journal of Biomechanics* 46, 2053–2059.
- Kot, B.C.W., Zhang, Z.J., Lee, A.W.C., Leung, V.Y.F., and Fu, S.N. (2012). Elastic Modulus of Muscle and Tendon with Shear Wave Ultrasound Elastography: Variations with Different Technical Settings. *PLoS ONE* 7(8):e44348.
- Krasny-Pacini, A., and Evans, J. (2017). Single-case experimental designs (SCEDs) to assess intervention effectiveness in rehabilitation: A practical guide. *Annals of Physical and Rehabilitation Medicine* 61, 164–179.
- van der Krogt, M.M., Doorenbosch, C.A.M., Becher, J.G., and Harlaar, J. (2009). Walking speed modifies spasticity effects in gastrocnemius and soleus in cerebral palsy gait. *Clinical Biomechanics* 24, 422–428.
- van der Krogt, M.M., Delp, S.L., and Schwartz, M.H. (2012). How robust is human gait to muscle weakness? *Gait & Posture* 36, 113–119.
- Kruse, A., Schranz, C., Svehlik, M., and Tilp, M. (2017). Mechanical muscle and tendon properties of the plantar flexors are altered even in highly functional children with spastic cerebral palsy. *Clinical Biomechanics* 50, 139–144.
- Kruse, A., Schranz, C., Tilp, M., and Svehlik, M. (2018). Muscle and tendon morphology alterations in children and adolescents with mild forms of spastic cerebral palsy. *BMC Pediatrics* 9;18(1):156.
- Kwon, D.R., Park, G.Y., Lee, S.U., and Chung, I. (2012). Spastic Cerebral Palsy in Children: Dynamic Sonoelastographic Findings of Medial Gastrocnemius. *Radiology* 263, 794–801.
- Lacourpaille, L., Hug, F., Bouillard, K., Hogrel, J.-Y., and Nordez, A. (2012). Supersonic shear imaging provides a reliable measurement of resting muscle shear elastic modulus. *Physiological Measurement* 33, N19–N28.
- Lance JW, and Feldman RG, Young RR, Koella WP Spasticity: Disordered Motor Control. p.
- Le Sant, G., Nordez, A., Andrade, R., Hug, F., Freitas, S., and Gross, R. (2017). Stiffness mapping of lower leg muscles during passive dorsiflexion. *Journal of Anatomy* 230, 639–650.
- Le Sant, G., Gross, R., Hug, F., and Nordez, A. (2019a). Influence of low muscle activation levels on the ankle torque and muscle shear modulus during plantar flexor stretching. *Journal of Biomechanics* 27;93:111-117..
- Le Sant, G., Nordez, A., Hug, F., Andrade, R., Lecharte, T., McNair, P.J., and Gross, R. (2019b). Effects of stroke injury on the shear modulus of the lower leg muscle during passive dorsiflexion. *Journal of Applied Physiology* 126, 11–22.
- Lecharte, T., Gross, R., Nordez, A., and Le Sant, G. (2020). Effect of chronic stretching interventions on the mechanical properties of muscles in patients with stroke: A systematic review. *Annals of Physical and Rehabilitation Medicine* 63(3):222-229.
- Lee, S.S.M., Gaebler-Spira, D., Zhang, L.-Q., Rymer, W.Z., and Steele, K.M. (2016). Use of shear wave ultrasound elastography to quantify muscle properties in cerebral palsy. *Clinical Biomechanics* 31, 20–28.

- Lee, S.S.M., Jakubowski, K.L., Spear, S.C., and Rymer, W.Z. (2019). Muscle material properties in passive and active stroke-impaired muscle. *Journal of Biomechanics* 83, 197–204.
- Lichtwark, G.A., and Wilson, A.M. (2008). Optimal muscle fascicle length and tendon stiffness for maximising gastrocnemius efficiency during human walking and running. *Journal of Theoretical Biology* 252, 662–673.
- Lichtwark, G.A., Bougoulas, K., and Wilson, A.M. (2007). Muscle fascicle and series elastic element length changes along the length of the human gastrocnemius during walking and running. *Journal of Biomechanics* 40, 157–164.
- Lieber, R.L., and Friden, J. (2000). Functional and clinical significance of skeletal muscle architecture. *Muscle & Nerve* 23, 1647–1666.
- Lieber, R.L., and Fridén, J. (2018). Muscle Contracture and Passive Mechanics in Cerebral Palsy. *Journal of Applied Physiology* 126, 1492–1501.
- Lieber, R.L., Roberts, T.J., Blemker, S.S., Lee, S.S.M., and Herzog, W. (2017). Skeletal muscle mechanics, energetics and plasticity. *Journal of NeuroEngineering and Rehabilitation* 14, 108.
- Liu, M.Q., Anderson, F.C., Schwartz, M.H., and Delp, S.L. (2008). Muscle contributions to support and progression over a range of walking speeds. *Journal of Biomechanics* 41, 3243–3252.
- Lorentzen, J., Grey, M.J., Geertsen, S.S., Biering-Sørensen, F., Brunton, K., Gorassini, M., and Nielsen, J.B. (2012). Assessment of a portable device for the quantitative measurement of ankle joint stiffness in spastic individuals. *Clinical Neurophysiology* 123, 1371–1382.
- Maas, J.C., Huijing, P.A., Dallmeijer, A.J., Harlaar, J., Jaspers, R.T., and Becher, J.G. (2015). Decrease in ankle–foot dorsiflexion range of motion is related to increased knee flexion during gait in children with spastic cerebral palsy. *Journal of Electromyography and Kinesiology* 25, 339–346.
- Maganaris, C.N. (2003). Force-length characteristics of the in vivo human gastrocnemius muscle. *Clinical Anatomy* 16, 215–223.
- Maisetti, O., Hug, F., Bouillard, K., and Nordez, A. (2012). Characterization of passive elastic properties of the human medial gastrocnemius muscle belly using supersonic shear imaging. *Journal of Biomechanics* 45, 978–984.
- Malaiya, R., McNee, A., Fry, N.R., Eve, L., Gough, M., and Shortland, A.P. (2007). The morphology of the medial gastrocnemius in typically developing children and children with spastic hemiplegic cerebral palsy. *Journal of Electromyography and Kinesiology* 17, 656–663.
- Malhotra, S., Pandyan, A., Day, C., Jones, P., and Hermens, H. (2009). Spasticity, an impairment that is poorly defined and poorly measured. *Clinical Rehabilitation* 23, 651–658.
- Manolov, R., and Moeyaert, M. (2017). How Can Single-Case Data Be Analyzed? Software Resources, Tutorial, and Reflections on Analysis. *Behav Modif* 41, 179–228.
- Marbini, A., Ferrari, A., Cioni, G., Bellanova, M.F., Fusco, C., and Gemignani, F. (2002). Immunohistochemical study of muscle biopsy in children with cerebral palsy. *Brain and Development* 24, 63–66.
- Mathevon, L., Michel, F., Decavel, P., Fernandez, B., Parratte, B., and Calmels, P. (2015). Muscle structure and stiffness assessment after botulinum toxin type A injection. A systematic review. *Annals of Physical and Rehabilitation Medicine* 58, 343–350.



- Mathevon, L., Bonan, I., Barnais, J.-L., Boyer, F., and Dinomais, M. (2018a). Adjunct therapies to improve outcomes after botulinum toxin injection in children: A systematic review. *Annals of Physical and Rehabilitation Medicine* 62, 283–290.
- Mathevon, L., Michel, F., Aubry, S., Testa, R., Lapole, T., Arnaudeau, L.F., Fernandez, B., Parratte, B., and Calmels, P. (2018b). Two-dimensional and shear wave elastography ultrasound: A reliable method to analyse spastic muscles?: 2D SWE Analysis of Spastic Muscles. *Muscle & Nerve* 57, 222–228.
- Mathewson, M.A., Chambers, H.G., Girard, P.J., Tenenhaus, M., Schwartz, A.K., and Lieber, R.L. (2014). Stiff muscle fibers in calf muscles of patients with cerebral palsy lead to high passive muscle stiffness. *Journal of Orthopaedic Research* 32, 1667–1674.
- McNair, P., Hewson, D., Dombroski, E., and Stanley, S. (2002). Stiffness and passive peak force changes at the ankle joint: the effect of different joint angular velocities. *Clinical Biomechanics* 17, 536–540.
- McNair, P.J., Dombroski, E.W., Hewson, D.J., and Stanley, S.N. (2001). Stretching at the ankle joint: viscoelastic responses to holds and continuous passive motion. *Medicine and Science in Sports and Exercices* 35, 354–358.
- Mohagheghi, A.A., Khan, T., Meadows, T.H., Giannikas, K., Baltzopoulos, V., and Maganaris, C.N. (2007). Differences in gastrocnemius muscle architecture between the paretic and non-paretic legs in children with hemiplegic cerebral palsy. *Clinical Biomechanics* 22, 718–724.
- Moreau, N.G., Falvo, M.J., and Damiano, D.L. (2012). Rapid force generation is impaired in cerebral palsy and is related to decreased muscle size and functional mobility. *Gait & Posture* 35, 154–158.
- Morse, C.I., Degens, H., Seynnes, O.R., Maganaris, C.N., and Jones, D.A. (2008). The acute effect of stretching on the passive stiffness of the human gastrocnemius muscle tendon unit: Stretching and muscle stiffness. *The Journal of Physiology* 586, 97–106.
- Muraoka, T., Chino, K., Muramatsu, T., Fukunaga, T., and Kanehisa, H. (2005). In vivo passive mechanical properties of the human gastrocnemius muscle belly. *J of Biomechanics* 38, 1213–1219.
- Mutlu, A., Livanelioglu, A., and Gunel, M.K. (2008). Reliability of Ashworth and Modified Ashworth Scales in Children with Spastic Cerebral Palsy. *BMC Musculoskeletal Disorders* 10;9:44.
- Nakamura, M., Ikezoe, T., Umegaki, H., Kobayashi, T., Nishisita, S., and Ichihashi, N. (2016). Shear elastic modulus is a reproducible index reflecting the passive mechanical properties of medial gastrocnemius muscle belly. *Acta Radiologica Open* 28;5(4):2058460115604009.
- Neptune, R.R., Kautz, S.A., and Zajac, F.E. (2001). Contributions of the individual ankle plantar flexors to support, forward progression and swing initiation during walking. *Journal of Biomechanics* 34, 1387–1398.
- Nieuwenhuys, A., Papageorgiou, E., Schless, S.-H., De Laet, T., Molenaers, G., and Desloovere, K. (2017). Prevalence of Joint Gait Patterns Defined by a Delphi Consensus Study Is Related to Gross Motor Function, Topographical Classification, Weakness, and Spasticity, in Children with Cerebral Palsy. *Front. Hum. Neurosci.* 12;11:185.
- Noble, J.J., Gough, M., and Shortland, A.P. (2019). Selective motor control and gross motor function in bilateral spastic cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 61, 57–61.
- van den Noort, J.C., Bar-On, L., Aertbeliën, E., Bonikowski, M., Braendvik, S.M., Broström, E.W., Buizer, A.I., Burridge, J.H., van Campenhout, A., Dan, B., et al. (2017). European consensus on the

concepts and measurement of the pathophysiological neuromuscular responses to passive muscle stretch. *European Journal of Neurology* 24, 981-e38.

Nordez, A., Casari, P., and Cornu, C. (2008). Effects of stretching velocity on passive resistance developed by the knee musculo-articular complex: contributions of frictional and viscoelastic behaviours. *Eur J Appl Physiol* 103, 243–250.

Nordez, A., Gross, R., Andrade, R., Le Sant, G., Freitas, S., Ellis, R., McNair, P.J., and Hug, F. (2017). Non-Muscular Structures Can Limit the Maximal Joint Range of Motion during Stretching. *Sports Medicine* 47, 1925–1929.

Numanoğlu, A. (2012). Intraobserver reliability of modified Ashworth scale and modified Tardieu scale in the assessment of spasticity in children with cerebral palsy. *Acta Orthopaedica et Traumatologica Turcica* 46, 196–200.

Obst, S.J., Boyd, R., Read, F., and Barber, L. (2017). Quantitative 3-D Ultrasound of the Medial Gastrocnemius Muscle in Children with Unilateral Spastic Cerebral Palsy. *Ultrasound in Medicine & Biology* 43, 2814–2823.

Pandyan, A.D., Johnson, G.R., Price, C.I.M., Curless, R.H., Barnes, M.P., and Rodgers, H. (1999). A review of the properties and limitations of the Ashworth and modified Ashworth Scales as measures of spasticity. *Clinical Rehabilitation* 13, 373–383.

Pandyan, A.D., Vuadens, P., van Wijck, F.M., Stark, S., Johnson, G.R., and Barnes, M.P. (2002). Are we underestimating the clinical efficacy of botulinum toxin (type A)? Quantifying changes in spasticity, strength and upper limb function after injections of Botox® to the elbow flexors in a unilateral stroke population. *Clinical Rehabilitation* 16, 654–660.

Papageorgiou, E., Simon-Martinez, C., Molenaers, G., Ortibus, E., Van Campenhout, A., and Desloovere, K. (2019). Are spasticity, weakness, selectivity, and passive range of motion related to gait deviations in children with spastic cerebral palsy? A statistical parametric mapping study. *PLoS ONE* 11;14(10):e0223363.

Park, G.-Y., and Kwon, D.R. (2012). Sonoelastographic Evaluation of Medial Gastrocnemius Muscles Intrinsic Stiffness After Rehabilitation Therapy With Botulinum Toxin A Injection in Spastic Cerebral Palsy. *Archives of Physical Medicine and Rehabilitation* 93, 2085–2089.

Patrick E, and Ada L (2006). The Tardieu Scale differentiates contracture from spasticity whereas the Ashworth Scale is confounded by it. *Clinical Rehabilitation* 20(2):173-82.

Peeters, N., Hanssen, B., Cenni, F., Schless, S.H., De Beukelaer, N., Degelaen, M., den Broeck, C.V., Van Campenhout, A., Desloovere, K., and Bar-On, L. (2018). O 019 - Do Botulinum Toxin-A and lower leg casting alter calf muscle and tendon lengths in children with spastic cerebral palsy? *Gait & Posture* 65, 36–38.

Perry J (1992). *Gait Analysis: Normal And Pathological Function* (Slack Incorporated, Thorofare).

Petit, J., and Gioux, M. (1993). Properties of motor units after immobilization of cat peroneus longus muscle. *Journal of Applied Physiology* 74, 1131–1139.

Pierce, S.R., Lauer, R.T., Shewokis, P.A., Rubertone, J.A., and Orlin, M.N. (2006). Test-Retest Reliability of Isokinetic Dynamometry for the Assessment of Spasticity of the Knee Flexors and Knee Extensors in Children With Cerebral Palsy. *Archives of Physical Medicine and Rehabilitation* 87, 697–702.

- Pin, T., Dyke, P., and Chan, M. (2006). The effectiveness of passive stretching in children with cerebral palsy. *Developmental Medicine and Child Neurology* 855–862.
- Pingel, J., and Suhr, F. (2017). Are mechanically sensitive regulators involved in the function and (patho)physiology of cerebral palsy-related contractures? *Journal of Muscle Research and Cell Motility* 38, 317–330.
- Pingel, J., Bartels, E.M., and Nielsen, J.B. (2017). New perspectives on the development of muscle contractures following central motor lesions: Muscle contractures following central motor lesions. *The Journal of Physiology* 595, 1027–1038.
- Pitcher, C.A., Elliott, C.M., Valentine, J.P., Stannage, K., Williams, S.A., Shipman, P.J., and Reid, S.L. (2018). Muscle morphology of the lower leg in ambulant children with spastic cerebral palsy: Gross Morphology in Children With Spastic CP. *Muscle & Nerve* 58, 818–823.
- Pool, D., Elliott, C., Bear, N., Donnelly, C.J., Davis, C., Stannage, K., and Valentine, J. (2016). Neuromuscular electrical stimulation-assisted gait increases muscle strength and volume in children with unilateral spastic cerebral palsy. *Developmental Medicine & Child Neurology* 58, 492–501.
- Pradines, M., Ghedira, M., Portero, R., Masson, I., Marciniak, C., Hicklin, D., Hutin, E., Portero, P., Gracies, J.-M., and Bayle, N. (2019). Ultrasound structural changes in Triceps surae after a one-year daily self-stretch program: a prospective randomized control trial in chronic hemiparesis. *Neurorehabil Neural Repair*. 2019 Apr; 33(4):245-259.
- Rha, D., Cahill-Rowley, K., Young, J., Torburn, L., Stephenson, K., and Rose, J. (2016). Biomechanical and Clinical Correlates of Stance-Phase Knee Flexion in Persons With Spastic Cerebral Palsy. *PM&R* 8, 11–18.
- Rha, D.-W., Cahill-Rowley, K., Young, J., Torburn, L., Stephenson, K., and Rose, J. (2015). Biomechanical and Clinical Correlates of Swing-Phase Knee Flexion in Individuals With Spastic Cerebral Palsy Who Walk With Flexed-Knee Gait. *Archives of Physical Medicine and Rehabilitation* 96, 511–517.
- Riad, J., Haglund-Akerlind, Y., and Miller, F. (2008). Power generation in children with spastic hemiplegic cerebral palsy. *Gait & Posture* 27, 641–647.
- Rice, J., Skuza, P., Baker, F., Russo, R., and Fehlings, D. (2017). Identification and measurement of dystonia in cerebral palsy. *Developmental Medicine & Child Neurology* 59, 1249–1255.
- Romkes, J., and Brunner, R. (2007). An electromyographic analysis of obligatory (hemiplegic cerebral palsy) and voluntary (normal) unilateral toe-walking. *Gait & Posture* 26, 577–586.
- Rose, J., and McGill, K.C. (2005). Neuromuscular activation and motor-unit firing characteristics in cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 47, 329–336.
- Rose, J., Haskell, W.L., Gamble, J.G., Hamilton, R.L., Brown, D.A., and Rinsky, L. (1994). Muscle pathology and clinical measures of disability in children with cerebral palsy. *J. Orthop. Res.* 12, 758–768.
- Rose, J., Martin, J., Torburn, L., Rinsky, L., and Gamble, J. (1999). Electromyographic differentiation of diplegic cerebral palsy from idiopathic toe walking: involuntary coactivation of the quadriceps and gastrocnemius. *J Pediatr Orthop* 19, 677–682.
- Rosenbaum, P., Paneth, N., Leviton, A., Goldstein, M., Bax, M., Damiano, D., Dan, B., and Jacobsson, B. (2007). A report: the definition and classification of cerebral palsy April 2006. *Dev Med Child Neurol Suppl* 109, 8–14.

Ross, S.A., and Engsberg, J.R. (2007). Relationships Between Spasticity, Strength, Gait, and the GMFM-66 in Persons With Spastic Diplegia Cerebral Palsy. *Archives of Physical Medicine and Rehabilitation* 88, 1114–1120.

Ross, S.A., Foreman, M., and Engsberg, J.R. (2011). Comparison of 3 Different Methods to Analyze Ankle Plantarflexor Stiffness in Children With Spastic Diplegia Cerebral Palsy. *Archives of Physical Medicine and Rehabilitation* 92, 2034–2040.

Ryan, E.D., Beck, T.W., Herda, T.J., Hull, H.R., Hartman, M.J., Costa, P.B., Defreitas, J.M., Stout, J.R., and Cramer, J.T. (2008). The Time Course of Musculotendinous Stiffness Responses Following Different Durations of Passive Stretching. *Journal of Orthopaedic & Sports Physical Therapy* 38, 632–639.

Sanger, T., Delgado, M., Gaebler-Spira, D., Hallett, M., and Mink, J. (2003). Classification and definition of disorders causing hypertonía in childhood. *Pediatrics* 111, e89–e97.

Sanger, T.D., Chen, D., Delgado, M.R., Gaebler-Spira, D., Hallett, M., Mink, J.W., and the Taskforce on Childhood Motor Disorders (2006). Definition and Classification of Negative Motor Signs in Childhood. *Pediatrics* 118, 2159–2167.

Schless, S., Cenni, F., Bar-On, L., Hanssen, B., Kalkman, B., O'brien, T., Aertbeliën, E., Van Campenhout, A., Molenaers, G., and Desloovere, K. (2019a). Medial gastrocnemius volume and echo-intensity after botulinum neurotoxin A interventions in children with spastic cerebral palsy. *Developmental Medicine & Child Neurology* 61, 783–790.

Schless, S.-H., Desloovere, K., Aertbeliën, E., Molenaers, G., Huenaerts, C., and Bar-On, L. (2015). The Intra- and Inter-Rater Reliability of an Instrumented Spasticity Assessment in Children with Cerebral Palsy. *PLoS ONE* 2;10(7):e0131011.

Schless, S.-H., Cenni, F., Bar-On, L., Hanssen, B., Goudriaan, M., Papageorgiou, E., Aertbeliën, E., Molenaers, G., and Desloovere, K. (2019b). Combining muscle morphology and neuromotor symptoms to explain abnormal gait at the ankle joint level in cerebral palsy. *Gait & Posture* 68, 531–537.

Scholtes, V.A., Becher, J.G., Beelen, A., and Lankhorst, G.J. (2006). Clinical assessment of spasticity in children with cerebral palsy: a critical review of available instruments. *Developmental Medicine & Child Neurology* 8(1):64-73.

Sellier, E., Platt, M.J., Andersen, G.L., Krägeloh-Mann, I., De La Cruz, J., Cans, C., and Surveillance of Cerebral Palsy Network (2016). Decreasing prevalence in cerebral palsy: a multi-site European population-based study, 1980 to 2003. *Developmental Medicine & Child Neurology* 58, 85–92.

Shortland, A.P. (2018). Muscle tone is not a well-defined term. *Developmental Medicine & Child Neurology* 60, 637–637.

Sloot, L.H., Bar-On, L., van der Krogt, M.M., Aertbeliën, E., Buizer, A.I., Desloovere, K., and Harlaar, J. (2017). Motorized versus manual instrumented spasticity assessment in children with cerebral palsy. *Developmental Medicine & Child Neurology* 59, 145–151.

Smeulders, M.J.C., Kreulen, M., Hage, J.J., Huijting, P.A., and van der Horst, C.M.A.M. (2004). Overstretching of sarcomeres may not cause cerebral palsy muscle contracture. *Journal of Orthopaedic Research* 22, 1331–1335.

Smith, L.R., Lee, K.S., Ward, S.R., Chambers, H.G., and Lieber, R.L. (2011). Hamstring contractures in children with spastic cerebral palsy result from a stiffer extracellular matrix and increased *in vivo*

sarcomere length: Passive mechanical properties of muscle contracture. *The Journal of Physiology* 589, 2625–2639.

Smith, L.R., Chambers, H.G., and Lieber, R.L. (2013). Reduced satellite cell population may lead to contractures in children with cerebral palsy: Reduced Satellite Cells in Muscle Contractures. *Developmental Medicine & Child Neurology* 55, 264–270.

Stackhouse, S.K., Binder-Macleod, S.A., and Lee, S.C.K. (2005). Voluntary muscle activation, contractile properties, and fatigability in children with and without cerebral palsy. *Muscle Nerve* 31, 594–601.

Suydam, S.M., Soulas, E.M., Elliott, D.M., Gravare Silbernagel, K., Buchanan, T.S., and Cortes, D.H. (2015). Viscoelastic properties of healthy achilles tendon are independent of isometric plantar flexion strength and cross-sectional area. *Journal of Orthopaedic Research* 33, 926–931.

Švehlík, M., Zwick, E.B., Steinwender, G., Kraus, T., and Linhart, W.E. (2010). Dynamic Versus Fixed Equinus Deformity in Children With Cerebral Palsy: How Does the Triceps Surae Muscle Work? *Archives of Physical Medicine and Rehabilitation* 91, 1897–1903.

