

Kommentar till SBU-rapporten "Skakvåld – en systematisk litteraturöversikt"

SBU-rapporten "Skakvåld – en systematisk litteraturöversikt" behandlar ett mycket komplext fält både kliniskt och vetenskapligt. Rapporten och SBU:s metodologi i arbetet med bedömning av den vetenskapliga litteraturen i ämnet lider dock av allvarliga brister som begränsar rapportens användbarhet och öppnar för felaktiga tolkningar av de slutsatser och uttalanden som rapporten innehåller. Följande kommentarer lämnade jag som expertgranskare av rapporten under våren 2016.

Uppsala den 3 maj, 2016

Kommentarer till SBU rapporten Skakvåld – en systematisk litteraturöversikt

Rapporten utgör inte en representativ systematisk genomgång av litteraturen kring skakvåld och är behäftad med ett flertal allvarliga brister. I dess nuvarande form behöver innehållet genomgå en omfattande omarbetning för att uppnå ordinarie SBU kvalitet. SBU har i denna utredning frångått flera av sina centrala arbetsätt.

Systematiska litteraturöversikter bör genomföras av experter inom ett vetenskapligt område. SBU har valt att frångå denna princip i den aktuella utredningen och har istället samlat en arbetsgrupp som inte har vetenskaplig eller klinisk expertis inom området barnmisshandel och mer specifikt om tillfogade skallskador. Detta avsteg kan naturligtvis ha påverkat utredningsprocessen, framtagning av frågeställningar och avgränsningar, tolkning och värdering av referenserna samt slutsatser.

Avgränsning till skakvåld och särskilt till "triaden" tar ämnet helt ur sin kliniska kontext.

- Skakvåld/Abusive head trauma (AHT) är inte en diagnos som ställs eller utesluts utifrån förekomsten av de tre faktorerna retinala blödningar (RH), subdurala hematom (SDH) och ecefalopati, även om dessa är vanliga inslag i skadebilden som ses. Utredningen vid misstänkt skakvåld/AHT innefattar en multifaktoriell differentialdiagnostik baserad på anamnes, somatisk undersökning, radiologiska och laboratoriemässiga undersökningar.*
- "Triaden" som koncept är en konstruktion som skapats av och används endast av individer som som framhäver andra hypoteser än tillfogat våld för att förklara skadorna som ses vid skadvåld/AHT. "Triaden" används inte som en klinisk entitet inom pediatriken eller radiologin.*
- Barn utsatta för skakvåld/AHT har i många fall även andra skador och symtom, såsom revbensfrakturer, frakturer på de långa rörbenen, blåmärken och skador på hjärnvävnaden, förutom eventuell förekomst av RH, SDH och encefalopati.*
- Det går i många fall inte att skilja skadorna som har orsakats av skakande, dunkande mot ett underlag eller en kombination av dessa. Därför har American Academy of Pediatrics, liksom ett flertal andra nationella pediatrika föreningar och myndigheter, frångått beteckningen "skakvåld" och i stället övergått till termer som anger att barnet uppvisar skallskador till följd av tillfogat våld.*

Metodiken för inklusion av artiklarna är inkonsekvent. En uttalad dubbelstandard används med en tiopotens skillnad i stringens för att granska litteraturen om skakvåld jämfört med alternativa tillstånd och hypoteser. Detta introducerar en uppenbar bias och är inte acceptabelt i en vetenskaplig sammanställning. Samma krav ska ställas för underfrågeställningarna som för huvudfrågeställningen.

Beslut togs att inkludera även artiklar om skakvåld som ansågs vara av "låg" kvalitet. Dessa redovisas dock endast i ett appendix med en klassificering som "Risk of circularity", "Lack of confessed cases" etc. Detta är ett avsteg från ordinarie praxis vid systematiska litteraturgenomgångar. När studierna inkluderas ska de beskrivas med samma detaljredovisning som för studier med medelhög kvalitet, och kommenteras avseende vad som utgör eventuella svagheter i studiedesign, analys eller slutsatser.

Utifrån ovan angiven kritik bör avsnittet om alternativa förklaringar inte finnas med i denna rapport, eftersom många av referenserna som där anges håller mycket låg vetenskaplig kvalitet. Det är även av vikt att understryka att ett flertal av referenserna feltolkas eller felciteras i detta avsnitt. Allvarliga brister föreligger således i arbetsgruppens källkritik. Jag ger här några exempel då en detaljerad genomgång av alla felande punkter ligger utanför ramen för denna granskning:

- Referens 20, Geddes et al. Denna referens används som stöd för påståendet "Även syrebrist i hjärnan utan klarlagd bakomliggande orsak med eller utan hjärtlungräddning kan ge symtom/fynd av triaden." Studien presenterar en oprövad hypotes om att hypoxi har givit upphov till alla fynden vid "triaden". Författarna drar denna slutsats trots att studien inte analyserat förekomsten av RH i patientmaterialet. Huvudförfattaren har senare i den brittiska rätten förklarat "It is not fact; it is hypothesis... I would be very unhappy to think that cases were being thrown out on the basis that my theory was fact".
- Referens 73, Fledelius. Denna referens används som stöd för påståendet "Vid avvikelser i mognadsgrad vid födelsen [73], medfödda missbildningar [14,74] och prenatalt trauma har hela eller delar av triaden observerats." Studiens slutsatser var dock att "Our collection of case reports illustrates that the typical features of SBS and prematurity-related bleeding are quite different... it must be stressed that the primary aim of the present study was to draw attention to the clinical observation of prematurity as a possible mono- or cofactor when confronted with infants up to 6 months of age with retinal bleeding, where otherwise child abuse should be the first diagnostic option."
- Referens 82, Paterson et al. Referensen används som stöd för påståendet "Sjukdomar med rubbningar i skelettbildning och förekomst av frakturer som osteogenesis imperfecta har i ett par fall beskrivits har en samvariation med subduralblödning och ögonbottenblödning." Artikelns beskriver ett hypotetiskt tillstånd, "Temporary brittle bone disease", som har avfärdats av bland andra Society for Pediatric Radiology och European Society for Paediatric Radiology som bedömt att "there is no basis for hypothesizing bone or collagen pathology as an etiology for the fractures seen in Paterson's patients" (Pediatr Radiol (2005) 35: 1036–1040). Artikelns huvudförfattare avlegitimerades i Storbritannien på grund av att han som vittne framhåvt denna hypotes som förklaring till skadorna i fall av misstänkt skakvåld/AHT (Dyer O. GMC strikes off proponent of temporary brittle bone disease. BMJ: British Medical Journal. 2004 Mar 13;328(7440):604).

Litteraturöversikten innehåller ett relativt stort avsnitt om etik kring skakvåld. Om detta överhuvudtaget ska ingå så måste samma stringens appliceras som för övriga frågeställningar i genomgången. Om inte, har den ingen plats i rapporten. Några påståenden i den befintliga texten om etik baseras på den begränsade analys av skakvåld som jag kritiserat ovan. Följden blir långtgående och potentiellt felaktiga slutsatser, till exempel "Att kunskapsläget såsom påvisats i denna rapport måste anses

osäkert kan leda till att färre misstänkta förövare döms till ansvar för isolerat skakvåld". Avsnittet innehåller många påståenden som inte stöds av referenser. Meningen "Att omhändertata ett barn kan också vara associerat till allvarliga risker för barnet" antyder ett orsak-verkansamband och är olämplig.

Rapportens författare avfärdar alla inkluderade artiklar om skakvåld/AHT förutom två genom att påstå att de bygger på cirkelbevis. Även sex systematiska litteraturöversikter och en omfattande "pooled analysis" av data från flera stora studier har uteslutits med samma resonemang. Detta vittnar antingen om att det saknas en förståelse om hur dessa studier är konstruerade eller att projektgruppen inte har läst artiklarna i detalj. Utredningar vid misstänkt skakvåld/AHT innefattar långt mer information än "triaden", bland annat anamnestiska uppgifter och vittnesuppgifter, utredningsresultat inklusive extensiva differentialdiagnostiska undersökningar, som ligger till grund för en slutsats om att skadorna uppkommit genom tillfogad våld. Studierna söker vanligtvis inte att svara på frågan om huruvida förekomsten av RH, SDH och encefalopati är fullständigt specifik för skakvåld, utan snarare att nyansera bilden av vilka symtom och fynd som är starkt förknippade med tillfogad skallskada och vilka som är mer förknippade med accidentell skada, för att t.ex. ge bättre verktyg för att utesluta skakvåld/AHT i kliniken. Att majoriteten av artiklarna avfärdats utifrån ett förenklat resonemang om cirkelbevis introducerar en tydlig bias i rapporten.

Diskussionsavsnittet lider av de tillkortakommanden som jag har kommenterat ovan. Slutsatsen "Det finns begränsat vetenskapligt underlag för att triaden eller dess delkomponenter kan förekomma vid skakvåld och andra tillstånd och händelser" har inte prövats i den föreliggande analysen och ska tas bort. I slutsatserna bör det tydligt framgå att projektet har avgränsat sin analys till fall av enbart skakvåld där enbart triaden finns beskriven, samt att denna avgränsning gör att rapportens slutsatser inte kan appliceras för kliniska situationer som kan innefatta andra skademekanismer och andra konstellationer av symtom och fynd.

I avsnittet om överväganden för forskning, policy och praktik (s. 20) används en åsiktsartikel från en juridisk tidskrift som referens (97) för påståendet att "Det kan inte uteslutas att en reblödning i vissa fall kan ge symtom". Samma författare citeras även i inledningen. Denna typ av referens har ingen plats i en medicinsk systematisk litteraturöversikt förutom att eventuellt understryka att det finns en dimension av kontrovers inom den rättsliga arenan.

Sammantaget är bristerna av sådant allvarligt slag att jag inte kan rekommendera att rapporten ges ut förrän den har genomgått en omfattande revision utifrån punkterna ovan. Om SBU eventuellt väljer att gå vidare med utredningen måste en omarbetad rapport översättas till engelska och underkastas granskning av internationella experter med stor klinisk och vetenskaplig erfarenhet av området.

I allt väsentligt kvarstår denna kritik mot slutversionen av rapporten. De metodologiska bristerna har inte åtgärdats trots påpekanden, och projektgruppen skriver alltså att de funnit alternativa tillstånd och händelser som kan orsaka de symtom och fynd som ingår i "triaden", trots att SBU inte har kvalitetsgranskat de artiklar som citeras till stöd för påståendet.

Steven Lucas, överläkare, docent

Akademiska barnsjukhuset
Uppsala