Švehlík, M., Leistriz, L., Kraus, T., Zwick, E.B., Steinwender, G., and Linhart, W.E. (2013). The growth and the development of gastro-soleus contracture in cerebral palsy. *Gait & Posture* 38, S12.

Swoboda, C.M., Kratochwill, T.R., and Levin, J.R. (2010) Conservative Dual-Criterion Method for Single-Case Research: A Guide for Visual Analysis of AB, ABAB, and Multiple-Baseline Designs. Wisconsin Center for Education Research. 13.

Tardieu, C., Huet de la Tour, E., Bret, M.D., and Tardieu, G. (1982). Muscle hypoextensibility in children with cerebral palsy: I. Clinical and experimental observations. *Arch Phys Med Rehabil* 63, 97–102.

Theis, N., Korff, T., Kairon, H., and Mohagheghi, A.A. (2013). Does acute passive stretching increase muscle length in children with cerebral palsy? *Clinical Biomechanics* 28, 1061–1067.

Theis, N., Korff, T., and Mohagheghi, A.A. (2015). Does long-term passive stretching alter muscle–tendon unit mechanics in children with spastic cerebral palsy? *Clinical Biomechanics* 30, 1071–1076.

Theis, N., Mohagheghi, A.A., and Korff, T. (2016). Mechanical and material properties of the plantarflexor muscles and Achilles tendon in children with spastic cerebral palsy and typically developing children. *Journal of Biomechanics* 49, 3004–3008.

Valentine, J., Stannage, K., Fabian, V., Ellis, K., Reid, S., Pitcher, C., and Elliott, C. (2016). Muscle histopathology in children with spastic cerebral palsy receiving botulinum toxin type A: BoNTA and Muscle Histopathology. *Muscle & Nerve* 53, 407–414.

Van Campenhout, A., Bar-On, L., Aertbeliën, E., Huenaerts, C., Molenaers, G., and Desloovere, K. (2014). Can we unmask features of spasticity during gait in children with cerebral palsy by increasing their walking velocity? *Gait & Posture* 39, 953–957.

Vattanasilp, W., Ada, L., and Crosbie, J. (2000). Contribution of thixotropy, spasticity, and contracture to ankle stiffness after stroke. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 69, 34–39.

de Vlugt, E., de Groot, J.H., Wisman, W.H.J., and Meskers, C.G.M. (2012). Clonus is explained from increased reflex gain and enlarged tissue viscoelasticity. *Journal of Biomechanics* 45, 148–155.

- Vola, E.A., Albano, M., Di Luise, C., Servodidio, V., Sansone, M., Russo, S., Corrado, B., Servodio Iammarrone, C., Caprio, M.G., and Vallone, G. (2018). Use of ultrasound shear wave to measure muscle stiffness in children with cerebral palsy. *Journal of Ultrasound* 21, 241–247.
- Weide, G., Huijing, P.A., Maas, J.C., Becher, J.G., Harlaar, J., and Jaspers, R.T. (2015). Medial gastrocnemius muscle growth during adolescence is mediated by increased fascicle diameter rather than by longitudinal fascicle growth. *Journal of Anatomy* 226, 530–541.
- Wiat, L., Darrah, J., and Kembhavi, G. (2008). Stretching with Children with Cerebral Palsy: What Do We Know and Where Are We Going?: *Pediatric Physical Therapy* 20, 173–178.
- Wiley, M.E., and Damiano, D.L. (1998). Lower-Extremity strength profiles in spastic cerebral palsy. *Developmental Medicine & Child Neurology* 40, 100–107.
- Willerslev-Olsen, M., Lorentzen, J., Sinkjaer, T., and Nielsen, J.B. (2013). Passive muscle properties are altered in children with cerebral palsy before the age of 3 years and are difficult to distinguish clinically from spasticity. *Developmental Medicine & Child Neurology* 55, 617–623.
- Willerslev-Olsen, M., Andersen, J.B., Sinkjaer, T., and Nielsen, J.B. (2014a). Sensory feedback to ankle plantar flexors is not exaggerated during gait in spastic hemiplegic children with cerebral palsy. *Journal of Neurophysiology* 111, 746–754.
- Willerslev-Olsen, M., Lorentzen, J., and Nielsen, J.B. (2014b). Gait training reduces ankle joint stiffness and facilitates heel strike in children with Cerebral Palsy. *NeuroRehabilitation* 643–655.
- Willerslev-Olsen, M., Choe Lund, M., Lorentzen, J., Barber, L., Kofoed Hansen, M., and Nielsen, J.B. (2018). Impaired muscle growth precedes development of increased stiffness of the triceps surae musculotendinous unit in children with cerebral palsy. *Developmental Medicine & Child Neurology* 60(7):672-679.
- Williams, S.A., Reid, S., Elliott, C., Shipman, P., and Valentine, J. (2013). Muscle volume alterations in spastic muscles immediately following botulinum toxin type-A treatment in children with cerebral palsy. *Developmental Medicine & Child Neurology* 55, 813–820.
- Winters, T., Gage, J., and Hicks, R. (1987). Gait patterns in spastic hemiplegia in children and young adults. 69, 6.
- Wren, T.A.L., Patrick Do, K., and Kay, R.M. (2004). Gastrocnemius and soleus lengths in cerebral palsy equinus gait—differences between children with and without static contracture and effects of gastrocnemius recession. *Journal of Biomechanics* 37, 1321–1327.
- Wren, T.A.L., Cheatwood, A.P., Rethlefsen, S.A., Hara, R., Perez, F.J., and Kay, R.M. (2010). Achilles Tendon Length and Medial Gastrocnemius Architecture in Children With Cerebral Palsy and Equinus Gait: *Journal of Pediatric Orthopaedics* 30, 479–484.
- Yam, W.K.L., and Leung, M.S.M. (2006). Interrater Reliability of Modified Ashworth Scale and Modified Tardieu Scale in Children With Spastic Cerebral Palsy. *Journal of Child Neurology* 21, 1031–1035.
- Yeh, C.-Y., Tsai, K.-H., and Chen, J.-J. (2005). Effects of prolonged muscle stretching with constant torque or constant angle on hypertonic calf muscles. *Archives of Physical Medicine and Rehabilitation* 86, 235–241.
- Yeh, C.-Y., Chen, J.-J., and Tsai, K.-H. (2007). Quantifying the effectiveness of the sustained muscle stretching treatments in stroke patients with ankle hypertonia. *Journal of Electromyography and Kinesiology* 17, 453–461.

Zhou, J., Butler, E.E., and Rose, J. (2017). Neurologic Correlates of Gait Abnormalities in Cerebral Palsy: Implications for Treatment. *Frontiers in Human Neuroscience* 17;11:103.

Zhou, J.Y., Lowe, E., Cahill-Rowley, K., Mahtani, G.B., Young, J.L., and Rose, J. (2019). Influence of impaired selective motor control on gait in children with cerebral palsy. *Journal of Children's Orthopaedics* 13, 73–81.

# X. Annexes

## Annexe A : Echelle Motrice Fonctionnelle Globale (EMFG)

### EVALUATION MOTRICE FONCTIONNELLE GLOBALE EMFG

FEUILLE DE COTATION (EMFG-88 et EMFG-66)

Nom de l'enfant : \_\_\_\_\_ N° de dossier : \_\_\_\_\_

Date d'évaluation : \_\_\_\_\_ / \_\_\_\_\_ / \_\_\_\_\_ Niveau de sévérité (GMFCS) :  
 I  II  III  IV  V

Date de naissance : \_\_\_\_\_ / \_\_\_\_\_ / \_\_\_\_\_

Âge de l'enfant : \_\_\_\_\_ / \_\_\_\_\_ Conditions d'examen : (par ex. : salle, heure, vêtements, personnes présentes...) : \_\_\_\_\_

Nom de l'examineur : \_\_\_\_\_

L'EMFG est un outil d'observation standardisé, conçu et validé pour mesurer le changement dans la motricité fonctionnelle globale au fil du temps chez les enfants IMC. Le schéma de cotation doit servir d'indication d'ordre général. Cependant, la plupart des items ont des indications spécifiques pour chaque cotation, l'utilisation de ces consignes de passage est impérative pour chaque item

**SCHEMA DE COTATION 0 = n'ébauche pas**  
**1 = ébauche**  
**2 = accompli partiellement**  
**3 = accompli**  
 NT = non testé (utilisé pour le résultat du GMAE\*)

*Il est maintenant important de différencier un vrai score "0" (l'enfant n'ébauche pas) d'un item qui n'est pas testé (NT) si vous souhaitez utiliser le logiciel GMFM-66 Ability Estimator.*

\*Le logiciel GMFM-66 Gross Motor Ability Estimator (GMAE) est fourni avec le livre GMFM (2002). L'intérêt du logiciel est de transformer une échelle ordinaire en une échelle continue. Cela permettra une estimation plus précise des capacités de l'enfant et fournira une mesure également plus sensible au changement quel que soit le niveau des capacités motrices. Les items qui sont utilisés pour le calcul de l'EMFG-66 sont grisés et signalés par une astérisque (\*). L'utilisation de l'EMFG-66 n'est validée que pour les enfants qui présentent une IMC.

**Pour tout renseignement, contacter :**

- Docteur Carole Bérand, Service de Rééducation Pédiatrique l'Escalpe 6F, Centre Hospitalier Lyon Sud, 69495 Pierre-Bénite Cedex, France.

\*GMFCS classe la fonction motrice en niveaux de sévérité. Ces niveaux sont définis dans l'édition 2002 du "Gross Motor Function Measure GMFM-66 GMFM-88 User Manual, Addison Mac Keith Press 2002, annexe 1".

© Version française publiée sous licence par Handicap International, ERAC - 14, avenue Berthelot, 69361 Lyon Cedex 07, France, 2002

1

Item	C : QUATRE PATTES ET À GENOUX	COTATION	NT
38.	D. VEN : FAIRE EN AVANT SUR UN BANC	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 38.
* 39.	4 POINTS D'APPLI : MANTENIR LE CORPS EN CONTACT AVEC LE SOL SUR LES GENOUX 2 SECONDES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 39.
* 40.	4 POINTS D'APPLI : ATTENDRE LA POSITION ASSISE SANS APPUI DES MEMBRES SUPERIEURS	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 40.
* 41.	D. VEN : ATTENDRE 4 POINTS D'APPLI SUR LE CORPS SUR LES GENOUX 2 SECONDES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 41.
* 42.	4 POINTS D'APPLI : TENIR LE MEMBRE SUPERIEUR D'UN BANC LA MAIN AU DESSUS DU NIVEAU DE L'EPALLE	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 42.
* 43.	4 POINTS D'APPLI : TENIR LE MEMBRE SUPERIEUR D'UN BANC LA MAIN AU DESSUS DU NIVEAU DE L'EPALLE	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 43.
* 44.	4 POINTS D'APPLI : AVANCE À 4 PATTES EN FAISANT UN COUP SUR UN BANC	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 44.
* 45.	4 POINTS D'APPLI : AVANCE À 4 PATTES AVEC UN MEMBRE SUPERIEUR SUR UN BANC	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 45.
* 46.	4 POINTS D'APPLI : MONTRE 4 PATTES SUR LES GENOUX ET LES GENOUX PUIS	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 46.
* 47.	4 POINTS D'APPLI : DESSUS EN FAISANT 4 PATTES SUR LES GENOUX	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 47.
* 48.	ASSIS SUR LE TAPIS : SE METRE EN CONTACT AVEC LE SOL PAR LA MAIN EN FAISANT 4 PATTES SUR UN BANC 2 SECONDES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 48.
* 49.	A GENOUX : ATTENDRE LA POSITION ASSISE SANS APPUI DES MEMBRES SUPERIEURS 2 SECONDES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 49.
* 50.	A GENOUX : ATTENDRE LA POSITION ASSISE SANS APPUI DES MEMBRES SUPERIEURS 2 SECONDES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 50.
* 51.	A GENOUX : AVANCE EN FAISANT 4 PATTES SUR UN BANC 2 SECONDES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 51.

TOTAL RUBRIQUE C

Item	D : STATION DEBOUT	COTATION	NT
* 52.	AU SOL : SE METTRE EN CONTACT AVEC LE SOL PAR LA MAIN EN FAISANT 4 PATTES SUR UN BANC 2 SECONDES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 52.
* 53.	DEBOUT : MANTENIR LA POSITION ASSISE SANS APPUI DES MEMBRES SUPERIEURS 2 SECONDES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 53.
* 54.	DEBOUT : ENVIENIR A UN GRAND BANC EN FAISANT 4 PATTES SUR UN BANC 2 SECONDES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 54.
* 55.	DEBOUT : ENVIENIR A UN GRAND BANC EN FAISANT 4 PATTES SUR UN BANC 2 SECONDES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 55.
* 56.	DEBOUT : MANTENIR LA POSITION ASSISE SANS APPUI DES MEMBRES SUPERIEURS 2 SECONDES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 56.
* 57.	DEBOUT : MANTENIR LE CORPS EN CONTACT AVEC LE SOL SUR LES GENOUX 2 SECONDES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 57.
* 58.	DEBOUT : MANTENIR LE CORPS EN CONTACT AVEC LE SOL SUR LES GENOUX 2 SECONDES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 58.
* 59.	ASSIS SUR UN PETIT BANC : ATTENDRE LA POSITION ASSISE SANS APPUI DES MEMBRES SUPERIEURS	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 59.
* 60.	A GENOUX : ATTENDRE LA POSITION ASSISE SANS APPUI DES MEMBRES SUPERIEURS 2 SECONDES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 60.
* 61.	A GENOUX : ATTENDRE LA POSITION ASSISE SANS APPUI DES MEMBRES SUPERIEURS 2 SECONDES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 61.
* 62.	DEBOUT : SE METTRE EN CONTACT AVEC LE SOL PAR LA MAIN EN FAISANT 4 PATTES SUR UN BANC 2 SECONDES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 62.
* 63.	DEBOUT : ATTENDRE LA POSITION ASSISE SANS APPUI DES MEMBRES SUPERIEURS	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 63.
* 64.	DEBOUT : AVANCE EN FAISANT 4 PATTES SUR UN BANC 2 SECONDES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 64.

TOTAL RUBRIQUE D

Cocher (x) la cotation correspondante ; si un item n'est pas testé (NT), entourer d'un cercle son numéro dans la colonne NT.

Item	A : COUCHE ET RETOURNEMENTS	COTATION	NT
1.	D. DOR, TETE EN LIGNE MEDIANE : TOURNER LA TETE EN GARANTANT LES EXTREMITES SIMETRIQUES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 1.
* 2.	D. DOR : AMENER LES MAINS EN LIGNE MEDIANE, DOIGTS QUI SE TOUCHENT	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 2.
3.	D. DOR : SOULEVER LA TETE A 45°	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 3.
4.	D. DOR : FLECHIR LA HANCHE ET LE GENOU D DANS TOUTE L'AMPLITUDE	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4.
5.	D. DOR : FLECHIR LA HANCHE ET LE GENOU G DANS TOUTE L'AMPLITUDE	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 5.
* 6.	D. DOR : TENIR LE MEMBRE SUPERIEUR D LA MAIN EN CONTACT AVEC LA LIGNE MEDIANE EN DIRECTION DU JOUET	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 6.
* 7.	D. DOR : TENIR LE MEMBRE SUPERIEUR G LA MAIN EN CONTACT AVEC LA LIGNE MEDIANE EN DIRECTION DU JOUET	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 7.
8.	D. DOR : SE RETOURNER EN OCCUPANT LE CENTRE EN PASSANT PAR LE COTE D	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 8.
9.	D. DOR : SE RETOURNER EN OCCUPANT LE CENTRE EN PASSANT PAR LE COTE G	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 9.
* 10.	D. VEN : NIVEAU TETE DROITE	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 10.
11.	D. VEN EN APPLI SUR LES AVANT-BRAS : LIEVE LA TETE, SHOUL, COULE EN EXTENSION, POITRINE DECOULEE DU SOL	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 11.
12.	D. VEN EN APPLI SUR LES AVANT-BRAS : HODOU CORPS SUR UN GRAND BANC D EN COMPLETANT LE VUE OPPOSEE A L'AVANT	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 12.
13.	D. VEN EN APPLI SUR LES AVANT-BRAS : HODOU CORPS SUR UN GRAND BANC G EN COMPLETANT LE VUE OPPOSEE A L'AVANT	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 13.
14.	D. VEN : SE RETOURNER EN OCCUPANT LE DORSAL EN PASSANT PAR LE COTE D	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 14.
15.	D. VEN : SE RETOURNER EN OCCUPANT LE DORSAL EN PASSANT PAR LE COTE G	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 15.
16.	D. VEN : FAIRE UN BANC SUR UN BANC EN GARANTANT LES EXTREMITES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 16.
17.	D. VEN : FAIRE UN BANC SUR UN BANC EN GARANTANT LES EXTREMITES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 17.

TOTAL RUBRIQUE A

Item	B : POSITION ASSISE	COTATION	NT
* 18.	D. DOR, LES MAINS TENUES PAR L'EXAMINATEUR : SE METTRE A LA POSITION ASSISE AVEC CONTRÔLE DE LA TETE	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 18.
19.	D. DOR : SE METTRE SUR LE COTE D ATTENDRE LA POSITION ASSISE	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 19.
20.	D. DOR : SE METTRE SUR LE COTE G ATTENDRE LA POSITION ASSISE	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 20.
* 21.	ASSIS SUR TAPIS, SOUTENU AU NIVEAU DU THORAX PAR LE THERAPEUTE : LIEVE LA TETE DROITE, MANTENIR LA POSITION 2 SECONDES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 21.
* 22.	ASSIS SUR TAPIS, SOUTENU AU NIVEAU DU THORAX PAR LE THERAPEUTE : LIEVE LA TETE GAUCHE, MANTENIR LA POSITION 2 SECONDES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 22.
* 23.	ASSIS SUR TAPIS, LE(S) MEMBRE(S) SUPERIEUR(S) EN APPLI : MANTENIR LA POSITION 2 SECONDES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 23.
* 24.	ASSIS SUR TAPIS : MANTENIR LA POSITION SANS APPUI DES MEMBRES SUPERIEURS 3 SECONDES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 24.
* 25.	ASSIS SUR TAPIS, UN PETIT JOUET DEVANT LUI : SE METTRE EN CONTACT AVEC LE JOUET, SE REPRENDRE SANS APPUI DES MEMBRES SUPERIEURS	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 25.
* 26.	ASSIS SUR TAPIS : LIEVE LA TETE EN FAISANT UN MOUVEMENT DE LA TETE A 45° GAUCHE EN CONTACT AVEC LE JOUET	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 26.
* 27.	ASSIS SUR TAPIS : LIEVE LA TETE EN FAISANT UN MOUVEMENT DE LA TETE A 45° DROITE EN CONTACT AVEC LE JOUET	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 27.
28.	ASSIS LATERAL D : MANTENIR LA POSITION SANS APPUI DES MEMBRES SUPERIEURS 3 SECONDES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 28.
29.	ASSIS LATERAL G : MANTENIR LA POSITION SANS APPUI DES MEMBRES SUPERIEURS 3 SECONDES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 29.
* 30.	ASSIS SUR TAPIS : SE COUCHE EN OCCUPANT LE CENTRE EN CONTACT AVEC LE SOL	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 30.
* 31.	ASSIS SUR TAPIS, PIEDS EN AVANT : ATTENDRE LE 4 POINTS D'APPLI EN PASSANT PAR LA D	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 31.
* 32.	ASSIS SUR TAPIS, PIEDS EN AVANT : ATTENDRE LE 4 POINTS D'APPLI EN PASSANT PAR LA G	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 32.
33.	ASSIS SUR TAPIS : FAIRE UN BANC SUR UN BANC EN GARANTANT LES EXTREMITES SUPERIEURES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 33.
* 34.	ASSIS SUR UN BANC : MANTENIR LA POSITION SANS APPUI DES MEMBRES SUPERIEURS 3 SECONDES	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 34.
* 35.	DEBOUT : ATTENDRE LA POSITION ASSISE SUR UN PETIT BANC	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 35.
* 36.	AU SOL : ATTENDRE LA POSITION ASSISE SUR UN PETIT BANC	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 36.
* 37.	AU SOL : ATTENDRE LA POSITION ASSISE SUR UN GRAND BANC	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 37.

TOTAL RUBRIQUE B

Item	E : MARCHÉ, COURSE ET SAUT	COTATION	NT
* 65.	DEBOUT LES 2 MAINS SUR UN GRAND BANC : SE DESSUS LATERALEMENT EN FAISANT UN BANC D	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 65.
* 66.	DEBOUT LES 2 MAINS SUR UN GRAND BANC : SE DESSUS LATERALEMENT EN FAISANT UN BANC G	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 66.
* 67.	DEBOUT LES 2 MAINS TENUES : MARCHER EN FAISANT UN BANC	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 67.
* 68.	DEBOUT 1 MAIN TENUE : MARCHER EN FAISANT UN BANC	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 68.
* 69.	DEBOUT : MARCHER EN FAISANT UN BANC	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 69.
* 70.	DEBOUT : MARCHER EN FAISANT UN BANC, GARANTIR LE CONTACT AVEC LE SOL	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 70.
* 71.	DEBOUT : MARCHER EN FAISANT UN BANC	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 71.
* 72.	DEBOUT : MARCHER EN FAISANT UN BANC EN GARANTANT LE CONTACT AVEC LE SOL	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 72.
* 73.	DEBOUT : MARCHER EN FAISANT UN BANC EN GARANTANT LE CONTACT AVEC LE SOL	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 73.
* 74.	DEBOUT : MARCHER EN FAISANT UN BANC EN GARANTANT LE CONTACT AVEC LE SOL	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 74.
* 75.	DEBOUT : CHANGER DE DIRECTION EN FAISANT UN BANC EN GARANTANT LE CONTACT AVEC LE SOL	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 75.
* 76.	DEBOUT : CHANGER DE DIRECTION EN FAISANT UN BANC EN GARANTANT LE CONTACT AVEC LE SOL	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 76.
* 77.	DEBOUT : CHANGER DE DIRECTION EN FAISANT UN BANC EN GARANTANT LE CONTACT AVEC LE SOL	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 77.
* 78.	DEBOUT : CHANGER DE DIRECTION EN FAISANT UN BANC EN GARANTANT LE CONTACT AVEC LE SOL	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 78.
* 79.	DEBOUT : CHANGER DE DIRECTION EN FAISANT UN BANC EN GARANTANT LE CONTACT AVEC LE SOL	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 79.
* 80.	DEBOUT : SAUTE EN FAISANT UN BANC EN GARANTANT LE CONTACT AVEC LE SOL	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 80.
* 81.	DEBOUT : SAUTE EN FAISANT UN BANC EN GARANTANT LE CONTACT AVEC LE SOL	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 81.
* 82.	DEBOUT : SAUTE EN FAISANT UN BANC EN GARANTANT LE CONTACT AVEC LE SOL	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 82.
* 83.	DEBOUT : SAUTE EN FAISANT UN BANC EN GARANTANT LE CONTACT AVEC LE SOL	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 83.
* 84.	DEBOUT EN SE TENANT A UNE RAMPE : MARCHER EN FAISANT UN BANC EN GARANTANT LE CONTACT AVEC LE SOL	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 84.
* 85.	DEBOUT EN SE TENANT A UNE RAMPE : MARCHER EN FAISANT UN BANC EN GARANTANT LE CONTACT AVEC LE SOL	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 85.
* 86.	DEBOUT : MARCHER EN FAISANT UN BANC EN GARANTANT LE CONTACT AVEC LE SOL	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 86.
* 87.	DEBOUT : MARCHER EN FAISANT UN BANC EN GARANTANT LE CONTACT AVEC LE SOL	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 87.
* 88.	DEBOUT SUR UNE MARCHÉ DE 15 CM DE HAUT : SAUTE EN FAISANT UN BANC EN GARANTANT LE CONTACT AVEC LE SOL	0	<input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 88.

TOTAL RUBRIQUE E

Cette évaluation était-elle conforme aux capacités habituelles de l'enfant ? Oui  Non

COMMENTAIRES :

\_\_\_\_\_  
 \_\_\_\_\_  
 \_\_\_\_\_  
 \_\_\_\_\_  
 \_\_\_\_\_  
 \_\_\_\_\_  
 \_\_\_\_\_



# EMFG

## RESUME DE COTATION

RUBRIQUE	CALCUL DES COTATIONS EN % PAR RUBRIQUE	ZONE CIBLE <small>indiquer en cochant X</small>
A. Couché et retournement	Total rubrique A = $\frac{51}{51} \times 100 = \text{_____} \%$	A. <input type="checkbox"/>
B. Position assise	Total rubrique B = $\frac{60}{60} \times 100 = \text{_____} \%$	B. <input type="checkbox"/>
C. Quatre pattes et à genoux	Total rubrique C = $\frac{42}{42} \times 100 = \text{_____} \%$	C. <input type="checkbox"/>
D. Station debout	Total rubrique D = $\frac{39}{39} \times 100 = \text{_____} \%$	D. <input type="checkbox"/>
E. Marche, course et saut	Total rubrique E = $\frac{72}{72} \times 100 = \text{_____} \%$	E. <input type="checkbox"/>

SCORE TOTAL =  $\frac{\%A + \%B + \%C + \%D + \%E}{\text{Nombre total de rubriques}}$

=  $\frac{+ + + +}{5} = \frac{\text{_____}}{5} = \text{_____} \%$

SCORE TOTAL CIBLE =  $\frac{\text{Somme des cotations en \% pour chaque rubrique identifiée comme zone cible}}{\text{Nombre de zones cible}}$

=  $\frac{\text{_____}}{\text{_____}} = \text{_____} \%$

**GMFM-66 Gross Motor Ability Estimator Score<sup>1</sup>**

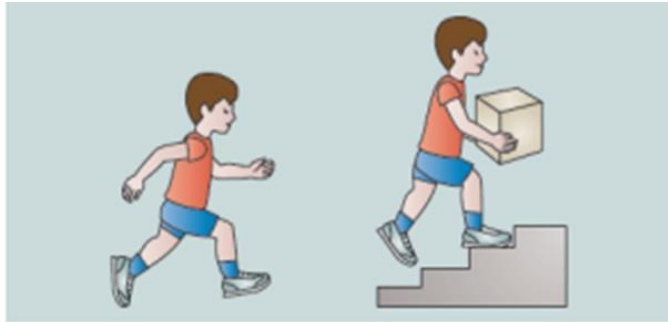
Score EMFG-66 = \_\_\_\_\_ à \_\_\_\_\_  
Intervalle de confiance 95 %

Score EMFG-66 précédent = \_\_\_\_\_ à \_\_\_\_\_  
Intervalle de confiance 95 %

Evolution de l'EMFG-66 = \_\_\_\_\_

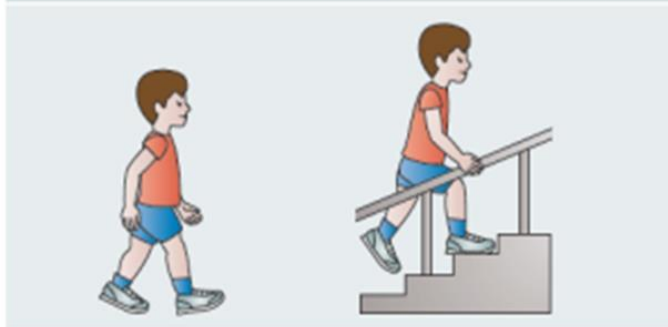
<sup>1</sup> À partir du logiciel Gross Motor Ability Estimator (GMAE)

## Annexe B: Gross Motor Functional Classification System (GMFCS)



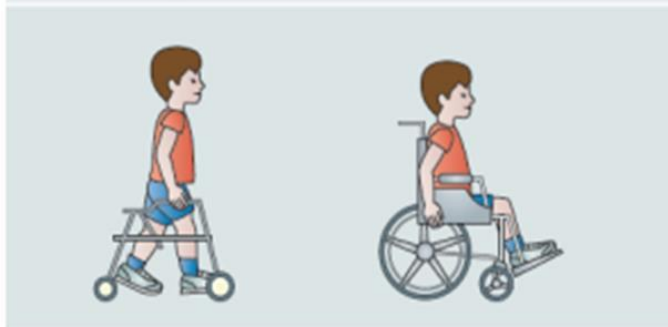
**Niveau I: marche sans limitation; difficultés dans les activités motrices globales plus évoluées.**

Les enfants marchent en intérieur et extérieur et montent les escaliers sans difficultés. Les enfants réalisent des activités motrices globales telles que courir ou sauter mais avec une vitesse, un équilibre et une coordination altérés.



**Niveau II: marche sans aide technique; difficultés pour la marche à l'extérieur et dans les lieux publics.**

Les enfants marchent en intérieur et extérieur et montent les escaliers en se tenant à une rampe mais sont en difficulté lors des déplacements en terrains accidentés ou en pente, ainsi que dans la foule ou les espaces restreints.



**Niveau III: marche avec aide technique; difficultés pour la marche à l'extérieur et dans les lieux publics.**

Les enfants marchent en intérieur et extérieur sur terrain plat avec aide technique. Certains enfants peuvent monter les escaliers en se tenant à une rampe. Les enfants propulsent un fauteuil roulant ou sont déplacés par une tierce personne pour les longues distances ou à l'extérieur en les terrains accidentés.



**Niveau IV: déplacement autonome difficile; les enfants sont déplacés par une tierce personne ou utilisent un fauteuil roulant électrique à l'extérieur.**

Les enfants peuvent marcher sur de courtes distances avec un cadre mais se déplacent essentiellement en fauteuil roulant à la maison, à l'école et dans les lieux publics.



**Niveau V: l'autonomie de déplacement est extrêmement limitée même avec une aide technique.**

Les troubles moteurs limitent le contrôle volontaire des mouvements et la capacité des enfants à maintenir leur tête et leur tronc contre pesanteur. Tous les aspects de la fonction motrice sont limités. Les enfants n'ont pas la possibilité d'un déplacement autonome et sont déplacés par une tierce personne.

## **Annexe C : échelles d'Ashworth et d'Ashworth Modifiée**

### **Echelle d'Ashworth**

- 0 Pas d'augmentation du tonus musculaire
- 1 Augmentation discrète du tonus musculaire se manifestant par un ressaut suivi d'un relâchement ou par une résistance minime à la fin du mouvement.
- 2 Augmentation plus marquée du tonus musculaire touchant la majeure partie de l'amplitude articulaire, l'articulation pouvant être mobilisée facilement.
- 3 Augmentation importante du tonus musculaire rendant la mobilisation passive difficile.
- 4 L'articulation concernée est fixée en flexion ou en extension, en abduction ou adduction. Le mouvement passif est impossible.

### **Echelle d'Ashworth modifiée Bohannon**

- 0 Pas d'augmentation du tonus musculaire
- 1 Augmentation discrète du tonus musculaire se manifestant par un ressaut suivi d'un relâchement ou par une résistance minime à la fin du mouvement.
- 1+ Augmentation discrète du tonus musculaire se manifestant par un ressaut suivi d'une résistance minime perçue sur moins de la moitié de l'amplitude articulaire.
- 2 Augmentation plus marquée du tonus musculaire touchant la majeure partie de l'amplitude articulaire, l'articulation pouvant être mobilisée facilement.
- 3 Augmentation importante du tonus musculaire rendant la mobilisation passive difficile.
- 4 L'articulation concernée est fixée en flexion ou en extension, en abduction ou adduction. Le mouvement passif est impossible.

**D'après Bérard C (2010). La Paralyse Cérébrale de l'enfant: Guide de la consultation, examen neuro-orthopédique du tronc et des membres inférieurs. Sauramps Médical.**

## **Annexe D : échelles de Tardieu et de Tardieu Modifiée**

### **Echelle de Tardieu.**

#### *L'intensité du réflexe d'étirement*

- 0 Pas de résistance tout au long du mouvement.
- 1 Discrète augmentation de la résistance au cours du mouvement passif sans que l'on puisse ressentir clairement un ressaut à un angle précis.
- 2 Ressaut franc interrompant le mouvement passif à un angle précis, suivi d'un relâchement.
- 3 Clonus épuisable (<10 secondes lorsque l'on maintient l'étirement) survenant à un angle précis.
- 4 Clonus inépuisable (>10 secondes lorsque l'on maintient l'étirement) survenant à un angle précis.

#### *L'angle où apparaît la réaction musculaire.*

La mesure est rapportée à une position de référence pour chaque articulation (correspondant à l'angle 0).

#### *La vitesse d'étirement*

- V1 Lente
- V2 Contre pesanteur (chute du membre)
- V3 Rapide

### **Echelle de Tardieu modifiée Boyd.**

- R1 Angle d'apparition du réflexe d'étirement à vitesse rapide (V3)
- R2 Angle de mesure de la mobilité passive à vitesse lente (V1) (ou mesure de la course musculaire à vitesse lente)
- R1-R2 Secteur angulaire de la composante dynamique

**D'après Bérard C (2010). La Paralysie Cérébrale de l'enfant: Guide de la consultation, examen neuro-orthopédique du tronc et des membres inférieurs. Sauramps Médical.**

## Annexe E : Selective Control Assessment of Lower Extremity (SCALE)



### SCALE: Selective Control Assessment of the Lower Extremity Score Sheet

Date: \_\_\_\_\_ Patient's Name: \_\_\_\_\_ DOB: \_\_\_\_\_ GMFCS level: \_\_\_\_\_

Diagnosis:  spastic diplegia  spastic quadriplegia  spastic hemiplegia R L other: \_\_\_\_\_

Grade	Left					Right					
	Hip	Knee	Ankle	STJ	Toes	Hip	Knee	Ankle	STJ	Toes	
Normal (2 points)											
Impaired (1 point)											
Unable (0 points)											
<b>Total Limb Score</b>	<b>L=</b>										<b>R=</b>

#### Resisted Synergy

knee extension with resisted limb extension										
dorsiflexion with resisted limb flexion										

#### Descriptors

hip flexion contracture										
adductor contracture or spasticity										
knee flexion contracture										
hamstring tightness										
plantar flexion contracture										
plantar flexor spasticity										
inverts or everts, not pure dorsiflexion										
primarily moves toes										
mirrors motion on opposite limb										
motion slower than 3 second verbal count										
moves one direction only (note motion achieved)										
movement of other joints										
motion < 50% of available ROM										

Other comments regarding test: \_\_\_\_\_

\_\_\_\_\_  
 \_\_\_\_\_  
 \_\_\_\_\_

Examiner

## SCALE: Selective Control Assessment of the Lower Extremity Instructions for Grading

Each joint is scored either 2,1 or 0 points. These are summed for a Total Limb Score. The number of points for each grade is in parentheses. For each joint, check the joint score and all applicable descriptors on the *SCALE Score Sheet*.

### Hip

- Normal (2) Flexes, extends then flexes again. During flexion, movement occurs without knee flexion, within a three-second verbal count and without mirror movement (the same movement on the contralateral limb). If alternate hip extension test is used, extends, flexes then extends again. During extension, movement occurs without knee extension, within a three-second verbal count and without mirror movement.
- Impaired (1) One or more of the following occur: extends or flexes  $\leq$  50% of available range of motion in the test position, performs task slower than three-second verbal count, exhibits mirror movements, movement occurs in only one direction or motion at untested joint occurs.
- Unable (0) Does not flex or extend hip or does so only with simultaneous knee movement.

### Knee

- Normal (2) Extends, flexes and extends again. Movement occurs within three-second verbal count, without motion of the trunk or other joints and without mirror movement. A Normal grade may be given if the knee extends  $>$  50% of available range of motion in the test position.
- Impaired (1) One or more of the following occur: extends  $\leq$  50% of available range of motion, performs task slower than three-second verbal count, exhibits mirror movements, movement occurs in only one direction or motion at untested joint occurs.
- Unable (0) Does not extend or only extends with simultaneous hip or ankle movement.

### Ankle

- Normal (2) Dorsiflexes, plantar flexes and dorsiflexes again. Movement occurs within a three-second verbal count, without motion at other joints and without mirror movement. At least 15° of ankle motion in the sagittal plane must be observed.
- Impaired (1) One or more of the following occur: dorsiflexes  $\leq$  50% of available passive range of motion in the test position or active range during Limb Flexion Synergy, performs task slower than three-second verbal count, exhibits mirror movements, movement occurs in only one direction or motion at untested joint occurs. An "Impaired" grade is given if the motion is accompanied by toe extension or ankle inversion.
- Unable (0) Does not dorsiflex or only dorsiflexes with hip and knee flexion.

### Foot/Subtalar Joint

- Normal (2) Inverts, everts and inverts again. Movement occurs within a three-second verbal count, without motion at other joints and without mirror movement. Active eversion must occur.
- Impaired (1) One or more of the following occur: inverts or everts  $\leq$  50% of available range of motion, performs task slower than three-second verbal count, exhibits mirror movements, movement occurs in only one direction or motion at untested joint occurs.
- Unable (0) Does not invert or evert or movement occurs only in synergy pattern. May dorsiflex, plantar flex or not move ankle at all.

### Toes

- Normal (2) Flexes, extends and flexes again. Movement occurs within a three-second verbal count, without motion at other joints and without mirror movement. Motion should occur at all five toes.
- Impaired (1) One or more of the following occur: flexes or extends  $\leq$  50% of available range of motion, performs task slower than three-second verbal count, exhibits mirror movements, movement occurs in only one direction or motion at untested joint occurs.
- Unable (0) Does not flex or extend toes.

#### **Difference between Unable and Impaired**

Unable (total synergy) has simultaneous movement at two or more joints. For every degree of motion at the desired joint, concomitant obligatory motion that is a part of the synergy pattern occurs at another joint in the limb. Patients with impaired motor control may be able to move the desired joint through a small arc of motion without any other joint motion, however a portion of the motion is accompanied by motion at an adjacent joint.

#### **Difference between Impaired and Normal**

Normal motor control is the ability to isolate joint motion through more than 50% of the available ROM within a three-second verbal count in an alternating fashion. The motion occurs without accompanying motion at any other joints of either limb. The inability to perform this task is impaired.

### ***SCALE: Directions for administration***

The patient must be able to follow simple motor commands. To test this ability, ask the patient to move his or her least affected body part. Before asking the patient to perform each joint test, passively move the joint to assess ROM. To assure understanding, demonstrate the movement sequence while supporting the limb. The language in the instructions to the patient is suggested and may be modified as needed to elicit optimum performance for individual patients. To guide patients in the desired speed of movement, provide a verbal three-second count during the task. Multiple attempts are allowed and feedback to improve performance is acceptable.

**General instructions to patient** – *“I am going to ask you to move in a certain way. Move the way I ask you to move. Try not to move any other part of your body. If you have any questions or you don’t understand what I am asking you to do, please tell me.”*

#### **Hip**

**Position** – Side lying with the hip and knee fully extended. Support the limb medially at the knee and ankle. For stability, you may flex the lower untested limb. The tested motion is hip flexion while keeping the knee extended. Assess hip flexion ROM with the knee extended, as it may be limited by hamstring tightness. If the patient has difficulty with this task because of hamstring tightness, then ask him or her to extend, flex then extend the hip while keeping the knee flexed 90°. Evaluate hip extension ROM to assure an adequate arc of motion to assess performance of the task.

**Instructions to patient** – *Ask the patient to flex, extend then flex the hip while keeping the knee extended. For example: “Move your leg forward, back then forward again while keeping your knee straight. I will take you through the motion first, and then I’d like you to do it yourself.”*

#### **Knee**

**Position** – The remaining tests are done in sitting with legs over the edge of the exam table. During the remaining tests you may allow the patient to lean back on his or her hands so the trunk is approximately 20° from vertical to compensate for hamstring tightness.

**Instructions** – *Ask the patient to extend, flex then extend the knee while keeping the hip flexed. For example: “Straighten your knee as much as you can, then bend it and straighten again. Try to do this without leaning further back or moving your other leg. I will take you through the motion first, and then I’d like you to do it yourself.”*

**Limb Extension Synergy** – If quadriceps weakness is suspected, limb extension synergy may be assessed. Allow the patient to lean back on his or her hands or be supported so the trunk is approximately 45° from vertical. Position the limb in hip and knee flexion with ankle dorsiflexion. Ask the patient to push against your hand, extending the knee and plantar flexing the foot and toes. Resist at the metatarsal heads and compare knee extension excursion to the amount achieved during the knee selective voluntary motor control test.

#### **Ankle**

**Position** – Sitting, as in the knee extension test. The knee is extended and the examiner supports the calf. Assess passive ankle dorsiflexion ROM with the knee extended. The knee may be flexed to approximately 20° if needed to accommodate hamstring and/or gastrocnemius tightness.

**Instructions to patient** – *Ask patient to dorsiflex, plantar flex then dorsiflex the ankle while maintaining knee extension. For example: “Keeping your knee straight while I support your leg, move your foot up, down then up again. I will take you through the motion first, then I’d like you to do it yourself.”*

**Limb Flexion Synergy (Confusion Test)** – If dorsiflexor muscle weakness is suspected, limb flexion synergy may be assessed. Ask the patient to flex the hip while keeping the knee flexed. Resist hip flexion at the distal thigh. Compare dorsiflexion excursion to the amount achieved during the ankle selective voluntary motor control test.

#### **Foot/Subtalar Joint**

**Position** – Sitting, as in the knee and ankle tests. The calf is supported.

**Instructions to patient** – *Ask patient to invert, evert then invert while maintaining knee extension. For example: “Move your ankle in, then out then in again while I support your leg. I will take you through the motion first, then I’d like you to do it yourself.”*

#### **Toes**

**Position** – Sitting, as in the ankle test. The heel is supported.

**Instructions to patient** – *Ask patient to flex, extend then flex toes without moving ankle or knee. For example: “Curl all your toes down, then up then down again while I support your leg. I will take you through the motion first, then I’d like you to do it yourself.”*





## What causes increased passive stiffness of plantarflexor muscle–tendon unit in children with spastic cerebral palsy?

Clément Boulard<sup>1,2</sup> · Raphaël Gross<sup>3</sup> · Vincent Gautheron<sup>1,2</sup> · Thomas Lapole<sup>1</sup>

Received: 16 May 2019 / Accepted: 6 August 2019  
© Springer-Verlag GmbH Germany, part of Springer Nature 2019

### Abstract

**Purpose** The term ‘stiffness’ is commonly used in the literature to refer to various components of ‘hyperresistance’ by which spastic muscles oppose to their passive lengthening, especially in children with cerebral palsy (CP). Originally, stiffness consists of mechanical resistance to passive movement in the absence of any muscle activation. Increased muscle stiffness in CP therefore refers to alterations to the mechanical properties of the tissue. It is closely linked to muscle shortening, yet the two phenomena are not equivalent. Both increased stiffness and shortening are present early in childhood in the plantarflexor muscles of children with spastic CP.

**Methods** This narrative review provides a comprehensive overview of the literature on passive stiffness of the plantarflexor muscles measured at the joint, muscles, fascicles, and fiber level in children with CP. Articles were searched through the Pub’Med database using the keywords “cerebral palsy” AND “stiffness”.

**Result** The ambiguous use of the term ‘stiffness’ has been supported by discrepancies in available results, influenced by heterogeneity in materials, methodologies and characteristics of the participants among studies. Increased stiffness at the joint and muscle belly level may be explained by altered structural properties at the microscopic level.

**Conclusion** This thorough investigation of the literature suggests that the pathophysiology and the time course of the development of stiffness and contracture remain to be elucidated. A consideration of both morphological and mechanical measurements in children with CP is important when describing the alterations in their plantarflexors.

**Keywords** Stiffness · Plantarflexors · Cerebral palsy · Children · Contracture

### Abbreviations

AT	Achilles tendon
CP	Cerebral palsy
DF	Dorsiflexion
ECM	Extracellular matrix
GL	Gastrocnemius lateralis
GM	Gastrocnemius medialis
GMFCS	Gross motor function classification system

PF	Plantarflexors
SWE	Shear wave elastography
TD	Typically developing

### Introduction

Cerebral palsy (CP) refers to motor impairments after brain damage occurring perinatally (Rosenbaum et al. 2007), with a prevalence of 1.7 per 1000 live births in Europe (Sellier et al. 2016). Spastic CP, where the brain lesions affect the corticospinal pathways, is the most frequent form of CP (Bax et al. 2005; Cahill-Rowley and Rose 2014). From a neuromuscular point of view, spastic CP is the combination of four interrelated alterations: impaired selective motor control, muscle weakness, spasticity, and short muscle–tendon unit length (Cahill-Rowley and Rose 2014). As can be perceived by the clinician, the plantarflexor (PF) muscles are commonly affected in children with spastic CP and are highly subjected to increased resistance to passive elongation

Communicated by Michael Lindinger.

✉ Clément Boulard  
clement.boulard@univ-st-etienne.fr

<sup>1</sup> Univ Lyon, UJM Saint-Etienne, Laboratoire Interuniversitaire de biologie de la motricité, EA7424, 42023 Saint-Etienne, France

<sup>2</sup> CHU Saint-Etienne, Service de Médecine Physique et de Réadaptation Pédiatrique, Saint-Etienne, France

<sup>3</sup> Nantes Université, CHU Nantes, Laboratoire Motricité-Interactions-Performance, MIP, EA4334, 44000 Nantes, France

Published online: 30 August 2019

Springer



(Bar-On et al. 2015) and decreased range of motion (Häglund and Wagner 2011). It is then of importance to distinguish the neural (central nervous system related) from the non-neural (tissue related) origins of increased PF resistance to passive lengthening in an attempt to better define therapeutic strategies (Bar-On et al. 2015). This remains, however, very challenging for clinicians and researchers because of the highly complex nature of these impairments and the many potential disorders that can be involved (Bar-On et al. 2015; Gracies 2005). For instance, a confusion still exists in the literature between different neurological or non-neurological disorders such as “spasticity”, “stiffness”, “abnormal muscle tone”, “hypertonia” or “intermittent or sustained involuntary activation of muscles” (Malhotra et al. 2009). This recently led a European consensus of experts to emphasize the neutral term of “hyper-resistance”, defined as impaired neuromuscular response to passive muscle stretch in subjects with neurological disorders (van den Noort et al. 2017). The authors further defined “spasticity” as a velocity-dependent stretch hyperreflexia (van den Noort et al. 2017). This distinction should clarify which source of resistance the researchers are investigating in future studies: its neural component (relying on involuntary activation of muscles, creating a resistive torque during externally induced lengthening), or its non-neural component (i.e., the passive mechanical properties of the muscle that is stretched).

Spasticity has been extensively investigated in children with CP. For decades, many studies have contributed to describe its pathophysiology (Bar-On et al. 2015; Gracies 2005), the psychometric properties of its clinical and instrumental assessment (Bar-On et al. 2014a; Scholtes et al. 2005), as well as the effectiveness of treatments targeting it (Bar-On et al. 2014b; Desloovere et al. 2012). In contrast, less attention has been given to the investigation of the mechanical properties of the muscle–tendon unit. Besides altered muscle morphology and structure in children with CP (Barrett and Lichtwark 2010), mechanical properties such as passive stiffness should also be considered. However, the term stiffness has been used to describe various morphological and mechanical properties of the muscle, such as elasticity, viscosity, or even shortening (van den Noort et al. 2017). For example, Farmer and James (2001) defined contracture as ‘a decrease in muscle length and an increase in passive muscle stiffness’, therefore assuming that increased stiffness is a component of contracture. This entanglement is an obstacle to the access to clear evidence on the issue of stiffness in pathological muscles.

Surprisingly, ankle joint passive stiffness, firstly introduced by Tardieu et al. (1982), has not been investigated in children with CP in a comprehensive manner, so that unequivocal conclusions cannot be made. However, increased ankle joint passive stiffness has been commonly reported in many patients with neurological disorders such as stroke

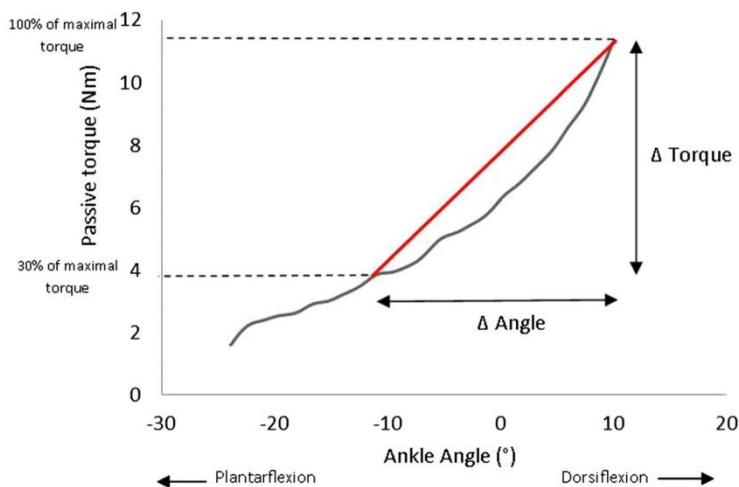
(Gao et al. 2009; Sinkjær and Magnussen 1994), multiple sclerosis (Sinkjær et al. 1993), or in adults with CP (Geertsen et al. 2015). Moreover, increased ankle joint passive stiffness has been reported to alter gait pattern (Geertsen et al. 2015; Marsden et al. 2012), with a high incidence of equinus gait in the population of children with CP (Cobeljic et al. 2009; Goldstein and Harper 2007).

Excessive pressure on the metatarsal heads, increased ankle plantarflexion moments leading to knee hyperextension, and reduced ankle plantarflexion at push-off are the main features of equinus gait (Gage et al. 2009; Perry 1992). The pathophysiology of equinus in children with CP is not fully understood yet (Pingel et al. 2017) and we assume that a long-lasting confusion between what stiffness is, and what it is not, has been a major cause of misunderstanding and impediment to the understanding of equinus in children with CP. It is highly speculated that a combination of impairment of muscle growth and subsequent altered muscle adaptation (e.g., fatty infiltration, fibrosis, increase of collagen content) are involved in this process (Gough and Shortland 2012). However, both phenomena may be responsible for increased muscle passive tension and reduced lengthening capacity. Muscle stiffness of the plantarflexors therefore appears as an issue that is globally considered as highly relevant for all caregivers who deal with motor impairment and limitations in locomotor function in children with CP. A strict definition of the term stiffness and how it could be measured and distinguished from muscle shortening may help clinicians and researchers to understand the mechanisms underlying equinus.

Here, we consider passive stiffness as a measure of stretch resistance without any muscle activation, according to its mechanical definition (see Fig. 1). On the other hand, muscle contracture of the plantarflexors is defined as a reduction in the dorsiflexion range of motion at the ankle, as measured clinically. Considering the whole joint, passive resistance is the result of passive lengthening of several different anatomical structures (i.e., joint capsule, muscles, tendons, skin, fascia, or ligaments), among which muscles are considered to be the primary contributor (Lieber et al. 2017). As defined above, passive stiffness is usually measured by establishing torque–angle curves, which can be coupled with 2D ultrasonography to specifically estimate muscle and tendon stiffness. An alternative method, called shear wave elastography (SWE), is now widely used. It allows measuring a level of tension in a specific tissue such as a superficial muscle or tendon.

In an attempt to perform an integrative overview of the concept of stiffness, including its difference from muscle shortening and its link with the development of such shortening/contracture in children with CP, the present review aims at describing the available data about PF muscle length and stiffness at different levels (i.e., joint, muscle, tendon,

**Fig. 1** Example of a torque–angle relationship obtained during passive mobilization of the ankle joint at 2°/s on a paretic leg in a child with unilateral spastic CP. Ankle angle was measured between the tibia and the foot sole. Ankle joint stiffness ( $\Delta\text{Torque}/\Delta\text{Angle}$ ) was measured as the slope of the torque–angle relationship (grey line) between 30 and 100% of the maximal torque recorded (Barber et al. 2011). Personal data from our research team



fascicles, fibers, sarcomeres). We try to present the data in this hierarchical manner, from the overall clinical impairment to the microscopic alterations in muscles, to enhance the potential translational value of the present review. We assume that understanding why muscle stiffness remains such an unraveled phenomenon to date will help point out the gaps in current knowledge and provide insights into the perspectives of future research.

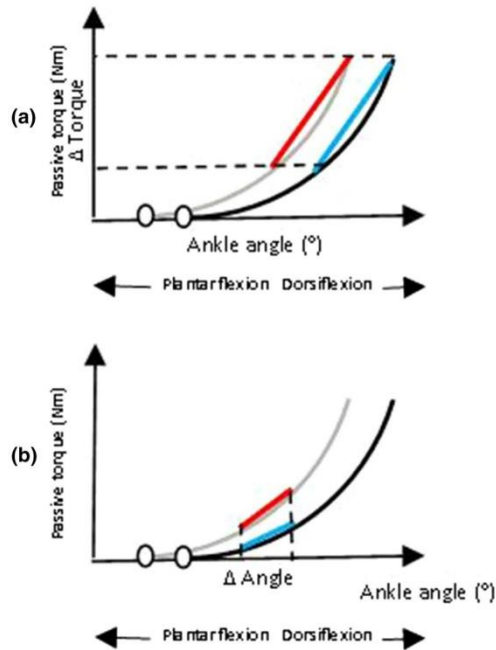
Articles were searched through the PubMed database (up to April 2019) using the keywords “cerebral palsy” AND “stiffness”. Articles were then checked for pertinent content and included in the current review when investigating passive stiffness of PF muscles in children with CP. Further articles were considered after scanning the reference lists of the included articles. Only articles that were published in English were included.

### Passive ankle joint stiffness

For decades, researchers have investigated joint resistance to passive stretch by recording torque at the joint level during slow mobilization. By establishing torque–angle curves (Fig. 1), one may calculate joint passive stiffness as the slope of the relationship. Passive stiffness (expressed in  $\text{Nm}^\circ$  or  $\text{Nm}/\text{rad}$ ) then represents the ratio of change in passive resistance (i.e., passive torque) to change in joint angle (Gajdosik 2001). From a mechanical perspective, it is fundamental to consider that establishing such relationships between torque or force, on one hand, and angle or length, on the other, is mandatory to use the word ‘stiffness’. Though it relies on

instrumental measures (dynamometer), the calculation of torque/angle relationships is a convenient and easy-to-implement method to assess stiffness at the overall joint level. Moreover, it is easily interpreted by the clinicians, as it is related to the phenomena that are evaluated clinically (where resistance and range of motion are rated while performing passive ankle dorsiflexion manoeuvres) and fits the data provided by gait analysis laboratories (where kinematics and kinetics are measured and computed at the joint level).

Tardieu et al. (1982) were the first to report increased stretch resistance of the ankle (i.e., joint passive stiffness) in children with CP. They also demonstrated a more plantarflexed position of the slack angle (the angle where the joint moment, measured by the dynamometer, starts to rise, as a consequence of the onset of tension within the anatomical components) in children with CP. Thereafter, increased ankle joint passive stiffness in children with CP was confirmed by other studies (Alhusaini et al. 2010; Barber et al. 2011; de Gooijer-van de Groep et al. 2013), though one study found similar stiffness in both populations (Kruse et al. 2017) and two studies found mitigated, heterogeneous results (Ross et al. 2011; Willerslev-Olsen et al. 2013). Few studies provided detailed data about the relationship between clinically assessed ankle contracture and ankle stiffness. De Gooijer-van de Groep et al. 2013 found a significant (negative) relationship between the slope of the torque–angle curve and the maximal ankle joint dorsiflexion (DF) angle, with the knee flexed, in 15 year-old-children with CP. In this study, ankle joint stiffness explained 84% of the total variance of ankle range of motion (de Gooijer-van de Groep et al. 2013). More recently, Willerslev-Olsen et al. (2018) found a moderate



**Fig. 2** Examples of torque–angle relationship in children with CP (grey line) with reduced maximal DF angle and a more plantarflexed slack angle (circle) compared to peers with TD (black line). Ankle angle was represented by the angle between the tibia and the foot sole. Ankle joint stiffness value may be similar between children with CP and TD when calculated on the same relative torque range (a) or increased in children with CP when calculated on the same absolute range of angle (b). Children with CP in this example present with ankle contracture (reduced maximal dorsiflexion angle) and a reduced slack angle. The stiffness of their ankle will be considered as higher than the stiffness in children with TD if method (b) is used, while

it will be considered as normal if method (a) is used. Actually, the shapes of the two torque–angle curves obtained from the two samples are the same, but the curve of the children with CP is “shifted to the left” relative to curve of the children with TD. Therefore, in this example, it should be concluded that children with CP present with ankle contracture, but not with increased ankle stiffness as the passive mechanical properties assessed by the torque–angle relationship do not differ. Torque–angle curves have been obtained based on the outcomes from the literature in children with CP (Alhusaini et al. 2010; Ross et al. 2011)

(negative) correlation between passive stiffness and maximal DF angle in very young children (i.e., under 29 months) with CP. However, Tardieu et al. (1982) in their pioneering work, did not find any correlation between increased passive stiffness and decreased maximal DF angle in children with CP with ankle contracture. The children with CP in this latter study had however severe ankle contracture (mean maximal DF angle:  $-9^\circ$ ), which might explain the lack of correlation.

Many parameters have to be taken into account before interpreting torque–angle relationships and may explain the discrepancies between results in the previously mentioned studies. Some are methodological considerations, while the others are intrinsically linked to the subjects who undergo the assessments.

Regarding methodological issues, despite that the measure of passive stiffness was determined using a linear method (i.e.,  $\Delta\text{torque}/\Delta\text{angle}$ ) in the majority of studies, the method of stiffness calculation differs between them according to the choice of the angle or torque range [e.g., between 30 and 100%, 20% and 80% and 50 and 90% of range of maximal torque for Barber et al. (2011), Theis et al. (2015) and Kruse et al. (2017), respectively; between  $5^\circ$  and  $10^\circ$  vs. on the last  $20^\circ$  of dorsiflexion angle for Alhusaini et al. (2010) vs. Ross et al. (2011)]. Considering this heterogeneity of methods, a part of the “toe region” (the beginning of the curve, corresponding to the initially non-linear increase in passive torque during ankle dorsiflexion) may be included in the analysis in some cases. However, how the “toe region” of the torque–angle curve influences passive stiffness measurement



remains unclear. The fact that stiffness has to be evaluated on a range of ankle angles makes it highly sensible to the choice of this range and to the presence of associated muscle shortening. In other words, passive stiffness outcomes are strongly influenced by the range that is used for slope calculation (Ross et al. 2011). The assessment of ankle joint passive stiffness in both children with CP and TD by considering the slope on the same absolute angle range, despite differences in maximal DF angle and slack angle, may lead to a comparison of different portions of the torque–angle curve. Indeed, passive ankle range of motion and maximal DF angle dramatically decrease during childhood in children with CP (Hägglund and Wagner 2011). This consists in PF muscles contractures, potentially as a consequence of a mismatch between bone and musculo-tendinous unit growth velocity (Švehlík et al. 2013). Consequently, as the PF muscles become short, maximal ankle dorsiflexion is reduced, and the torque–angle relationship curve is shifted toward plantarflexion. Hence, if stiffness is assessed on a common absolute range of motion, the slope of the curve would be systematically higher for children with CP having lower maximal DF angle (Fig. 2) (Ross et al. 2011). Ankle joint passive stiffness has not been investigated in children with CP in a consistent manner, so that unequivocal conclusions cannot be made. This may explain why Alhusaini et al. (2010) found that ankle joint passive stiffness in 7-year-old children with spastic CP was 225% higher than age-matched children with TD, while it was reported to be 51% higher in 17-year-old young adults (i.e., when assessing stiffness on a given relative torque range) (Barber et al. 2011) and 110% higher in 14-year-old teenagers with spastic CP (i.e., when assessing stiffness on a torque range, starting in a neutral 0°–DF angle position) (de Gooijer-van de Groep et al. 2013). Findings reporting an association of increased passive stiffness, decreased slack angle, and reduced maximal dorsiflexion (Barber et al. 2011; Tardieu et al. 1982), suggest that both shortening and altered mechanical properties (increased stiffness) may be present in older children with CP. Their association likely explains the difficulty to obtain unequivocal results about stiffness of the PF in this population (see above). Besides methods used to calculate joint stiffness, the influence of material and angular velocities has to be considered. To establish torque–angle relationships, isokinetic dynamometers were usually used to strictly control angular velocity and joint positioning (Barber et al. 2011; de Gooijer-van de Groep et al. 2013; Ross et al. 2011; Willerslev-Olsen et al. 2013). However, in some studies, a custom-made device was used (Alhusaini et al. 2010; Tardieu et al. 1982). As the experimental procedure may consist in manually rotating the footplate to produce sinusoidal stretch at a given speed, these methods may lead to a lack of consistent and regular mobilization velocity (Alhusaini et al. 2010; Moseley et al. 2001). For instance, angular velocity

used to passively move the ankle joint ranged from 1°/s (Theis et al. 2016) to 60°/s (Alhusaini et al. 2010) and was different between children with CP (60°/s) and peers with TD (88°/s) in the study of Alhusaini et al. (2010). Even if EMG monitoring was commonly used to verify the absence of voluntary or reflex muscle contraction (which may be elicited by high angular velocity) (Alhusaini et al. 2010), higher passive joint stiffness is commonly observed when increasing angular velocity because of the visco-elastic characteristics of the musculo-tendinous unit (McNair et al. 2002). This was recently confirmed for Achilles tendon (AT) passive stiffness in both children with TD and those with CP (Theis et al. 2016).

Finally, the positioning of children, because of its impact on hip and knee joint angles, needs to be precisely defined since it strongly influences the results of ankle joint and plantarflexor muscles stiffness (Maïsetti et al. 2012). The knee joint angle must be accurately controlled given that the gastrocnemii muscles are in a slack position at a flexed knee angle (Maïsetti et al. 2012). This was not the case in the study by Ross et al. (20° to 40° of knee flexion) (Ross et al. 2011), potentially inducing a high variability in passive stiffness measurements. In the other reviewed studies, ankle joint passive stiffness was investigated with either the knee flexed (de Gooijer-van de Groep et al. 2013; Ross et al. 2011; Willerslev-Olsen et al. 2013) or extended (Alhusaini et al. 2010; Barber et al. 2011; Kruse et al. 2017; Tardieu et al. 1982; Theis et al. 2016). Besides the knee angle, the position of the hip may have an influence on the results. Non-muscular structures (i.e., fascia or nervous tissue such as the sciatic nerve) have been shown to limit the magnitude of ankle dorsiflexion (Nordez et al. 2017). For example, it has been reported that the ankle maximal DF angle is higher when the hip is in neutral position (i.e., 0°) compared to a more flexed position (i.e., 30°) (Andrade et al. 2016). Accordingly, the results of passive stiffness measurements may be different between the seated and the prone/supine position because the plantarflexor muscles are not the limiting factor when the hip is flexed and the knee extended. Although presenting an exhaustive presentation of the proper methodology to investigate joint passive stiffness through torque–angle relationships is beyond the scope of the present review (Magnusson 1998), the following guidelines can be proposed:

- **Material** Isokinetic dynamometers still appear as the “gold standard” devices to control angular velocities and joint positioning and should therefore be preferred to custom-made device. However, it may be argued that more adjustable devices are needed to better adjust to pediatric morphology (e.g., young children), and foot deformity (e.g., valgus/varus deformity, mid-foot break, etc.). Moreover, to further improve the capacity of clinicians to record data at the bedside of children with CP,

- small and portable dynamometers have to be developed (Bénard et al. 2010).
- **Angular velocity** To avoid stretch reflex-induced contractions during lengthening of the PF muscles, the angular velocity must be very low. To counteract the impact of viscosity on passive stiffness and permit comparison between studies, angular velocities must be standardized. Referring to studies on healthy adults (Maïsetti et al. 2012) and children with CP (Theis et al. 2016), we suggest using an angular velocity of 2°/s.
  - **Joint positioning** It should be accurately described according to its impact on muscle slack length. The stiffness of the triceps surae must be assessed both with the knee flexed, to stretch the soleus, and with the knee extended, to stretch the gastrocnemii. Because of the influence of non-muscular structures on the ankle passive range of motion (Nordez et al. 2017), the positions of the spine, pelvis, and hips should be controlled and set to neutral angles during the assessments. Moreover, the terminology used to describe ankle position should be explicitly described. For example, the term “neutral angle” may be quantified as 90° or 0°. In this current review, we defined the neutral angle as 0° (i.e., the anatomical position). Accordingly, we reported ankle angle values as positive for the dorsiflexion phase and negative for the plantarflexion phase.
  - **Muscles conditioning** A number of passive loading/unloading cycles must be performed before the determination of passive joint/muscle stiffness (Maganaris 2003). Three (Theis et al. 2016) to five cycles (Maïsetti et al. 2012) of loading/unloading phases are commonly reported in the literature.
  - **EMG monitoring** It is of utmost importance to record the EMG muscle activity of both the agonist (triceps surae) and antagonist (tibialis anterior) muscles during the stretching procedures to ensure that the muscles are in a passive state (Le Sant et al. 2019a). Muscle activity should be monitored live, but also checked post hoc, because of the difficulty to identify EMG activity from direct visual observation.
  - **Methodology of data treatment** To discriminate between the origins of increased passive stiffness (i.e., shortening of PF muscles vs. altered mechanical properties), the slack angle or length has to be systematically measured. This may be performed for the ankle joint (Barber et al. 2011) or for a specific muscle using SWE (see below) (Le Sant et al. 2019b). This is a crucial point to limit the heterogeneity of passive stiffness outcomes reported in the literature.

Moreover, the choice of a similar and restricted range of ankle motion (e.g., 0° to 5° of DF) to compare children with TD and CP may not be representative of differences

in mechanical properties, regardless of often limited maximal DF angles in children with CP (Ross et al. 2011). Altogether, we suggest that the slack angle and maximal DF angle should be systematically characterized and that passive stiffness should be calculated on the angular sector between the slack angle and 80% of maximal passive dorsiflexion, as involuntary muscle activity is known to occur past this 80% threshold (McNair et al. 2001). Considering the range between slack angle and 80% of maximal dorsiflexion provides information on both shortening and stiffness of the muscle tissue (Herbert et al. 2002; Le Sant et al. 2019b).

Regarding intrinsic factors, data from numerous works have contributed to an improvement in our understanding of the factors that influence the development of muscle stiffness in children with CP. Some discrepancies between studies may be explained by differences in the characteristics of the children samples. For instance, while most of the studies tested children with poor functional status [i.e., Gross Motor Function Classification System (GMFCS) III and IV], no difference in ankle joint passive stiffness between children with spastic CP and a better functional level (i.e., GMFCS I and II) and their peers with TD were found by Kruse et al. (2017). It is also important to notice that significant between-subject variability was observed in children with CP. For example, Willerslev-Olsen et al. (2013) reported that 20 children with spastic CP out of 35 presented with higher ankle joint passive stiffness, compared with the average stiffness reported in children with TD, while the remaining 15 children did not. Similarly, Ross et al. (2011) reported stiffness values to be lower than those of their peers with TD in 42% of children with CP (out of a sample of 121 children). Therefore, it appears that some children with CP present with increased stiffness, while others have normal or low stiffness values of their PF muscles. To give insight into this heterogeneity and into the pathophysiological mechanisms leading to the overall stiffness increase at the joint level, further investigation is needed. In the next section, we detail studies which investigated the muscle tissue and provided data about its architecture, morphology, and stiffness.

## Passive muscle stiffness

### At the muscle belly level

Tracking the musculo-tendinous junction using 2D ultrasonography during slow passive mobilization of the ankle may offer the opportunity to specifically estimate muscle and tendon stiffness during passive ankle DF (Cronin and Lichtwark 2013). Passive muscle stiffness is calculated in most studies as the slope of the muscle force–length curve, muscle force being estimated from the joint torque thanks

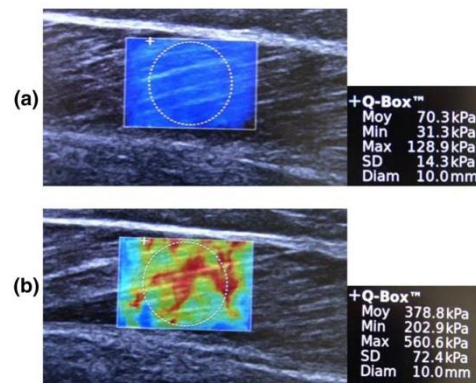


to motion analysis and muscle modeling (Theis et al. 2016), or mathematical regression (Kruse et al. 2017).

Such approaches have led to controversial findings. Theis et al. (2016) reported significantly higher passive GM stiffness in children with CP and a low functional level [mean age = 11.4 (3) years, GMFCS score III and IV] when compared to their peers with TD. Conversely, no differences in GM muscle passive stiffness between children with CP and good to fair locomotor function (GMFCS I and II) in children with TD were found in a later study (Kruse et al. 2017). Altogether, these results could support that GM increased stiffness may be linked to the severity of the motor impairment and/or activity limitations in children with CP.

It has been considered that greater resistance to passive muscle–tendon unit lengthening is provided by larger muscles (Gajdosik 2001; Willerslev-Olsen et al. 2018). Indeed, passive ankle joint stiffness has been shown to correlate with muscle size in healthy adults, and especially with muscle cross-sectional area (Ryan et al. 2009). Despite a lower GM growth rate (measured as GM volume), ankle joint passive stiffness (slope of the torque–angle curve) has been reported to increase significantly more with age in the first years of life in children with CP compared to their peers with TD (Willerslev-Olsen et al. 2018). In this study, conducted in children less than 4-year-old, the ankle range of motion remained similar between both groups and, thus, children with CP had not yet developed muscle contracture (Willerslev-Olsen et al. 2018). A significant reduction in muscle growth between children with TD and those with CP started around 12 months, while the significant increase in ankle joint stiffness in the CP group occurred much later (at about 27 months) (Willerslev-Olsen et al. 2018). The conclusions were that altered muscle growth precedes, and therefore might be a causative factor for increased stiffness in children with CP. Delayed onset of walking and altered gait were thought to impact muscle growth as a first step, through reduced loading and stretching forces applied to the muscles. It has to be kept in mind that during childhood and adolescence, 80% of the longitudinal lengthening of pennate muscles, such as the gastrocnemii muscles, is explained by hypertrophy of muscle fascicles (Bénaud et al. 2011; Weide et al. 2015). An altered growth rate at the fascicle level may then lead to a lack of muscle belly length development. Thereafter, the discrepancy between bony and muscle growth has been considered as responsible for the secondary increase in muscle stiffness (Willerslev-Olsen et al. 2018).

The complexity of the instrumentation and data treatment in many of the aforementioned studies (muscle modeling, reconstruction of ultrasound images, mathematical regression) make this method inappropriate to assess muscle stiffness in daily clinical practice. Moreover, it should be acknowledged that muscle force is only estimated through



**Fig. 3** Typical example of shear elastic modulus measurement on gastrocnemius medialis at two different muscle lengths (**a**  $-20^\circ$  of ankle plantarflexion **b**  $20^\circ$  of dorsiflexion) on the paretic leg in a child with unilateral CP. Personal data from our research team

models in these studies, and that the accuracy of such muscle passive stiffness measurement remains unclear.

Some limitations of the assessment of stiffness at the muscle level, such as the need for motion capture techniques synchronized with ultrasound data acquisition, may be overcome by the use of shear wave elastography (SWE). The basic principle of SWE is to use an acoustic radiation force impulse to create a shear stress within the investigated tissue, and then to map the induced distortion using ultrafast ultrasonography (Creze et al. 2018). This may provide real-time, quantitative and accurate imaging of passive muscle tension (Hug et al. 2015).

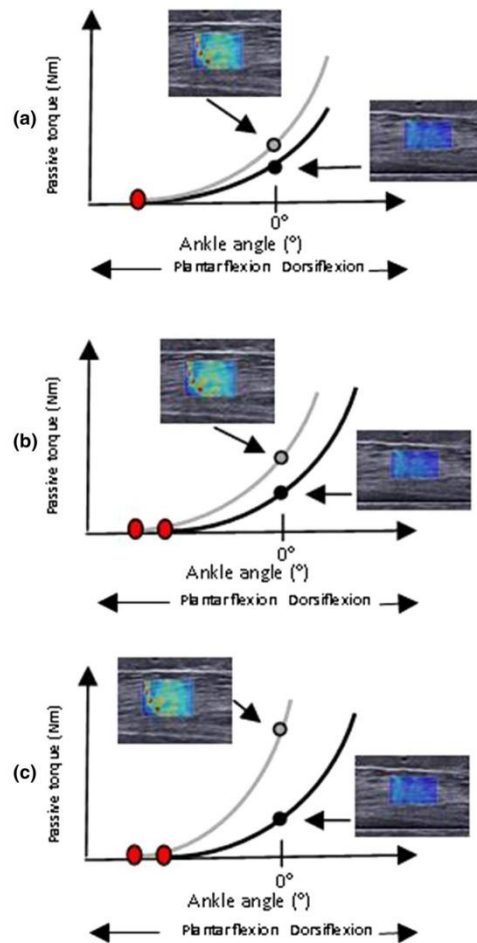
Briefly, measurements are made using an ultrasound probe to both induce and track shear wave propagation in a specific tissue such as a muscle. The velocity of the propagation of the shear wave is then recorded in a specific region of interest using ultrafast imaging and used to calculate the shear modulus, expressed in kPa (Fig. 3). The higher the passive muscle tension, the faster is the shear wave propagation and the greater is the shear modulus (or Young's modulus) (Hug et al. 2015; Lieber et al. 2017). Despite that skeletal muscle properties differ from those of an isotropic non-contractile tissue (e.g., liver, breast...) from which the rheologic fit model of SWE was issued (Creze et al. 2018), it was reported that the relationship between shear modulus and muscle length is linearly related to the passive force recorded during passive slow ankle joint mobilization (i.e.,  $2^\circ/s$ ) (Maïsetti et al. 2012). In addition, Nakamura et al. (2016) reported a strong correlation between GM musculotendinous junction displacement during slow lengthening and GM shear modulus. While the two latter studies were performed in healthy adults, an increase in shear wave speed

with increasing ankle joint, passive torque and fascicle strain has been reported using SWE in children with CP (Brandenburg et al. 2016; Lee et al. 2016). Therefore, as the shear modulus assessed through SWE is a valid measure of passive muscle tension, its relationship to muscle lengthening is consistent with the definition of muscle stiffness.

Altogether, it is well acknowledged that muscle shear modulus may be used to estimate passive tension during stretching in humans (Hug et al. 2015). Although the reliability of shear modulus measurement has been established at rest (Lacourpaille et al. 2012; Nakamura et al. 2016) or during slow passive stretching (Maïsetti et al. 2012) in healthy adults, it remains however to be determined in children with TD and those with CP.

Using elastography, increased shear wave velocity has been reported for the GM (Bilgici et al. 2018; Kwon et al. 2012), gastrocnemius lateralis (GL) (Brandenburg et al. 2016) and soleus muscles (Kwon et al. 2012; Vola et al. 2018) in children with spastic unilateral and bilateral CP, when compared to their peers with TD. Moreover, when comparing paretic and non-paretic limbs in children with unilateral CP, Lee et al. (2016) reported greater GM shear wave velocity in the paretic limb, when assessed in the neutral ankle dorsiflexion position (i.e., 0°).

In particular, higher shear wave velocity for the GM muscle was reported in 9-year-old (Bilgici et al. 2018) and in 5-year-old children with CP (Kwon et al. 2012), when compared to age-matched children with TD. In many of these studies, children were positioned prone with the feet over the edge of the examination table without any control of the ankle angle (Bilgici et al. 2018; Kwon et al. 2012; Vola et al. 2018). The ankle joint position in these studies is the consequence of the action of the gravity on the ankle, which is influenced by the positions of the hip and knee, and on the body orientation (prone or supine). Such positioning does not enable the investigators to have information on joint angle nor on moments, which adds variability in the measurements (as discussed above for torque–angle curves) and then limits the interpretation of these data. Measurements were performed in a single resting position, and cannot provide detailed information about the stiffness of the GM, which would require assessing shear wave velocity–ankle angle relationships, as was recently performed in adult stroke patients (Le Sant et al. 2019b). Once more, potential associated shortening appears to be a confounding factor when assessing muscle stiffness. SWE measurements were often performed without an accurate control of the ankle position and as a consequence of the muscle length (Bilgici et al. 2018; Kwon et al. 2012; Vola et al. 2018). Furthermore, studies reporting shear wave velocity at a fixed ankle angle did not investigate the slack angle of the ankle, nor the slack length of the GM muscle (Brandenburg et al. 2016; Lee



**Fig. 4** Examples of SWE measurement interpretation at common angle (neutral angle: 0°) according to torque–angle curve relationship in children with TD (black lines) and children with CP (gray lines). Ankle angle was represented by the angle between the tibia and the foot sole. Slack angle is represented by a red circle. Higher shear elastic modulus measurement in children with CP (gray line) compared to peers with TD (black line) may be indicative of higher GM muscle passive stiffness (a), PF muscles shortening (b) or common presence of both phenomena (c) according to differences in slack and maximal DF angle, compared to children with TD. Torque–angle curve were obtained based on outcomes from the literature in healthy adults and in children with CP (Barber et al. 2011; Tardieu et al. 1982)



et al. 2016), while significant differences in maximal DF angle and slack angle/length may be present (Brandenburg et al. 2016). As a consequence, the findings in these works could be the result of shortening of the PF muscles on the paretic side relative to the non-paretic side in children with unilateral CP or to legs of their peers with TD (Barrett and Lichtwark 2010; Kruse et al. 2018) rather than increased stiffness, as defined in the first paragraph of this review (Fig. 4).

For instance, although higher absolute shear wave velocity values were found in the GL muscle in children with CP compared to their peers with TD at different ankle angles (i.e., 20°, 10° and 0° of plantarflexion), the increasing rate of the shear modulus value (i.e., stiffness, as previously defined) was similar between both groups (Brandenburg et al. 2016). However, values for children with CP presenting high variability and measurements were not taken at maximal DF angles (i.e., 4° and 12° for children with CP and their peers with TD, respectively). More studies investigating SWE in the PF muscles on the whole range of passive dorsiflexion are needed to confirm increased muscle stiffness and to precisely determine its distribution. To date, only one study has investigated shear wave velocity according to the different PF muscles, and the alteration was reported to be greater for the GM than for the soleus muscle (Kwon et al. 2012). The recent findings of Le Sant et al. (2019b) displayed that, in stroke patients, increased muscle tension (assessed through SWE) is highly dependent on the muscle and even on the muscle region (increased tension in the distal parts of soleus, GM, and GL, relative to their proximal parts), suggesting a necessity to perform such stiffness mapping in children with CP as well.

#### At the Achilles tendon level

As for the muscle, the stiffness of the AT can be investigated by tracking the musculo-tendinous junction during passive mobilization. AT stiffness may be determined as the slope of the AT force–length curve, AT force being calculated by dividing ankle torque by AT moment arm (Kruse et al. 2017), i.e., the distance between the malleolus lateralis and the action line of the tendon (Konrad and Tilp 2014).

Despite known altered morphological properties, AT passive stiffness in children with CP has been poorly investigated. Theis et al. (2016) did not find any significant alteration in AT passive stiffness in children with CP, while Kruse et al. (2017) reported significantly decreased AT passive stiffness. Discrepancies between studies may be explained by differences in the range of torque used to calculate the slope of the AT force–length curve. Conversely, both studies demonstrated no difference between children with CP and TD in AT Young's modulus (i.e., stress/strain, a measure of

intrinsic stiffness not influenced by AT morphology). This suggests that AT mechanical properties were not altered, despite AT having been described as longer and thinner in children with CP compared to children with TD (Gao et al. 2009; Theis et al. 2016).

Interestingly, Theis et al. (2016) found a significant increase in muscle to tendon stiffness ratio in their sample of children with CP when compared to peers with TD. This result was corroborated by higher AT/GM muscle lengthening ratio (range 0.86–1) in children with CP compared to children with TD (range 0.53–0.64) during ankle mobilization towards dorsiflexion (Kalkman et al. 2018a).

In summary, there is conflicting evidence on whether stiffness of the AT is reduced, or unchanged, in children with CP. While SWE has been used to assess AT stiffness in healthy humans (DeWall et al. 2014; Suydam et al. 2015), no data are available in children with CP.

#### At the fascicle level

Inconsistent data on muscle fascicle length in the plantarflexors were reported in children with CP. Some authors found significantly decreased fascicle length (Matthiasdottir et al. 2014; Mohagheghi et al. 2007) contrary to others (Malaiya et al. 2007; Shortland et al. 2007). Such discrepancies may be due to the ankle angle at which the measurements were made. If performed at a common angle between subjects with CP and TD, while overall muscle length was likely different due to shortening, a possible strain could have been induced in children with CP. In keeping with our introducing position on the proper definition of stiffness, we believe that dynamic studies, assessing the lengthening of the fascicles during stretching, are more appropriate to determine their stiffness. This lengthening capacity of GM muscle fascicles during stretching has indeed been investigated. Contradictory results were found regarding fascicle lengthening and fascicle passive stiffness (slope of the torque–fascicle length curve) in young adults and children with CP compared to peers with TD during passive stretching. Barber et al. (2011) displayed reduced fascicle lengthening during stretching, while Matthiasdottir et al. (2014) found that muscle fascicles were shortened at rest, but much more lengthened by stretching, in children with CP. Such differences may be related to differences in methodology and characteristics of participants. Using a rigorous approach, a recent study reported a significant reduction in lengthening of fascicles in the GM during passive stretching in children with CP compared to peers with TD (Kalkman et al. 2018a). Therefore, in summary, despite a lack of studies dealing with fascicles alterations in CP muscles and no clear consensus, it seems that children with CP present reduced GM fascicles lengthening capacity and increased fascicle stiffness.



### At the sarcomere level

GM fascicles lengthening and stiffness may be better understood by investigating the properties of the sarcomeres, which are the basic units of muscle fibers. Mathewson et al. (2014) performed biopsies on the soleus and gastrocnemii muscles in 11.1 ( $\pm$  5.1)-year-old children with CP undergoing muscle–tendon unit lengthening as a treatment of equinus contracture. Sarcomere lengths were measured using laser diffraction, and stress/length curves were established to calculate tangent stiffness. Increased sarcomere length at rest was reported, together with increased stiffness of both fibers [i.e., without extracellular matrix (ECM)] and fascicles (i.e., including ECM) in children with CP compared to healthy adults (Mathewson et al. 2014). Interestingly, in children with CP, fibers and fascicles had similar stiffness, contrary to healthy adults in which fascicles were stiffer than isolated fibers (Mathewson et al. 2014). Taken together, increased passive stiffness, measured *in vivo* and *in vitro* at fascicles and fibers level (torque–length curve), seems related to the longer *in vivo* resting sarcomere length reported in spastic muscles compared to controls (Mathewson et al. 2014; Smith et al. 2011). Overlengthened sarcomeres (i.e., with increased length, compared to controls) in PF muscles may be a response to a mismatch between skeletal bone and muscle growth during childhood in children with spastic CP (Pingel et al. 2017).

Interestingly, findings reported for PF muscles in children with CP did not appear to be generalizable to other muscular groups. Firstly, Smith et al. (2011) reported no significant change in the passive stiffness of muscle fibers in spastic hamstrings, compared to muscles from control subjects, which contrasts with the PF muscles. Secondly, overlengthened sarcomeres did not appear systematically related to muscle contracture in CP. For example, reduced wrist extension was not related to increased sarcomere length in spastic flexor carpi ulnaris muscles (Smeulders et al. 2004). Some factors could contribute to these discrepancies. For example, differences between muscles regarding the amount and organization of collagen has been reported (Booth et al. 2007; Smith et al. 2011). In addition, the distribution of sarcomere length within muscles fibers resulting from myofascial load transmission and from the muscle macroscopic architecture may potentially lead to variability in findings (Dayanidhi et al. 2015; Yucesoy and Huijing 2007). Taken together, the morphological and mechanical properties at the sarcomere level appear to vary according to the muscle in children with CP. However, data in this field of research remain scarce and controlled studies are almost impossible, given that invasive procedures are required. To increase knowledge on the mechanisms leading to sarcomeres overlengthening, histological outcomes are needed. Surgical interventions, especially multilevel procedures, performed

to correct contractures in children and teenagers with spastic CP, may offer this opportunity.

### At the muscle fiber and extracellular matrix level

Overlengthened sarcomeres may be related to altered sarcomerogenesis. Longitudinal and cross-sectional postnatal muscle growth, and indeed in-series sarcomeres addition, are related to activation and self-renewal of satellite cells, i.e., quiescent stem cell located in the periphery of the muscle fiber, outside the sarcolemma (Dayanidhi et al. 2015).

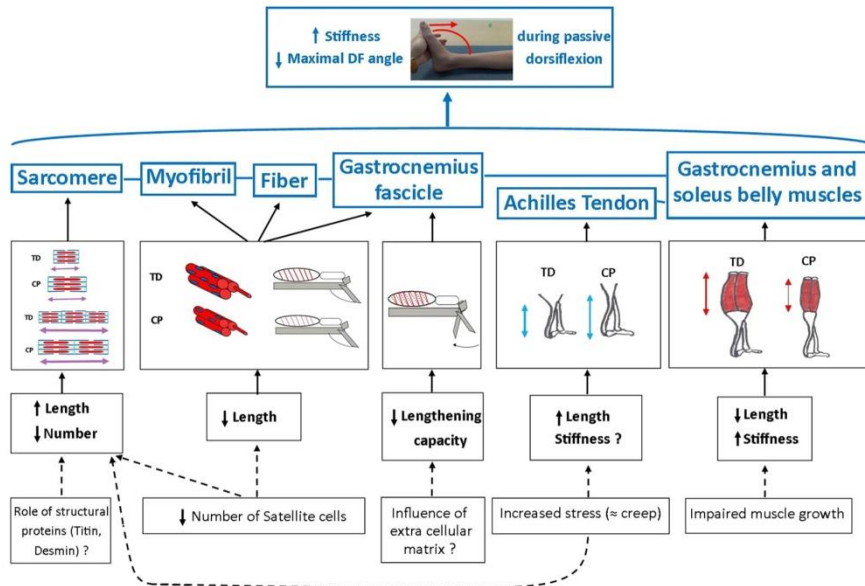
A depletion in satellite cells (Dayanidhi et al. 2015; Smith et al. 2013) and altered myogenic potential (i.e., capacity to fuse and to produce myotubes) (Domenighetti et al. 2018) were reported in spastic muscles of children with CP. As a result, this may lead to a lack of in-series sarcomere addition during growth (Gajdosik 2001; Martín Lorenzo et al. 2017).

At the sarcomere level, regarding the structural proteins of the muscle fibers, increased tension in response to stretching may be related to alterations in components, such as:

- Cross-links between actin and myosin myofilaments;
- titin (a major component of the endo-sarcomeric cytoskeleton) and its elastic properties; and
- desmin proteins, which contribute to the exo-sarcomeric cytoskeleton

Both titin and desmin are known to be stretched while the sarcomere lengthens (Gajdosik 2001). The titin protein has been suspected to influence passive stiffness given its major size and weight. However, experimental measurement performed in children with CP for PF muscles did not seem to support that alterations in titin contribute to the increase in stiffness (Mathewson et al. 2014). Titin mass was reported to be slightly greater in children with CP compared to peers with TD, whereas increased stiffness is typically associated with smaller titin mass (Mathewson et al. 2014). Similar conclusions have been drawn for the hamstring muscles in children with CP (Smith et al. 2011). Other non-identified basic structural proteins of the muscle fiber are therefore likely to be involved in the increase of muscle stiffness.

In addition, it has been hypothesized that the ECM may be less organized and less able to resist force in children with CP (Mathewson et al. 2014). Interestingly, in the latter study, there was no difference in collagen content in both soleus and gastrocnemii muscles between subjects with CP and TD, contrary to previous findings in other muscles such as vastus lateralis (Booth et al. 2007) or hamstrings (Smith et al. 2011). Therefore, rather than alterations in proteins, the architectural organization of the ECM would be altered, which may lead to the increase in muscle stiffness. Pingel and Suhr (2017) highlighted that the function of the ECM is not fully identified, and its relevance to stiffness remains



**Fig. 5** Conceptual relationship diagram illustrating in children with cerebral palsy alterations from the sarcomere to the joint level that may lead to decreased range of motion and increased passive stiff-

ness. Known and hypothetical relationships between the pathological features reported in the literature at each of these levels are represented by full and dotted arrows, respectively

unclear. ECM, however, plays a fundamental role in muscle integrity and homeostasis regulation. For instance, contractile forces are laterally transmitted from the sarcomeres across the sarcolemma to the ECM by mechano-sensitive structures such as costameres (Pingel and Suhr 2017). More studies are needed to increase our understanding of the role of the ECM in muscle mechanical properties. More generally, studies in the upper limb in children with CP suggest that muscle contractures may also be related to alterations in the connective tissue. For instance, myofascial load transmission induced by neurovascular tracts (extramuscular myofascial force transmission) or force transmission between the linked intramuscular stromata of two adjacent muscles (intermuscular myofascial force transmission) have been displayed (de Bruin et al. 2014; Huijing 2007; Smeulders and Kreulen 2006).

**Summary**

The interpretation of passive stiffness measurements is highly influenced by the methodological approach, the data treatment, and the characteristics of the population. Ideally, SWE and dynamometry measurements may be preferentially

performed on the whole range of motion, combined with slack angle and length assessments. This would allow to take muscle shortening into account, and then to accurately consider the maximal DF angle, or merely 80% of this angle. Consequently, the slope of the torque–angle curve and shear elastic modulus have to be determined on a similar range of motion or torque from slack angle/length.

Increased stiffness of the PF muscles may be considered as a primary contributor to increased stiffness at the overall ankle joint level (Fig. 5). However, there are still few studies that investigated the other elements of the whole PF complex. The mechanical properties of muscles other than the gastrocnemii and soleus and of the AT may be considered more accurately. Similarly, further longitudinal studies are needed to understand the links between the impairments reported at the macro- and microscopic levels (Fig. 5). The depletion of satellite cells may be related to altered muscle growth and sarcomerogenesis. However, the direction of the cause–consequence relationship remains unclear. Similarly, overlengthened sarcomeres may be induced by a decreased PF muscle lengthening reported during growth. Yet, whether it really plays a precursor role or not in the increased passive stiffness remains to be elucidated. Nonetheless, better elucidating the pathophysiology of spastic muscles in children



with CP is crucial in an attempt to further optimize therapeutic strategies.

### Clinical application

Decreasing muscle passive tension and stiffness is a common goal of physical therapy in neurological diseases. This may prevent the development of contracture and favor the active motion of the antagonist. The literature provides some results on the influence of therapeutic interventions on both morphological and mechanical properties of spastic PF muscles in children with CP. Yet, available studies remain scarce. For example, it has been reported that passive stretching therapy may increase gastrocnemius belly and fascicles length, despite no clear effect on ankle joint passive stiffness (Kalkman et al. 2018b; Theis et al. 2013, 2015). Botulinum toxin injections may decrease gastrocnemius passive tension at a given angle (Brandenburg et al. 2018; Ceyhan Bilgici et al. 2018; Park and Kwon 2012), but have no effects on ankle joint passive stiffness (Alhusaini et al. 2011). In some cases, adverse effects have even been described (e.g., decreased muscle volume after botulinum toxin injection, Alexander et al. 2018; increase AT length after castings, Peeters et al. 2018). Furthermore, the effectiveness of more recent strategies of physical treatment, such as neuromuscular electrical stimulation (Damiano et al. 2013; Pool et al. 2016), intensive strengthening (Gillett et al. 2016) or gait training (Willerslev-Olsen et al. 2014), to improve morphological and mechanical muscle properties have been described.

While presenting an exhaustive synthesis of the field of research on therapeutic interventions in children with CP was beyond the scope of the present review, it is clear that providing a sufficient body of knowledge about the impact of long-term therapeutic interventions targeting muscle stiffness and contracture performed during growth in children with CP now appears urgent. We hope this would be possible now that the heterogeneity of the measurement methods and of the population characteristics have been clearly displayed in the present review. In that line, the clear guidelines that we provided can serve as a future framework for these therapeutic studies.

### Conclusion

The present review highlights the variability of the methods found in the literature to assess the stiffness of the PF muscles in children with CP. This makes the comparison between studies difficult and explains why knowledge about the importance, spatial, and temporal distribution of increased stiffness among the plantarflexor muscles in

this population remains incomplete. Shortening of the PF muscles appeared to be a major confounding factor in many studies. The need for consistency in the assessment stands for both research and potential clinical application. The term “stiffness” should now be rid of any ambiguity or variability in its use. Besides methodological issues, an important heterogeneity of PF muscle stiffness in children with CP appears to be a major statement of this review. While the precise determining factors of this variability remain to be discovered, this emphasizes that passive stiffness should be assessed at the individual level before treatment options are considered. We therefore wish to stress two points that are crucial for the application of stiffness measurements: standardization of the protocol used, including slack and maximal dorsiflexion angle/length measurements, and individualized assessment. Indeed, measuring passive stiffness of the ankle joint and PF muscles is of high interest in children with CP, given the high incidence of contracture and equinus gait development during growth in this population. This may be complementary to range of motion, spasticity, and gait assessments, and could be measured in daily clinical routine in the future to provide further knowledge on mechanical properties during follow-up. To do so, easy-to-use portable devices are mandatory, and a standardized protocol must be established.

Distinguishing stiffness from shortening can be challenging, but is key to understanding the development of hyper-resistance and contracture during growth. Associated with mechanical properties, morphological measurement, such as gastrocnemius and/or AT tendon length, may further permit to clarify the pathophysiology of contracture in research. SWE is a promising tool for assessing stiffness, compatible with the classical methods (dynamometry) and easily convertible to B-mode ultrasound. This may allow the evaluation of muscle morphology, such as gastrocnemius and/or AT tendon length, together with mechanical properties. It may further permit the clarification of the pathophysiology of contracture and help clinicians and researchers to design non-surgical treatments to relieve or even prevent this impairment.

Yet, many issues still need clarification. What is the pathophysiology of increased passive stiffness at the joint, muscle, fascicle, and fibers level and its link with altered muscle growth rate during childhood? What is the time course of the alteration of muscle structure during growth at the sarcomere level? Can changes in passive stiffness be induced by therapeutic interventions and impact clinical impairments, gait, and posture?

We hope that this review displayed the evidence for the gray areas in this topic, and that it will help future research focusing on musculoskeletal impairments, to the benefit of children with CP.

**Acknowledgements** This study was funded by grants from ALLP (Association Lyonnaise de Logistique Posthospitalière), SFERHE (Société Francophone d'Etude et de Recherche sur les Handicaps de l'Enfant) and R4P (Réseau Régional de Rééducation et de Réadaptation Pédiatrique en Rhône Alpes), which are French scientific societies supporting research on childhood disabilities. These foundations have no financial interest in the publication of the paper. The authors thank Callum Brownstein for English revision of the manuscript.

### Compliance with ethical standards

**Conflict of interest** The authors declare that they have no conflict of interest.

### References

- Alexander C, Elliott C, Valentine J, Stannage K, Bear N, Donnelly CJ, Shipman P, Reid S (2018) Muscle volume alterations after first botulinum neurotoxin A treatment in children with cerebral palsy: a 6-month prospective cohort study. *Dev Med Child Neurol* 60:1165–1171
- Alhusaini AA, Crosbie J, Shepherd RB, Dean CM, Scheinberg A (2010) Mechanical properties of the plantarflexor musculotendinous unit during passive dorsiflexion in children with cerebral palsy compared with typically developing children: calf muscle stiffness in children with CP. *Dev Med Child Neurol* 52:e101–e106
- Alhusaini AAA, Crosbie J, Shepherd RB, Dean CM, Scheinberg A (2011) No change in calf muscle passive stiffness after botulinum toxin injection in children with cerebral palsy: calf muscle stiffness after BoNT-A injection. *Dev Med Child Neurol* 53:553–558
- Andrade RJ, Lacourpaille L, Freitas SR, McNair PJ, Nordez A (2016) Effects of hip and head position on ankle range of motion, ankle passive torque, and passive gastrocnemius tension: hip angle effects on ankle passive mechanical properties. *Scand J Med Sci Sports* 26:41–47
- Barber L, Barrett R, Lichtwark G (2011) Passive muscle mechanical properties of the medial gastrocnemius in young adults with spastic cerebral palsy. *J Biomech* 44:2496–2500
- Bar-On L, Aertbeliën E, Molenaers G, Dan B, Desloovere K (2014a) Manually controlled instrumented spasticity assessments: a systematic review of psychometric properties. *Dev Med Child Neurol* 56:932–950
- Bar-On L, Van Campenhout A, Desloovere K, Aertbeliën E, Huenaearts C, Vandendoort B, Nieuwenhuys A, Molenaers G (2014b) Is an instrumented spasticity assessment an improvement over clinical spasticity scales in assessing and predicting the response to integrated botulinum toxin type A treatment in children with cerebral palsy? *Arch Phys Med Rehabil* 95:515–523
- Bar-On L, Molenaers G, Aertbeliën E, Van Campenhout A, Feys H, Nuttin B, Desloovere K (2015) Spasticity and its contribution to hypertonia in cerebral palsy. *Biomed Res Int* 2015:1–10
- Barrett RS, Lichtwark GA (2010) Gross muscle morphology and structure in spastic cerebral palsy: a systematic review: gross muscle morphology and structure in CP. *Dev Med Child Neurol* 52:794–804
- Bax M, Goldstein M, Rosenbaum P, Leviton A, Paneth N, Dan B, Jacobsson B, Damiano D (2005) Proposed definition and classification of cerebral palsy, April 2005. *Dev Med Child Neurol* 47:571–576
- Bénard MR, Jaspers RT, Huijting PA, Becher JG, Harlaar J (2010) Reproducibility of hand-held ankle dynamometry to measure altered ankle moment-angle characteristics in children with spastic cerebral palsy. *Clin Biomech* 25:802–808
- Bénard MR, Harlaar J, Becher JG, Huijting PA, Jaspers RT (2011) Effects of growth on geometry of gastrocnemius muscle in children: a three-dimensional ultrasound analysis: Geometry of gastrocnemius medialis muscle in children. *J Anat* 219:388–402
- Bilgici MC, Bekci T, Ulus Y, Ozyurek H, Aydin OF, Tomak L, Selcuk MB (2018) Quantitative assessment of muscular stiffness in children with cerebral palsy using acoustic radiation force impulse (ARFI) ultrasound elastography. *J Med Ultrason* 45:295–300
- Booth CM, Cortina-Borja MJF, Theologis TN (2007) Collagen accumulation in muscles of children with cerebral palsy and correlation with severity of spasticity. *Dev Med Child Neurol* 43:314–320
- Brandenburg JE, Eby SF, Song P, Kingsley-Berg S, Bamlet W, Sieck GC, An K-N (2016) Quantifying passive muscle stiffness in children with and without cerebral palsy using ultrasound shear wave elastography. *Dev Med Child Neurol* 58:1288–1294
- Brandenburg JE, Eby SF, Song P, Bamlet WR, Sieck GC, An K-N (2018) Quantifying effect of onabotulinum toxin A on passive muscle stiffness in children with cerebral palsy using ultrasound shear wave elastography. *Am J Phys Med Rehabil* 97:500–506
- Cahill-Rowley K, Rose J (2014) Etiology of impaired selective motor control: emerging evidence and its implications for research and treatment in cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 56:522–528
- Ceyhan Bilgici M, Bekci T, Ulus Y, Bilgici A, Tomak L, Selcuk MB (2018) Quantitative assessment of muscle stiffness with acoustic radiation force impulse elastography after botulinum toxin A injection in children with cerebral palsy. *J Med Ultrason* 45:137–141
- Cobeljic G, Bumbasirevic M, Lesic A, Bajin Z (2009) The management of spastic equinus in cerebral palsy. *Orthop Trauma* 23:201–209
- Creze M, Nordez A, Soubeyrand M, Rocher L, Maître X, Bellin M-F (2018) Shear wave sonoelastography of skeletal muscle: basic principles, biomechanical concepts, clinical applications, and future perspectives. *Skelet Radiol* 47:457–471
- Cronin NJ, Lichtwark G (2013) The use of ultrasound to study muscle-tendon function in human posture and locomotion. *Gait Posture* 37:305–312
- Damiano DL, Prosser LA, Curatalo LA, Alter KE (2013) Muscle plasticity and ankle control after repetitive use of a functional electrical stimulation device for foot drop in cerebral palsy. *Neurorehabilit Neural Repair* 27:200–207
- Dayanidhi S, Dykstra PB, Lyubasyuk V, McKay BR, Chambers HG, Lieber RL (2015) Reduced satellite cell number in situ in muscular contractures from children with cerebral palsy. *J Orthop Res* 33:1039–1045
- Desloovere K, Schörkhuber V, Fagard K, Van Campenhout A, De Cat J, Pauwels P, Ortibus E, De Cock P, Molenaers G (2012) Botulinum toxin type A treatment in children with cerebral palsy: evaluation of treatment success or failure by means of goal attainment scaling. *Eur J Paediatr Neurol* 16:229–236
- de Bruin M, Smeulders MJ, Kreulen M, Huijting PA, Jaspers RT (2014) Intramuscular connective tissue differences in spastic and control muscle: a mechanical and histological study. *PLoS ONE* 9:e101038
- de Gooijer-van de Groep KL, de Vlught E, de Groot JH, van der Heijden-Maessen HC, Wielheesen DH, van Wijlen-Hempel RMS, Arendzen J, Meskers CG (2013) Differentiation between non-neural and neural contributors to ankle joint stiffness in cerebral palsy. *J NeuroEng Rehabil* 10:81
- DeWall RJ, Slane LC, Lee KS, Thelen DG (2014) Spatial variations in Achilles tendon shear wave speed. *J Biomech* 47:2685–2692
- Domenighetti AA, Mathewson MA, Pichika R, Sibley LA, Zhao L, Chambers HG, Lieber RL (2018) Loss of myogenic potential and fusion capacity of muscle stem cells isolated from



- contractured muscle in children with cerebral palsy. *Am J Physiol Cell Physiol* 315:C247–C257
- Farmer SE, James M (2001) Contractures in orthopaedic and neurological conditions: a review of causes and treatment. *Disabil Rehabil* 23:549–558
- Gage J, Schwartz M, Koop S, Novacheck T (2009) The identification and treatment of gait problems in cerebral palsy. Mac Keith Press, London
- Gajdosik RL (2001) Passive extensibility of skeletal muscle: review of the literature with clinical implications. *Clin Biomech* 16:87–101
- Gao F, Grant TH, Roth EJ, Zhang L-Q (2009) Changes in passive mechanical properties of the gastrocnemius muscle at the muscle fascicle and joint levels in stroke survivors. *Arch Phys Med Rehabil* 90:819–826
- Geertsen SS, Kirk H, Lorentzen J, Jorsal M, Johansson CB, Nielsen JB (2015) Impaired gait function in adults with cerebral palsy is associated with reduced rapid force generation and increased passive stiffness. *Clin Neurophysiol* 126:2320–2329
- Gillett JG, Boyd RN, Carty CP, Barber LA (2016) The impact of strength training on skeletal muscle morphology and architecture in children and adolescents with spastic cerebral palsy: a systematic review. *Res Dev Disabil* 56:183–196
- Goldstein M, Harper DC (2007) Management of cerebral palsy: equinus gait. *Dev Med Child Neurol* 43:563–569
- Gough M, Shortland AP (2012) Could muscle deformity in children with spastic cerebral palsy be related to an impairment of muscle growth and altered adaptation?: Review. *Dev Med Child Neurol* 54:495–499
- Gracies J-M (2005) Pathophysiology of spastic paresis. II: emergence of muscle overactivity. *Muscle Nerve* 31:552–571
- Hägglund G, Wagner P (2011) Spasticity of the gastrosoleus muscle is related to the development of reduced passive dorsiflexion of the ankle in children with cerebral palsy: a registry analysis of 2,796 examinations in 355 children. *Acta Orthop* 82:744–748
- Herbert R, Moseley A, Butler J, Gandevia S (2002) Change in length of relaxed muscle fascicles and tendons with knee and ankle movement in humans. *J Physiol* 539:637–645
- Hug F, Tucker K, Gennisson J-L, Tanter M, Nordez A (2015) Elastography for muscle biomechanics: toward the estimation of individual muscle force. *Exerc Sport Sci Rev* 43:125–133
- Huijting PA (2007) Epimuscular myofascial force transmission between antagonistic and synergistic muscles can explain movement limitation in spastic paresis. *J Electromyogr Kinesiol* 17:708–724
- Kalkman BM, Bar-On L, Cenni F, Maganaris CN, Bass A, Holmes G, Desloovere K, Barton GJ, O'Brien TD (2018a) Muscle and tendon lengthening behaviour of the medial gastrocnemius during ankle joint rotation in children with cerebral palsy. *Exp Physiol* 103:1367–1376
- Kalkman BM, Bar-On L, Cenni F, Maganaris CN, Bass A, Holmes G, Desloovere K, Barton GJ, O'Brien TD (2018b) Medial gastrocnemius muscle stiffness cannot explain the increased ankle joint range of motion following passive stretching in children with cerebral palsy. *Exp Physiol* 103:350–357
- Konrad A, Tilp M (2014) Increased range of motion after static stretching is not due to changes in muscle and tendon structures. *Clin Biomech* 29:636–642
- Kruse A, Schranz C, Svehlik M, Tilp M (2017) Mechanical muscle and tendon properties of the plantar flexors are altered even in highly functional children with spastic cerebral palsy. *Clin Biomech* 50:139–144
- Kruse A, Schranz C, Tilp M, Svehlik M (2018) Muscle and tendon morphology alterations in children and adolescents with mild forms of spastic cerebral palsy. *BMC Pediatr* 18:156
- Kwon DR, Park GY, Lee SU, Chung I (2012) Spastic cerebral palsy in children: dynamic sonoelastographic findings of medial gastrocnemius. *Radiology* 263:794–801
- Lacourpaille L, Hug F, Bouillard K, Hogrel J-Y, Nordez A (2012) Supersonic shear imaging provides a reliable measurement of resting muscle shear elastic modulus. *Physiol Meas* 33:N19–N28
- Le Sant G, Gross R, Hug F, Nordez A (2019a) Influence of low muscle activation levels on the ankle torque and muscle shear modulus during plantar flexor stretching. *J Biomech*
- Le Sant G, Nordez A, Hug F, Andrade R, Lecharte T, McNair PJ, Gross R (2019b) Effects of stroke injury on the shear modulus of the lower leg muscle during passive dorsiflexion. *J Appl Physiol* 126:11–22
- Lee SSM, Gaebler-Spira D, Zhang L-Q, Rymer WZ, Steele KM (2016) Use of shear wave ultrasound elastography to quantify muscle properties in cerebral palsy. *Clin Biomech* 31:20–28
- Lieber RL, Roberts TJ, Blemker SS, Lee SSM, Herzog W (2017) Skeletal muscle mechanics, energetics and plasticity. *J NeuroEng Rehabil* 14:108
- Maganaris CN (2003) Force-length characteristics of the in vivo human gastrocnemius muscle. *Clin Anat* 16:215–223
- Magnusson SP (1998) Passive properties of human skeletal muscle during stretch maneuvers. *Scand J Med Sci Sports* 8:65–77
- Maïsetti O, Hug F, Bouillard K, Nordez A (2012) Characterization of passive elastic properties of the human medial gastrocnemius muscle belly using supersonic shear imaging. *J Biomech* 45:978–984
- Malaiya R, McNee A, Fry NR, Eve L, Gough M, Shortland AP (2007) The morphology of the medial gastrocnemius in typically developing children and children with spastic hemiplegic cerebral palsy. *J Electromyogr Kinesiol* 17:656–663
- Malhotra S, Pandyan A, Day C, Jones P, Hermens H (2009) Spasticity, an impairment that is poorly defined and poorly measured. *Clin Rehabil* 23:651–658
- Marsden J, Ramdharry G, Stevenson V, Thompson A (2012) Muscle paresis and passive stiffness: key determinants in limiting function in hereditary and sporadic spastic paraparesis. *Gait Posture* 35:266–271
- Martín Lorenzo T, Rocon E, Martínez Caballero I, Ramírez Baragán A, Lerma Lara S (2017) Prolonged stretching of the ankle plantarflexors elicits muscle-tendon adaptations relevant to ankle gait kinetics in children with spastic cerebral palsy. *Med Hypotheses* 109:65–69
- Mathewson MA, Chambers HG, Girard PJ, Tenenhaus M, Schwartz AK, Lieber RL (2014) Stiff muscle fibers in calf muscles of patients with cerebral palsy lead to high passive muscle stiffness. *J Orthop Res* 32:1667–1674
- Matthiasdottir S, Hahn M, Yaraskavitch M, Herzog W (2014) Muscle and fascicle excursion in children with cerebral palsy. *Clin Biomech* 29:458–462
- McNair P, Hewson D, Dombroski E, Stanley S (2002) Stiffness and passive peak force changes at the ankle joint: the effect of different joint angular velocities. *Clin Biomech* 17:536–540
- McNair PJ, Dombroski EW, Hewson DJ, Stanley S (2001) Stretching at the ankle joint: viscoelastic responses to holds and continuous passive motion. *Med Sci Sports Exerc* 33:354–358
- Mohagheghi AA, Khan T, Meadows TH, Giannikas K, Baltzopoulos V, Maganaris CN (2007) Differences in gastrocnemius muscle architecture between the paretic and non-paretic legs in children with hemiplegic cerebral palsy. *Clin Biomech* 22:718–724
- Moseley AM, Crosbie J, Adams R (2001) Normative data for passive ankle plantarflexion-dorsiflexion flexibility. *Clin Biomech (Bristol, Avon)* 16:514–521
- Nakamura M, Ikezoe T, Umegaki H, Kobayashi T, Nishisita S, Ichihashi N (2016) Shear elastic modulus is a reproducible index reflecting the passive mechanical properties

- of medial gastrocnemius muscle belly. *Acta Radiol Open* 5:2058460115604009
- Nordez A, Gross R, Andrade R, Le Sant G, Freitas S, Ellis R, McNair PJ, Hug F (2017) Non-muscular structures can limit the maximal joint range of motion during stretching. *Sports Med* 47:1925–1929
- Park G-Y, Kwon DR (2012) Sonoelastographic evaluation of medial gastrocnemius muscles intrinsic stiffness after rehabilitation therapy with botulinum toxin A injection in spastic cerebral palsy. *Arch Phys Med Rehabil* 93:2085–2089
- Peeters N, Hanssen B, Cenni F, Schless SH, De Beukelaer N, Dege-laen M, den Broeck CV, Van Campenhout A, Desloovere K, Bar-On L (2018) O 019—do botulinum toxin-A and lower leg casting alter calf muscle and tendon lengths in children with spastic cerebral palsy? *Gait Posture* 65:36–38
- Perry J (1992) *Gait analysis: normal and pathological function*. Slack Incorporated, Thorofare
- Pingel J, Suhr F (2017) Are mechanically sensitive regulators involved in the function and (patho)physiology of cerebral palsy-related contractures? *J Muscle Res Cell Motil* 38:317–330
- Pingel J, Bartels EM, Nielsen JB (2017) New perspectives on the development of muscle contractures following central motor lesions: muscle contractures following central motor lesions. *J Physiol* 595:1027–1038
- Pool D, Elliott C, Bear N, Donnelly CJ, Davis C, Stannage K, Valentine J (2016) Neuromuscular electrical stimulation-assisted gait increases muscle strength and volume in children with unilateral spastic cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 58:492–501
- Rosenbaum P, Paneth N, Leviton A, Goldstein M, Bax M, Damiano D, Dan B, Jacobsson B (2007) A report: the definition and classification of cerebral palsy April 2006. *Dev Med Child Neurol Suppl* 109:8–14
- Ross SA, Foreman M, Engelsberg JR (2011) Comparison of 3 different methods to analyze ankle plantarflexor stiffness in children with spastic diplegia cerebral palsy. *Arch Phys Med Rehabil* 92:2034–2040
- Ryan ED, Herda TJ, Costa PB, Defreitas JM, Beck TW, Stout JR, Cramer JT (2009) Passive properties of the muscle-tendon unit: the influence of muscle cross-sectional area. *Muscle Nerve* 39:227–229
- Scholtes VA, Becher JG, Beelen A, Lankhorst GJ (2005) Clinical assessment of spasticity in children with cerebral palsy: a critical review of available instruments. *Dev Med Child Neurol* 48:64
- Sellier E, Platt MJ, Andersen GL, Krägeloh-Mann I, De La Cruz J, Cans C, Surveillance of Cerebral Palsy Network (2016) Decreasing prevalence in cerebral palsy: a multi-site European population-based study, 1980 to 2003. *Dev Med Child Neurol* 58:85–92
- Shortland AP, Harris CA, Gough M, Robinson RO (2007) Architecture of the medial gastrocnemius in children with spastic diplegia. *Dev Med Child Neurol* 44:158–163
- Sinkjær T, Magnussen I (1994) Passive, intrinsic and reflex-mediated stiffness in the ankle extensors of hemiparetic patients. *Brain* 117:355–363
- Sinkjær T, Toft E, Larsen K, Andreassen S, Hansen HJ (1993) Non-reflex and reflex mediated ankle joint stiffness in multiple sclerosis patients with spasticity: reflex stiffness in spastic muscles. *Muscle Nerve* 16:69–76
- Smeulders MJC, Kreulen M (2006) Adaptation of the properties of spastic muscle with wrist extension deformity. *Muscle Nerve* 34:365–368
- Smeulders MJC, Kreulen M, Hage JJ, Huijting PA, van der Horst CMAM (2004) Overstretching of sarcomeres may not cause cerebral palsy muscle contracture. *J Orthop Res* 22:1331–1335
- Smith LR, Lee KS, Ward SR, Chambers HG, Lieber RL (2011) Hamstring contractures in children with spastic cerebral palsy result from a stiffer extracellular matrix and increased in vivo sarcomere length: passive mechanical properties of muscle contracture. *J Physiol* 589:2625–2639
- Smith LR, Chambers HG, Lieber RL (2013) Reduced satellite cell population may lead to contractures in children with cerebral palsy: reduced satellite cells in muscle contractures. *Dev Med Child Neurol* 55:264–270
- Suydam SM, Soulas EM, Elliott DM, Gravare Silbernagel K, Buchanan TS, Cortes DH (2015) Viscoelastic properties of healthy achilles tendon are independent of isometric plantar flexion strength and cross-sectional area: viscoelastic properties of achilles tendon. *J Orthop Res* 33:926–931
- Švehlík M, Leistriz L, Kraus T, Zwick EB, Steinwender G, Linhart WE (2013) The growth and the development of gastro-soleus contracture in cerebral palsy. *Gait Posture* 38:S12
- Tardieu C, Huet de la Tour E, Bret MD, Tardieu G (1982) Muscle hypoe extensibility in children with cerebral palsy: I. Clinical and experimental observations. *Arch Phys Med Rehabil* 63:97–102
- Theis N, Korff T, Kairon H, Mohagheghi AA (2013) Does acute passive stretching increase muscle length in children with cerebral palsy? *Clin Biomech* 28:1061–1067
- Theis N, Korff T, Mohagheghi AA (2015) Does long-term passive stretching alter muscle-tendon unit mechanics in children with spastic cerebral palsy? *Clin Biomech* 30:1071–1076
- Theis N, Mohagheghi AA, Korff T (2016) Mechanical and material properties of the plantarflexor muscles and Achilles tendon in children with spastic cerebral palsy and typically developing children. *J Biomech* 49:3004–3008
- van den Noort JC, Bar-On L, Aertbeliën E, Bonikowski M, Braend-vik SM, Broström EW, Buizer AI, Burridge JH, van Campenhout A, Dan B et al (2017) European consensus on the concepts and measurement of the pathophysiological neuromuscular responses to passive muscle stretch. *Eur J Neurol* 24:981–e38
- Vola EA, Albano M, Di Luise C, Servodidio V, Sansone M, Russo S, Corrado B, Servodio Iammarrone C, Caprio MG, Vallone G (2018) Use of ultrasound shear wave to measure muscle stiffness in children with cerebral palsy. *J Ultrasound* 21:241–247
- Weide G, Huijting PA, Maas JC, Becher JG, Harlaar J, Jaspers RT (2015) Medial gastrocnemius muscle growth during adolescence is mediated by increased fascicle diameter rather than by longitudinal fascicle growth. *J Anat* 226:530–541
- Willerslev-Olsen M, Lorentzen J, Sinkjaer T, Nielsen JB (2013) Passive muscle properties are altered in children with cerebral palsy before the age of 3 years and are difficult to distinguish clinically from spasticity. *Dev Med Child Neurol* 55:617–623
- Willerslev-Olsen M, Lorentzen J, Nielsen JB (2014) Gait training reduces ankle joint stiffness and facilitates heel strike in children with cerebral palsy. *NeuroRehabilitation* 35:643–655
- Willerslev-Olsen M, Choe Lund M, Lorentzen J, Barber L, Kofoed Hansen M, Nielsen JB (2018) Impaired muscle growth precedes development of increased stiffness of the triceps surae musculotendinous unit in children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 60(7):672–679
- Yucesoy CA, Huijting PA (2007) Substantial effects of epimuscular myofascial force transmission on muscular mechanics have major implications on spastic muscle and remedial surgery. *J Electromyogr Kinesiol* 17:664–679

**Publisher's Note** Springer Nature remains neutral with regard to jurisdictional claims in published maps and institutional affiliations.



# Annexe F: article *Journal of Electromyography and kinesiology*.

Journal of Electromyography and Kinesiology 49 (2019) 102353



Contents lists available at ScienceDirect

Journal of Electromyography and Kinesiology

journal homepage: [www.elsevier.com/locate/jelekin](http://www.elsevier.com/locate/jelekin)



## Reliability outcomes and inter-limb differences in ankle joint stiffness in children with unilateral cerebral palsy depend on the method of analysis



C. Boulard<sup>a,b,\*</sup>, V. Gautheron<sup>a,b</sup>, T. Lapole<sup>a</sup>

<sup>a</sup> Univ Lyon, UJM Saint-Etienne, Laboratoire Interuniversitaire de Biologie de la Motricité, EA 7424, F-42023 Saint-Etienne, France

<sup>b</sup> Department of Pediatrics Physical Medicine and Rehabilitation, University Hospital of Saint-Etienne, Faculty of Medicine, France

### ARTICLE INFO

#### Keyword:

Cerebral palsy-ankle joint-stiffness-reliability

### ABSTRACT

Children with cerebral palsy (CP) present increased passive ankle joint stiffness, measured as the slope of the torque-angle curve relationship. However, large discrepancies in results exist among studies, likely because of various methodologies used. The purpose of this study was to determine the influence of different calculation methods on the outcomes and their inter-session reliability in children with unilateral CP (UCP).

Thirteen children (mean age: 9.8 years) with spastic UCP underwent passive ankle mobilization at 2°/s on both legs using a dynamometer, on two occasions separated by one week. Passive ankle joint stiffness was calculated as the slope of the torque-angle curve using linear regression on three different relative ranges of torque (i.e. 30%–100%, 20–80% and 50–90% of maximal torque for method 1, 2 and 3, respectively) for both the paretic and non-paretic legs.

Inter-session reliability was significantly lower on paretic leg (mean CV = 13.8%, ICC = 0.62) when compared to non-paretic leg (mean CV = 6%, ICC = 0.85), and method 3 presented lower reliability outcomes (mean CV = 11.7%, ICC = 0.75) than methods 1 (mean CV = 7.5%, ICC = 0.78) and 2 (mean CV = 6.6%, ICC = 0.79). Paretic values (0.24 Nm/°) were not different from the non-paretic leg (0.25 Nm/°), although significantly higher when considering the same angular sector (0.18 Nm/°).

Passive ankle joint stiffness measurement can be reliably performed in children with UCP using method 1 and 2 while method 3 should be avoided. The non-paretic leg may be used for comparison with the paretic leg when taking into account differences in maximal dorsiflexion angle between legs.

ClinicalTrials.gov Identifier: NCT02960932.

### 1. Introduction

Cerebral Palsy (CP) refers to motor control alterations after brain damage occurring perinatally (Rosenbaum et al., 2007), and has a prevalence of 1.7 per 1000 live births in Europe (Sellier et al., 2016). The most common form of CP is spastic CP resulting from alterations to the pyramidal system that leads to a velocity-dependent increase in tonic stretch reflexes with exaggerated tendon jerks (Lance, 1980). Spastic CP is well known to induce several functional motor impairments, especially in lower limb muscles, that may appear during growth and alter quality of life. For instance, muscles contractures, defined as a decrease in muscle belly length (Lieber and Fridén, 2018) associated with an increase in passive muscle stiffness (Farmer and James, 2001), have been frequently reported for plantarflexor (PF) muscles in spastic CP (Mathewson and Lieber, 2015, Švehlík et al., 2013). As a

consequence, ankle joint range of motion has been reported to decrease dramatically during growth in children with CP (Hägglund and Wagner, 2011, Švehlík et al., 2013). Moreover, due to the important functional role of the PF muscles in vertical support and forward propulsion during walking (Perry et al., 1974), their alteration may induce gait impairments such as equinus gait (Wren et al., 2010, Švehlík et al., 2010). Equinus foot deformity is one of the most common problems leading to gait and functional limitations in children with CP (Goldstein and Harper 2001, Švehlík et al., 2010, Wren et al., 2010).

Passive ankle joint stiffness (PAJS) has been classically assessed by establishing the torque-angle relationship during passive dorsiflexion (DF) which may be considered as the 'gold standard' for mechanical assessment of muscle-tendon properties (Moseley et al., 2001, Harlaar et al., 2000, Tardieu et al., 1982). PAJS is then calculated as the slope of the torque-angle relationship using a linear fit (Alhusaini et al., 2010,

\* Corresponding author at: UJM Saint-Etienne, Laboratoire interuniversitaire de biologie de la motricité, 10 chemin de la Marandinière 42270 Saint-Priest En Jarez, France.

E-mail address: [clement.boulard@univ-st-etienne.fr](mailto:clement.boulard@univ-st-etienne.fr) (C. Boulard).

<https://doi.org/10.1016/j.jelekin.2019.102353>

Received 7 April 2019; Received in revised form 23 July 2019; Accepted 22 August 2019  
1050-6411/ © 2019 Elsevier Ltd. All rights reserved.

Barber et al., 2011, Kruse et al., 2017, Ross et al., 2011, Theis et al., 2016). This has led to reports of increased PAJS in children with CP when compared to typically developing (TD) peers (Alhusaini et al., 2010, Barber et al., 2011, de Gooijer-van de Groep et al., 2013, Ross et al., 2011), although others did not evidence differences between groups (Kruse et al., 2017, Ross et al., 2011). Moreover, large discrepancies have been reported for the magnitude of increased stiffness in children with CP among studies, ranging from 35% (Ross et al., 2011) to 225% (Alhusaini et al., 2010). Such discrepancies could be due to differences in methodology and/or heterogeneity of the sample of tested children.

First, the choice of the angular sector for slope calculation has been reported to largely influence the results and their interpretation (Ross et al., 2011). Since all the aforementioned studies used different angular [i.e. 0–5° for Alhusaini et al. (2010), –30 to –10° and last 20° of DF for Ross et al. (2011)] or torque [30–100% for Barber et al. (2011), 20–80% for Theis et al. (2015, 2016) and 50–90% of maximal passive torque for Kruse et al. (2017)] sectors for slope calculation, comparison between studies may be hazardous and clear recommendations should be provided to ensure accuracy of future studies. Here, we propose to investigate the influence of PAJS calculation method on reliability outcomes and interpretation that can be made from the results. We believe that this may help clinical decision making such as to perform either conservative (e.g. casting, splinting, stretching) or surgical treatment.

Secondly, most studies included children with both bilateral and unilateral CP (UCP) notwithstanding that the rate of PF growth and strength differs among them (Barber et al., 2016, Wiley and Damiano, 1998). Moreover, children with UCP are more prone to developing fixed equinus deformity during growth because of a frequent combination of a true equinus pattern (Goldstein et al., 2001, Winters et al., 1987) and dorsiflexors muscle weakness (Cobeljic et al., 2009). Altogether, this may potentially influence passive stiffness. Accordingly, it would be of interest to specifically investigate PAJS in children with UCP in a clinical routine. Comparing the paretic and non-paretic legs could be of high interest for the clinician in a longitudinal follow-up during growth and to evaluate the impact of therapeutic strategies such as stretching program (Theis et al., 2015), home based exercises program (Kruse et al., 2018) or gait training (Hösl et al., 2018; Willerslev-Olsen et al., 2015). Before that, it is crucial to characterize the reliability of the measurement.

Therefore, the purpose of this study was to compare in children with UCP paretic and non-paretic legs PAJS and to further determine the influence of different calculation methods on the outcomes and their inter-session reliability. Because of differences in ankle range of motion during passive stretch between both paretic and non-paretic legs, increased stiffness may occur earlier in the range of absolute stretch for the spastic than non-spastic leg (Ross et al., 2011). An additional aim of this study was to further investigate the inter-limb difference when stiffness is calculated on the same absolute or relative angular sector.

## 2. Method

Thirteen children (7 females, 6 males) with spastic UCP (Table 1) participated in this study, which was approved by the local ethics committee (CPP Sud-Est, number 2016-A01558-43) and conducted according to the declaration of Helsinki. Parents and children gave their written informed consent prior to inclusion in the study. Children (aged 5–12 years) with spastic UCP (i.e. Tardieu scale  $\geq$  X2, V2) were recruited provided they were able to understand and follow simple verbal instructions, had no botulinum toxin injections or cast applications in the last three months, and had less than 10° of knee flexion contracture. Children were excluded if they had any surgical procedures performed on the lower limbs.

Each child was tested twice at a 1-week interval and at the same time of the day by the same experimental investigator. Paretic and non-

**Table 1**

General characteristics of the tested group; Data are presented as mean (SD) (Nb: number, GMFCS: Gross Motor Function Classification System, DF: dorsiflexion).

n	13
Sex (M/F)	6/7
Paretic side (right/left)	6/7
Age (Y:Mo)	9.8 (1.8)
Weight (kg)	32.6 (9.6)
Height (cm)	137.8 (13.5)
Tibia length on paretic leg (cm)	32.9 (4)
Tibia length on non-paretic leg (cm)	33.9 (4.1)
GMFCS Level, n	I; n = 13
Modified Ashworth Scale	2.46 (0.77)
Tardieu Scale	1.2 (0.86)
Boyd scale	1.23 (0.44)
Maximum DF angle paretic side (°)	2.1 (6.5)
Maximum DF angle non-paretic side (°)	12.7 (3.8)
Nb Botulinum toxin injection	6.5 (2)
Nb weeks ankle casting	6.5 (5.6)
Nb session physiotherapy per week	1.5 (0.6)
Night splinting (Yes/No)	11/2
Gait orthoses (Yes/No)	10/3

paretic limbs were assessed in a random order in the first session and the same order was kept for the second session.

After determining their Gross Motor Function Classification System (GMFCS) level, spasticity level on soleus and gastrocnemius muscles on the paretic limb was assessed with the Modified Ashworth and Tardieu Scales, and selective motor control was assessed with the Boyd scale. Passive maximal DF angle was then measured manually for both limbs with the knee extended and in supine position using a manual goniometer. After that, children were installed in the prone position (with hip and knee at 0° extension (i.e. fully extended) and with the ankle joint positioned at 25° of ankle PF) on an isokinetic dynamometer (Con-Trex®, Medimex, France). The axis of the dynamometer was aligned with the presumed axis of rotation of the ankle. The foot was firmly fixed to the dynamometer and the thigh was fixed to the dynamometer with a Velcro™ attachment. Experimental condition of ankle joint positioning was presented Fig. 1. Torque-angle relationships were then recorded during passive DF performed at 2°/s between 25° of ankle PF and the pre-determined maximal DF angle of the ankle. To ensure that muscles were totally relaxed during passive movements, EMG activity was recorded using dry-surface electrodes (Delsys DE 2.1, Delsys Inc, Boston, MA, USA) placed on the gastrocnemius lateralis and tibialis anterior muscles. Sampling frequency for angle, torque and EMG signals was 2000 Hz. A total of 5 passive loading/unloading cycles was performed to account for a possible conditioning effect (Maganaris, 2003) and the last loading cycle (i.e. DF phase) was retained for joint stiffness analysis since no significant changes have been reported to occur between the fourth and the fifth cycles (Maisetti et al., 2012).

Considering the variety of methodological approach used in the literature to calculate PAJS, stiffness was considered in the present study as the slope of the linear regression between passive torque and ankle angle in the range between (1) 30–100% (method 1, Barber et al., 2011), (2) 20–80% (method 2, Theis et al., 2015 and 2016) and (3) 50–90% of maximal passive torque (method 3, Kruse et al., 2017) as previously performed by others. To account for differences in range of motion between paretic and non-paretic legs, PAJS was calculated for the non-paretic leg not only on the relative range defined above (PAJS<sub>rel</sub>) but also on the same absolute angular sector as for the paretic one (PAJS<sub>abs</sub>).

### 2.1. Statistical analysis

Coefficients of determination ( $R^2$ ) of the torque-angle relationships were calculated for linear fitting. As recommended by Hopkins (Hopkins, 2000), inter session reliability of the PAJS were assessed for



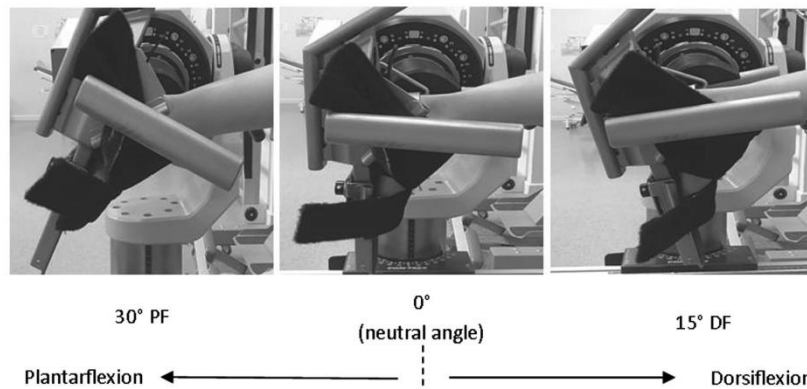


Fig. 1. Experimental condition of ankle positioning on the isokinetic dynamometer (PF: plantarflexion, DF: dorsiflexion).

each method (i.e. 30–100%, 20–80% and 50–90%) and both legs (i.e. non-paretic leg and paretic leg on both the same absolute and relative angular sector as for the paretic one) using the intra-class correlation coefficient (ICC), standard error of the mean (SEM) and coefficient of variation (CV). The ICC provides a measure of relative reliability showing the degree to which individuals maintain their position in a sample with repeated measurements (Hopkins, 2000). According to Fleiss (Fleiss, 1981), ICC > 0.75 represents excellent reliability; an ICC between 0.74 and 0.40 represents moderate to good reliability and an ICC < 0.40 represents poor reliability. The SEM scores were also calculated to quantify absolute reliability. Thus, a low SEM value means strong reliability and vice-versa (Hopkins, 2000). The CV (standard deviation (SD) / mean) was calculated to represent the degree to which repeated measurements vary for individuals (Hopkins, 2000). Reliability was considered as good for CV < 10% and moderate for CV 10–20%. All variables passed the normality test (Kolmogorov–Smirnov normality test) and homogeneity of variance verification (Levene's test). A paired *t*-test was used to compare maximal DF angle between paretic and non-paretic legs. Three-way ANOVAs were performed to determine the effect of slope calculation method (i.e. method 1, 2 and 3), sessions (i.e. 1 and 2) and tested limb (i.e. paretic leg, non-paretic leg, and non-paretic leg within the same absolute angular sector as for the paretic leg) for PAJS as well as coefficients of determination (R<sup>2</sup>) of the torque-angle relationships. Two-ways ANOVAs were performed to determine the effect of slope calculation method and tested limb for reliability outcomes (CV). When the ANOVA identified significant effects, post-hoc Fisher testing was performed. Data are presented as mean ± SD. Statistical significance was set at  $p < 0.05$ .

### 3. Results

The characteristics of the population are shown in Table 1. Children with UCP presented significantly decreased maximal ankle DF angle ( $p < 0.0001$ ) (Table 1).

Averaged torque-angle relationships obtained for the whole group during both first and second testing sessions are presented for the paretic legs in Fig. 2.

Relationships were well fitted by the linear regression. Mean R<sup>2</sup> ranged between 0.94 (i.e. paretic limb, session 1, 50–90%) and 0.97 (i.e. non-paretic leg within the same absolute angular sector as for the paretic leg, session 2, 20–80%). There were no main effect of session ( $p = 0.3$ ) or tested limb ( $p = 0.15$ ). However, there was a main effect of the calculation method ( $p < 0.001$ ) with post-hoc testing only revealing a trend for greater R<sup>2</sup> for method 2 (mean R<sup>2</sup> of 0.97) than

method 3 (mean R<sup>2</sup> of 0.95) ( $p = 0.077$ ). Moreover, there was a method × tested limb interaction effect ( $p < 0.0001$ ). Post-hoc testing demonstrated higher R<sup>2</sup> value for method 2 (mean R<sup>2</sup> of 0.96) when compared to method 3 (mean R<sup>2</sup> of 0.94) on the paretic leg ( $p < 0.001$ ). Similarly, higher values were reported for method 1 and 2 (mean R<sup>2</sup> of 0.97 for both methods) when compared to method 3 (mean R<sup>2</sup> of 0.94) on the non-paretic leg within the same absolute angular sector as for the paretic leg ( $p < 0.001$  and 0.0001, respectively).

Using method 2, Fig. 3 illustrates for the whole group the comparison of PAJS<sub>rel</sub> and PAJS<sub>abs</sub> measurements between paretic and non-paretic legs. Table 2 presents stiffness measurement values as well as their inter-session reliability outcomes.

When considering PAJS values, the three-ways ANOVA (limbs × sessions × methods) revealed:

- a significant main effect of method ( $p < 0.0001$ ): post-hoc testing revealed significantly lower PAJS values using method 2 (mean stiffness of 0.19 Nm/°) when compared to method 1 (mean stiffness of 0.23 Nm/°) ( $p = 0.009$ ) and to method 3 (mean stiffness of 0.26 Nm/°) ( $p < 0.0001$ ) while the difference was almost significant between the latter two ( $p = 0.06$ ).
- a significant method × tested limb interaction effect ( $p = 0.009$ ): post-hoc testing revealed that stiffness values were significantly higher for the paretic leg when compared to non-paretic PAJS<sub>abs</sub> whatever the method used for calculation ( $p < 0.001$  with method 1,  $p = 0.007$  with method 2,  $p < 0.0001$  with method 3). No significant difference was found between paretic leg and non-paretic leg PAJS<sub>rel</sub> values whatever the method used for calculation ( $p = 0.69, 0.86$  and  $0.40$  with method 1, 2 and 3, respectively).
- no interaction effect involving the factor session (session × method:  $p = 0.56$ ; sessions × limbs × methods:  $p = 0.42$ ).

Regarding the inter-session CVs, two-ways ANOVA revealed significant main effect of method ( $p = 0.001$ ). Post-hoc testing demonstrated significantly higher CV values for method 3 (mean CV of 11.7%) when compared to method 2 (mean CV of 6.6%) ( $p = 0.03$ ), and a non-significant difference when compared to method 1 (mean CV of 7.5%) ( $p = 0.07$ ). CVs were not different between methods 1 and 2 ( $p = 0.69$ ). Two-ways ANOVA also revealed a significant main effect of the tested limb ( $p < 0.001$ ). Higher CV values were reported for the paretic limb (mean CV of 13.8%) when compared to the non-paretic one (mean CV of 7%) ( $p = 0.04$ ) and to the non-paretic leg within the same absolute angular sector as for the paretic leg (mean CV of 5%) ( $p = 0.01$ ). There was no difference between CV values of the latter two

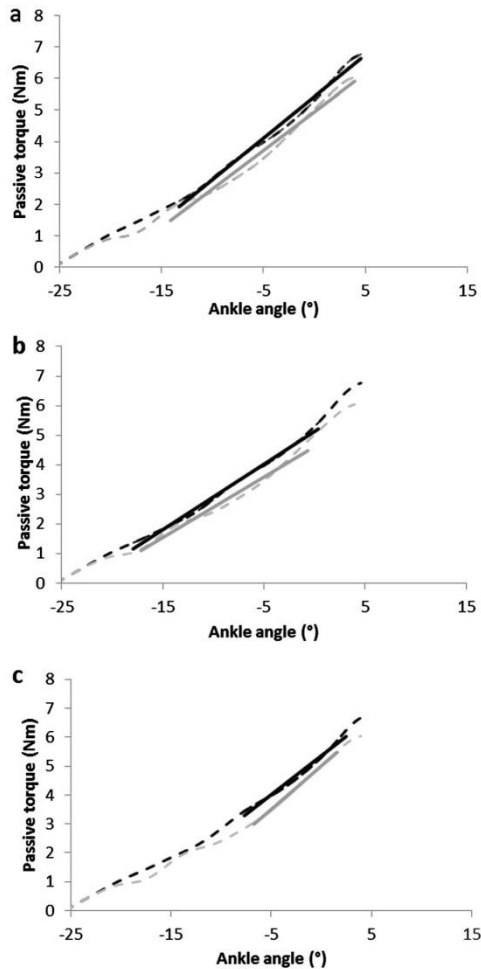


Fig. 2. Averaged torque-angle relationships between 25° of plantarflexion and maximal dorsiflexion angle on the paretic leg for both first (black line) and second (grey line) testing sessions. Ankle joint passive stiffness (dashed lines) was calculated as the slope of the torque-angle curve from 30% to 100% (a), 20% to 80% (b) and 50 to 90% (c) of maximal passive torque.

( $p = 0.53$ ). Finally, there was no significant method  $\times$  tested limb interaction effect ( $p = 0.08$ ).

#### 4. Discussion

In the present study, we investigated in children with UCP inter-limb difference in PAJS through torque-angle curve measurements. We further investigated how the methodological approach (i.e. the selected angular sector for stiffness calculation) may influence PAJS values of both limbs as well as their reliability outcomes. Our results suggest that the three tested method for slope calculation (i.e. 30–100%, 20–80% and 50–90% of maximal passive torque for methods 1, 2 and 3, respectively) led to similar results. For instance, there was no inter-limb difference when considering PAJS<sub>rel</sub> while values were greater for the

paretic limb when compared to non-paretic PAJS<sub>abs</sub>. Moreover, measurements were reported to be reliable, although lower reliability was observed for the third method as well as for the paretic limb.

All the tested method for slope calculation were well fitted by a linear fit, whatever the considered limb ( $R^2$  ranged from 0.94 to 0.97). This confirms that linear regression is appropriate to calculate PAJS as the slope of the torque-angle curve. Yet, method 3 was significantly less fitted by the linear regression. Moreover, we report mean PAJS values in agreement with previous reports in children with CP with similar characteristics than in the present study (Ross et al., 2011).

Based on CV and ICC outcomes, PAJS reliability was considered as good for the non-paretic leg whatever the method used for calculation (mean CV = 7% and 5%, mean ICC = 0.84 and 0.86 for PAJS<sub>rel</sub> and PAJS<sub>abs</sub> respectively) and moderate for the paretic leg (mean CV = 13.8% and mean ICC = 0.62). For instance, we reported significant higher CV values for the paretic leg, in agreement with findings on adults with hemiplegia (Harlaar et al., 2000). While this may be the result of spasticity (Harlaar et al., 2000), we used a very low angular velocity (2°/s) to avoid reflex activation. While the reason for such difference in reliability between limbs remains unknown, this may be the consequence of misalignment of the axes of the ankle and dynamometer and/or motion of the knee during testing (Barber et al., 2011). These methodological considerations may have predominantly affected measurements on the paretic leg because of its likely smaller Achilles tendon moment arm (Kalkman et al., 2017) and foot size. Consequently, correct ankle joint positioning and correct alignment of the dynamometer were complicated on the paretic leg. Nonetheless, despite lower reliability was found on the paretic leg, we reported CV values (12.4%, 9.7% and 19.2% for method 1, 2 and 3 respectively, table 1) largely lower than the decreased ankle joint stiffness reported after interventions such as long-term stretching program (~832%, Theis et al., 2015), or gait training (~40%, Willerslev-Olsen et al., 2015). This suggests that performing such measurements in the clinical field may still make sense to evaluate the benefits of various treatment strategies. Our results also demonstrated good inter-session reliability for methods 1 (mean value for CV = 7.5% and ICC = 0.78) and 2 (mean value for CV = 6.6% and ICC = 0.79) for all the tested limbs, as it was for method 3 on the non-paretic leg when considering both the absolute or relative angular sector (mean value for CV = 8% and ICC = 0.82). Conversely, lower and moderate reliability was found when using method 3 on the paretic leg (CV = 19.2% and ICC = 0.6).

Using a lower limit of 20% of maximal torque is thought to avoid the toe region at the lower end of the stiffness curve (Abellaneda et al., 2009). As such, the three tested methods should not have been influenced by this phenomenon. Moreover, an upper limit of 80% of maximal torque is thought to minimize the contribution of passive elastic structures such as ligaments, connective tissues and skins at the upper end of the curve (Abellaneda et al., 2009). EMG responses of PF muscles may also tend to rise significantly from 80% of maximal torque (McNair et al., 2001). Nonetheless, these influences may not explain the lower reliability observed for method 3 (50–90% of maximal torque) because reliability was still good for method 1 calculating slope of the torque-angle curve up to 100% of maximal torque. Alternatively, we suggest that the lower reliability may be the result of the restricted range of torque (i.e. 40% for method 3 vs 70% and 60% for methods 1 and 2, respectively) for slope calculation that may be more sensitive to inter-session variability, especially for the paretic leg. Taking together, we suggest to choose the method 2 (i.e. 20–80% of maximal torque) given that our findings present better reliability outcomes for the paretic leg and avoid the final portion of the torque-angle curve (i.e. last 20% of maximal torque).

To the best of our knowledge, this study is the first to compare PAJS between paretic and non-paretic legs in children with UCP. Whatever the method used for slope calculation, we found no difference in PAJS between paretic and non-paretic legs when considering the same relative angular sector. While this is to our knowledge the first study to

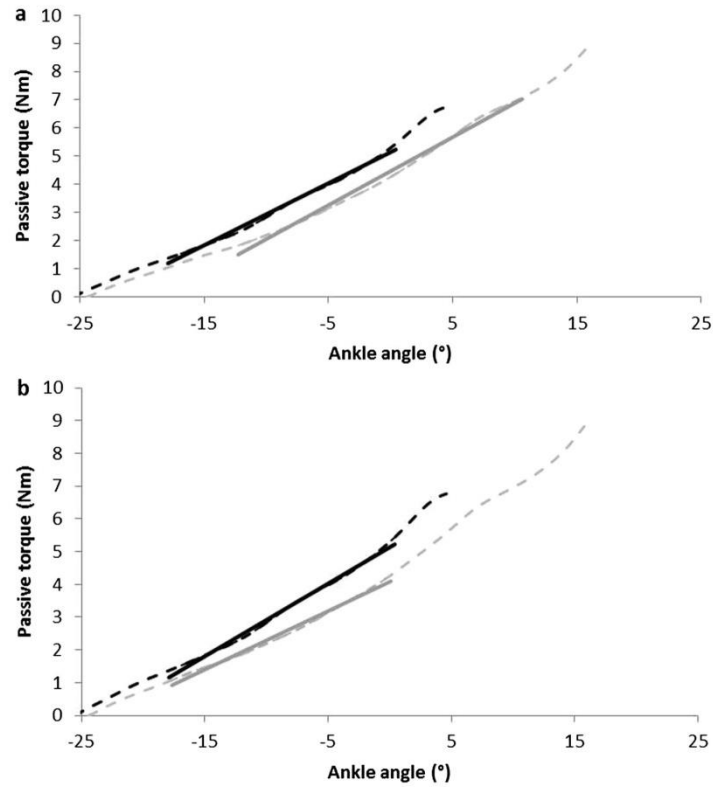


Fig. 3. Averaged torque-angle relationships between 25° plantarflexion and maximal dorsiflexion angle on the paretic (black line) and non-paretic (grey line) legs. Data from both testing sessions are averaged. Ankle joint passive stiffness was calculated as the slope of the torque-angle curve (dashed lines for paretic and non-paretic leg, respectively) from 20% to 80% of maximal passive torque in the same relative range of torque (a) and in the same absolute range of angle (b).

specifically compare both legs in children with UCP, this finding is in agreement with a recent study of Kruse et al. (2017) demonstrating using the third method we presented no difference in PAJS between children (mean age: 11.9 years) with CP and TD peers. Conversely,

Barber et al. (2011) reported significant differences between CP young adults with CP (mean age: 18 years) and TD peers using method 1. Discrepancies between studies may likely be the consequence of differences in clinical status (e.g. CP severity) and age of participants. In

Table 2

inter-session reliability outcomes for passive ankle joint stiffness (PAJS, in Nm/°) on paretic leg (PAJS<sub>rel</sub>) and non-paretic leg on its relative (PAJS<sub>rel</sub>) and absolute (PAJS<sub>abs</sub>) angular sector calculated with three different methods. (ICC: intra-class correlation coefficient, CV: coefficient of variation, SEM: standard error of measurement).

Inter-session reliability		Mean (SD)			ICC	CV (%)	SEM
Method	Side leg	Session 1	Session 2				
Method 1	PAJS <sub>rel</sub> paretic leg	0.24 (0.09) <sup>d</sup>	0.26 (0.06) <sup>d</sup>	0.57	12.41 <sup>b</sup>	0.05	
	PAJS <sub>rel</sub> non-paretic leg	0.25 (0.05)	0.25 (0.06)				
	PAJS <sub>abs</sub> non-paretic leg	0.18 (0.003)	0.18 (0.03)				
Method 2	PAJS <sub>rel</sub> paretic leg	0.20 (0.06) <sup>c,d</sup>	0.21 (0.04) <sup>c,d</sup>	0.69	9.72 <sup>b</sup>	0.03	
	PAJS <sub>rel</sub> non-paretic leg	0.20 (0.03) <sup>c</sup>	0.20 (0.04) <sup>c</sup>				
	PAJS <sub>abs</sub> non-paretic leg	0.15 (0.02) <sup>c</sup>	0.16 (0.02) <sup>c</sup>				
Method 3	PAJS <sub>rel</sub> paretic leg	0.26 (0.13) <sup>d</sup>	0.30 (0.11) <sup>d</sup>	0.6	19.21 <sup>a,b</sup>	0.07	
	PAJS <sub>rel</sub> non-paretic leg	0.29 (0.06)	0.30 (0.08)				
	PAJS <sub>abs</sub> non-paretic leg	0.19 (0.06)	0.19 (0.04)				

<sup>a</sup> Significant higher CV compared to method 2.

<sup>b</sup> Significant higher CV compared to PAJS<sub>rel</sub> non-paretic leg and PAJS<sub>abs</sub> non-paretic leg.

<sup>c</sup> Significant lower PAJS values compared to method 1 and 3.

<sup>d</sup> Significant higher PAJS<sub>rel</sub> on the paretic leg compared to PAJS<sub>abs</sub> on the on-paretic leg.



the present study, lack of inter-limb difference in PAJS despite reduced range of motion in the paretic side is in agreement with the notion that non-paretic leg in children with UCP cannot be considered as an “healthy” leg (Wiley et al., 2008). It has accordingly been reported in hemiparetic post-stroke adults no inter-limb difference in PAJS while the paretic leg presented significantly higher passive stiffness when compared to TD adults (Freire et al., 2017). Moreover, this is consistent with findings of altered structural properties observed on both paretic and non-paretic medial gastrocnemius muscles in children with UCP when compared to TD Peers (Obst et al., 2017).

When taking into account inter-limb difference in maximal DF angle (i.e. by calculating slope of the torque-angle curves on a same absolute angular sector for both legs), PAJS was significantly increased in the paretic leg when compared to contralateral one whatever the method used. Our results demonstrated 37%, 28% and 45% inter-limb differences for method 1, 2 and 3 respectively. We assume that comparing both legs on the same angular sector on legs with significantly different maximal DF angle led to a comparison of different portions of the torque-angle curve. Consequently, the slope of the curve should be systematically higher on the limb with significantly lower maximal DF angle (Ross et al., 2011). Nonetheless, this method allowed us to quantify increased resistance to stretch of the PF muscle-tendon unit of the paretic leg when compared to the non-paretic one, just as the clinician would perceive it while manually mobilizing the ankle joint of both legs through the same angular range (Ross et al., 2011). This increased stretch resistance at a given ankle angle is further supported by the higher gastrocnemius medialis stiffness reported on the paretic leg when compared to the contralateral one at neutral angle (i.e. 0°) using Shear Wave Elastography in children with UCP (Lee et al., 2016). Such an inter-limb difference in PAJS could be due to a mismatch between bone and muscle length development in the paretic leg during growth (Pingel et al., 2017), with decreased gastrocnemius muscle length (Malaiya et al., 2007). Although PAJS does not necessarily reflect muscular (i.e. gastrocnemius and soleus) or tendinous (i.e. Achilles Tendon) tissues behaviors during passive mobilization in children with CP (Bar-On et al., 2018), musculo-tendinous unit, and especially muscle belly in children with CP, is considered as the primary contributor to joint passive stiffness (Blazevich, 2018; Lieber et al., 2017). Moreover, PAJS can be reliably measured using a simple dynamometer, as confirmed by the present study, while measurements at muscle and/or tendon level would require a complex experimentation design using ultrasonography in addition to dynamometry. Accordingly, PAJS may be measured in a clinical routine as a valuable and convenient parameter (1) to give useful objective parameters for clinical follow-up of children with CP during growth, and (2) to evaluate the impact of therapeutic strategies. This may be especially relevant for children with UCP who are more likely to develop ankle contracture and/or to be less responsive to botulinum toxin injection than children with bilateral CP (Hastings-Ison et al., 2016).

## 5. Conclusions

The present results suggest that the non-paretic leg in children with UCP may serve as a “control” limb during the clinical follow-up, provided that the comparison with the paretic leg is performed on the same absolute angular sector. We also suggest that PAJS should be assessed using method 2, i.e. 20–80% of maximal passive torque.

## Declaration of Competing Interest

None.

## Acknowledgements

Clément Boulard performed the planning, neurological examination and biomechanical measurement of the children. Clément Boulard and

Thomas Lapole performed all analyses and discussion. Clément Boulard wrote the first draft of the manuscript, which was read and commented on by all the other authors.

This study was funded by several grants from ALLP (Association Lyonnaise de Logistique Post-Hospitalière, France), SFEHRE (Société Francophone d'Etude et de Recherche sur le Handicap de l'Enfant, France) and R4P (Réseau Régional de Rééducation et de Réadaptation en Rhône-Alpes, France), which are French scientific societies supporting research into childhood disabilities.

These foundations have no financial interest in the publication of the paper. The authors have stated that they had no interests which might be perceived as posing a conflict or bias. The authors thank Callum Brownstein for English revision of the manuscript and Rodolphe Testa for helpful in data processing.

## References

- Abellana, S., Guissard, N., Duchateau, J., 2009. The relative lengthening of the myotendinous structures in the medial gastrocnemius during passive stretching differs among individuals. *J. Appl. Physiol.* 106, 169–177. <https://doi.org/10.1152/jappphysiol.90577.2008>.
- Alhusaini, A.A., Crosbie, J., Shepherd, R.B., Dean, C.M., Scheinberg, A., 2010. Mechanical properties of the plantarflexor musculotendinous unit during passive dorsiflexion in children with cerebral palsy compared with typically developing children: Calf Muscle Stiffness in Children with CP. *Dev. Med. Child Neurol.* 52, e101–e106. <https://doi.org/10.1111/j.1469-8749.2009.03600.x>.
- Barber, L., Barrett, R., Lichtwark, G., 2011. Passive muscle mechanical properties of the medial gastrocnemius in young adults with spastic cerebral palsy. *J. Biomech.* 44, 2496–2500. <https://doi.org/10.1016/j.jbiomech.2011.06.008>.
- Barber, L.A., Read, F., Lovatt Stern, J., Lichtwark, G., Boyd, R.N., 2016. Medial gastrocnemius muscle volume in ambulant children with unilateral and bilateral cerebral palsy aged 2 to 9 years. *Dev. Med. Child Neurol.* 58, 1146–1152. <https://doi.org/10.1111/dmcn.13132>.
- Bar-On, L., Kalkman, B.M., Cenni, F., Schless, S.-H., Molenaers, G., Maganaris, C.N., Bass, A., Holmes, G., Barton, G.J., O'Brien, T.D., Desloovere, K., 2018. The relationship between medial gastrocnemius lengthening properties and stretch reflexes in cerebral palsy. *Front. Pediatr.* 6. <https://doi.org/10.3389/fped.2018.00259>.
- Blazevich, A.J., 2018. Adaptations in the passive mechanical properties of skeletal muscle to altered patterns of use. *J. Appl. Physiol.* <https://doi.org/10.1152/jappphysiol.00700.2018>.
- Cobeljic, G., Bumbasirevic, M., Lesic, A., Bajin, Z., 2009. The management of spastic equinus in cerebral palsy. *Orthop. Trauma* 23, 201–209. <https://doi.org/10.1016/j.mprth.2009.05.003>.
- de Gooijer-van de Groep, K.L., de Vlugt, E., de Groot, J.H., van der Heijden-Maessen, H.C., Wielheesen, D.H., van Wijlen-Hempel, R.M.S., Arendzen, J., Meskers, C.G., 2013. Differentiation between non-neural and neural contributors to ankle joint stiffness in cerebral palsy. *J. NeuroEngineering Rehabil.* 10, 81. <https://doi.org/10.1186/1743-0003-10-81>.
- Farmer, S.E., James, M., 2001. Contractures in orthopaedic and neurological conditions: a review of causes and treatment. *Disabil. Rehabil.* 23, 549–558.
- Fleiss, J.-L., 1981. The measurement of interrater agreement. *Stat. Methods Rates Proportions* 2.
- Freire, B., Dias, C.P., Goulart, N.B.A., de Castro, C.D., Becker, J., Gomes, I., Vaz, M.A., 2017. Achilles tendon morphology, plantar flexors torque and passive ankle stiffness in spastic hemiparetic stroke survivors. *Clin. Biomech.* 41, 72–76. <https://doi.org/10.1016/j.clinbiomech.2016.12.004>.
- Goldstein, M., Harper, D.C., 2001. Management of cerebral palsy: equinus gait. *Dev. Med. Child Neurol.* 43, 563–569.
- Hägglund, G., Wagner, P., 2011. Spasticity of the gastrosoleus muscle is related to the development of reduced passive dorsiflexion of the ankle in children with cerebral palsy: A registry analysis of 2,796 examinations in 355 children. *Acta Orthop.* 82, 744–748. <https://doi.org/10.3109/17453674.2011.618917>.
- Harlaar, J., Becher, J.G., Snijders, C.J., Lankhorst, G.J., 2000. Passive stiffness characteristics of ankle plantar flexors in hemiplegia. *Clin. Biomech. Bristol Avon* 15, 261–270.
- Hastings-Ison, T., Blackburn, C., Rawicki, B., Fahey, M., Simpson, P., Baker, R., Graham, K., 2016. Injection frequency of botulinum toxin A for spastic equinus: a randomized clinical trial. *Dev. Med. Child Neurol.* 58, 750–757. <https://doi.org/10.1111/dmcn.12962>.
- Hopkins, G., 2000. Measures of reliability in sportsmedicine and science. *Sports Med.* 30, 1–15.
- Hösl, M., Böhm, H., Eck, J., Döderlein, L., Arampatzis, A., 2018. Effects of backward-downhill treadmill training versus manual static plantarflexor stretching on muscle-joint pathology and function in children with spastic Cerebral Palsy. *Gait Posture* 65, 121–128. <https://doi.org/10.1016/j.gaitpost.2018.07.171>.
- Kalkman, B.M., Bar-On, L., Cenni, F., Maganaris, C.N., Bass, A., Holmes, G., Desloovere, K., Barton, G.J., O'Brien, T.D., 2017. Achilles tendon moment arm length is smaller in children with cerebral palsy than in typically developing children. *J. Biomech.* 56, 48–54. <https://doi.org/10.1016/j.jbiomech.2017.02.027>.
- Kruse, A., Schranz, C., Svehlik, M., Tilp, M., 2018. The effect of functional home-based

- strength training programs on the mechano-morphological properties of the plantar flexor muscle-tendon unit in children with spastic cerebral palsy. *Pediatr. Exerc. Sci.* 1–10. <https://doi.org/10.1123/pes.2018-0106>.
- Kruse, A., Schranz, C., Švehlík, M., Tilp, M., 2017. Mechanical muscle and tendon properties of the plantar flexors are altered even in highly functional children with spastic cerebral palsy. *Clin. Biomech.* 50, 139–144. <https://doi.org/10.1016/j.clinbiomech.2017.10.019>.
- Lee, S.S.M., Gaebler-Spira, D., Zhang, L.-Q., Rymer, W.Z., Steele, K.M., 2016. Use of shear wave ultrasound elastography to quantify muscle properties in cerebral palsy. *Clin. Biomech.* 31, 20–28. <https://doi.org/10.1016/j.clinbiomech.2015.10.006>.
- Lieber, R.L., Fridén, J., 2018. Muscle contracture and passive mechanics in cerebral palsy. *J. Appl. Physiol.* <https://doi.org/10.1152/jappphysiol.00278.2018>.
- Lieber, R.L., Roberts, T.J., Blemker, S.S., Lee, S.S.M., Herzog, W., 2017. Skeletal muscle mechanics, energetics and plasticity. *J. NeuroEngineering Rehabil.* 14. <https://doi.org/10.1186/s12984-017-0318-y>.
- Maganaris, C.N., 2003. Force-length characteristics of the in vivo human gastrocnemius muscle. *Clin. Anat.* 16, 215–223. <https://doi.org/10.1002/ca.10064>.
- Maisetti, O., Hug, F., Bouillard, K., Nordez, A., 2012. Characterization of passive elastic properties of the human medial gastrocnemius muscle belly using supersonic shear imaging. *J. Biomech.* 45, 978–984.
- Malaiya, R., McNea, A., Fry, N.R., Eve, L., Gough, M., Shortland, A.P., 2007. The morphology of the medial gastrocnemius in typically developing children and children with spastic hemiplegic cerebral palsy. *J. Electromyogr. Kinesiol.* 17, 656–663.
- Mathewson, M.A., Lieber, R.L., 2015. Pathophysiology of muscle contractures in cerebral palsy. *Phys. Med. Rehabil. Clin. N. Am.* 26, 57–67. <https://doi.org/10.1016/j.pmr.2014.09.005>.
- McNair, P.J., Dombroski, E.W., Hewson, D.J., Stanley, S.N., 2001. Stretching at the ankle joint: viscoelastic responses to holds and continuous passive motion. *Med. Sci. Sports Exerc.* 35, 354–358.
- Moseley, A.M., Crosbie, J., Adams, R., 2001. Normative data for passive ankle plantar-flexion-dorsiflexion flexibility. *Clin. Biomech. Bristol Avon* 16, 514–521.
- Obst, S.J., Boyd, R., Read, F., Barber, L., 2017. Quantitative 3-D ultrasound of the medial gastrocnemius muscle in children with unilateral spastic cerebral palsy. *Ultrasound Med. Biol.* 43, 2814–2823. <https://doi.org/10.1016/j.ultrasmedbio.2017.08.929>.
- Perry, J., Hoffer, M.M., Giovan, P., Antonelli, D., Greenberg, R., 1974. Gait analysis of the triceps surae in cerebral palsy. A preoperative and postoperative clinical and electromyographic study. *J. Bone Joint Surg. Am.* 56, 511–520.
- Pingel, J., Bartels, E.M., Nielsen, J.B., 2017. New perspectives on the development of muscle contractures following central motor lesions: Muscle contractures following central motor lesions. *J. Physiol.* 595, 1027–1038. <https://doi.org/10.1113/JP272767>.
- Rosenbaum, P., Paneth, N., Leviton, A., Goldstein, M., Bax, M., Damiano, D., Dan, B., Jacobsson, B., 2007. A report: the definition and classification of cerebral palsy April 2006. *Dev. Med. Child Neurol. Suppl.* 109, 8–14.
- Ross, S.A., Foreman, M., Engsborg, J.R., 2011. Comparison of 3 different methods to analyze ankle plantarflexor stiffness in children with spastic diplegia cerebral palsy. *Arch. Phys. Med. Rehabil.* 92, 2034–2040. <https://doi.org/10.1016/j.apmr.2011.06.025>.
- Sellier, E., Platt, M.J., Andersen, G.L., Krägeloh-Mann, I., De La Cruz, J., Cans, C., Surveillance of Cerebral Palsy Network, 2016. Decreasing prevalence in cerebral palsy: a multi-site European population-based study, 1980 to 2003. *Dev. Med. Child Neurol.* 58, 85–92. <https://doi.org/10.1111/dmcn.12865>.
- Švehlík, M., Leistriz, L., Kraus, T., Zwick, E.B., Steinwender, G., Linhart, W.E., 2013. The growth and the development of gastro-soleus contracture in cerebral palsy. *Gait Posture* 38, S12. <https://doi.org/10.1016/j.gaitpost.2013.07.032>.
- Švehlík, M., Zwick, E.B., Steinwender, G., Kraus, T., Linhart, W.E., 2010. Dynamic versus fixed equinus deformity in children with cerebral palsy: how does the triceps surae muscle work? *Arch. Phys. Med. Rehabil.* 91, 1897–1903.
- Tardieu, C., Huet de la Tour, E., Bret, M.D., Tardieu, G., 1982. Muscle hypotensibility in children with cerebral palsy: I. Clinical and experimental observations. *Arch. Phys. Med. Rehabil.* 63, 97–102.
- Theis, N., Korff, T., Mohagheghi, A.A., 2015. Does long-term passive stretching alter muscle-tendon unit mechanics in children with spastic cerebral palsy? *Clin. Biomech.* 30, 1071–1076. <https://doi.org/10.1016/j.clinbiomech.2015.09.004>.
- Theis, N., Mohagheghi, A.A., Korff, T., 2016. Mechanical and material properties of the plantarflexor muscles and Achilles tendon in children with spastic cerebral palsy and typically developing children. *J. Biomech.* 49, 3004–3008. <https://doi.org/10.1016/j.jbiomech.2016.07.020>.
- Wiley, M.E., Damiano, D.L., 1998. Lower-Extremity strength profiles in spastic cerebral palsy. *Dev. Med. Child Neurol.* 40, 100–107.
- Willerslev-Olsen, M., Petersen, T.H., Farmer, S.F., Nielsen, J.B., 2015. Gait training facilitates central drive to ankle dorsiflexors in children with cerebral palsy. *Brain* 138, 589–603. <https://doi.org/10.1093/brain/awu399>.
- Winters, T., Gage, J., Hicks, R., 1987. Gait patterns in spastic hemiplegia in children and young adults 69, 6.
- Wren, T.A., Cheatwood, A.P., Rethlefsen, S.A., Hara, R., Perez, F.J., Kay, R.M., 2010. Achilles tendon length and medial gastrocnemius architecture in children with cerebral palsy and equinus gait. *J. Pediatr. Orthop.* 30, 479–484.
- Clément Boulard** is a PhD student and physiotherapist in the Pediatric Physical Medicine and Rehabilitation Department of Saint-Etienne, France. His thesis focuses on mechanical properties of spastic plantarflexors muscles in children with CP, with special interest to the methodological approaches of measurement and the impact of treatment strategies.
- Vincent Gautheron** is currently an associate professor, hospital practitioner, and is in charge of the Pediatric Physical Medicine and Rehabilitation Department of Saint-Etienne, France. He has been working for 30 years with several French academic society on research in pediatric disability.
- Thomas Lapole** is currently an associate professor in the department of sport sciences at the University of Saint-Etienne (UJM)-France. His researches are focused about the effects of repeated tendon vibration on neuromechanical properties of muscles and the changes in these parameters according to age, training, disuse or disease.