

»Triaden« räcker inte för att diagnostisera skakvåld

MYCKET SVAGT VETENSKAPLIGT UNDERLAG – FELAKTIGA BEDÖMNINGAR MED UNDER- OCH ÖVERDIAGNOSTIK KAN FÅ ÖDESDIGRA KONSEKVENSER

Skakvåld betecknar en typ av barnmisshandel där någon skakar ett spädbarn så att dess huvud kastas fram och tillbaka med sådan kraft att skada uppstår. Många som är involverade i utredning av misstänkt skakvåld har utgått från att påvisande av subduralhematom, retinala blödningar och tecken på hjärnpåverkan – den sk triaden – med hög grad av säkerhet fastställer att spädbarnet har skakats våldsamt.

Den diagnostiska träffsäkerheten av att använda »triaden« som indikation på att barnet skakats har dock ifrågasatts, vilket föranledde SBU (Statens beredning för medicinsk och social utvärdering) att våren 2014 initiera en granskning av den vetenskapliga litteraturen på området.

Triaden som diagnostiskt test

Att säkert fastställa att ett spädbarn har skakats våldsamt är problematiskt eftersom vittnen och erkännanden oftast saknas och avgörandet i sådana fall kan vila endast på medicinska fynd. Om det råder osäkerhet om huruvida barnet har skakats eller inte kan det leda till att barnet fortsätter att fara illa och inte omhändertaras när det borde få skydd och att en förövare går fri. Men ett osäkert kunskapsläge kan också innebära att ett barn omhändertaras



Niels Lynøe, senior professor, institutionen för lärande, informatik, management och etik (LIME), Karolinska institutet, Stockholm
● niels.lynoe@ki.se



Anders Eriksson, professor, överläkare, Umeå universitet; rättsmedicinska avdelningen, Rättsmedicinalverket, Umeå

på felaktiga grunder, att en familj splittras och att en oskyldig döms.

För att minimera risken för både under- och överdiagnostik av skakvåldsfall måste därför det vetenskapliga underlaget vara så tillförlitligt som möjligt. En felaktig bedömning kan få konsekvenser – utöver dem som drabbar familjen – då forskare använder de diagnostiska bedömningarna till klassificering i fall-kontrollstudier.

Benämningen skakvåld är den förmodade mekanismen för hur triaden uppkommit och inte en »diagnos«. Det kan därför förefalla ologiskt att analysera före-

komst av triaden som ett diagnostiskt test av om skakvåld har utövats eller inte. Men detta är vad som genomförts i en rad studier inom området och också den utgångspunkt som SBU-rapporten använde sig av i analysen av den diagnostiska träffsäkerheten hos triaden.

Otillräcklig vetenskaplig evidens

SBU presenterade i oktober 2016, efter två och ett halvt års arbete, en rapport där man konkluderade att det finns otillräcklig vetenskaplig evidens för att med hjälp av enbart triaden fastslå att ett spädbarn har skakats [1, 2].

Både före och efter publiceringen av SBU-rapporten kom en rad kritiska artiklar som kommenterade dess innehåll och slutsatser [3-11]. Det finns sannolikt flera orsaker till kritiken. En förklaring kan vara att de läkare som utreder misstänkt skakvåld varit övertygade om att det befintliga vetenskapliga underlaget var både tillförlitligt och robust [11]. När rapporten presenterades kom det därför som en överraskning för många att merparten av den granskade vetenskapliga litteraturen hade hög risk för bias och därmed mycket låg grad av vetenskaplig evidens. Endast två studier med medelhög risk för bias identifierades, men också dessa studier hade en rad metodologiska svagheter.

Några av de frågor och den kritik som

framkom i kommentarerna till SBU-rapporten förtjänar att lyftas fram, liksom de svar som gavs [12-20].

Barnoftalmologer reagerade på rapporten

Barnoftalmologer ansåg att SBU-rapporten negligerat deras erfarenhet av att identifiera ögonbottenblödningar typiska för skakvåld [5, 6]. Problemet är dock att ögonundersökning som genomförts mot bakgrund av en för undersökaren känd frågeställning avseende misstänkt skakvåld och med uppgift om resultat av föregående radiologisk undersökning av barnets hjärna kan påverka bedömningen.

I en studie där ögonläkare utan vetskap om frågeställning eller bakgrund granskade bilder tagna på retinala blödningar var överensstämelsen mellan olika of-

»SBU presenterade ... en rapport där man konkluderade att det finns otillräcklig vetenskaplig evidens för att med hjälp av enbart triaden fastslå att ett spädbarn har skakats ...«

talmologers bedömningar av underliggande orsak (misstänkt skakvåld, olycksfall eller sjukdom) endast marginellt bättre än slumpen [17].

Mot denna bakgrund är det inte korrekt att hävda att man utifrån en oftalmologisk undersökning kan dra slutsatsen att en viss typ av retinala blödningar skulle vara specifik för skakvåld.

Barnläkare kritiserade rapporten

Barnläkare kritiserade att rapporten hade fokuserat på triaden enbart och inte tog hänsyn till att triaden också kan förekomma tillsammans med andra tecken på våld [3-4, 9].

Men både kliniska riktlinjer och gransk-

HUVUDBUDSKAP

- Cirkelargument bidrar till osäkerhet i diagnostik av skakvåld hos spädbarn.
- Det vetenskapliga underlaget för den sk triadens (subduralhematom, retinala blödningar och neurologisk påverkan) diagnostiska träffsäkerhet vid bedömning av skakvåld är mycket svagt.
- Låg diagnostisk träffsäkerhet medför risk för under- och överdiagnostik.
- Framtida forskning om skakvåld bör minimera risken för cirkelargument.

ningen av den vetenskapliga litteraturen indikerar att triaden de facto spelat - och fortfarande spelar - en central roll vid bedömningen av förekomsten av skakvåld.

I Sverige utlöser påvisande av triaden, med eller utan tecken på yttre trauma, larm till socialtjänst. Om »acceptabel« förklaring till fynden saknas, dras slutsatsen att spädbarnet har skakats våldsamt.

Barnskyddsteamens bedömningar

Barnskyddsteamens bedömningar har legat till grund för klassifikationen av studiefall och kontroller i merparten av den granskade vetenskapliga litteraturen [13-16]. En återkommande kritisk kommentar till SBU-rapporten var att man hade nedgraderat studier där barnskyddsteams bedömningar legat till grund för klassifikation av studiefall och kontroller [3-5, 9].

Problemet är dock att barnskyddsteams bedömning utgår från grundantagandet att om triaden påvisats och »acceptabla« förklaringar till triaden saknas måste barnet ha skakats våldsamt. Om man i SBU-rapporten skulle ha utgått från att detta grundantagande var sant, skulle det ha inneburit att man på förhand accepterat att det som skulle undersökas redan var fastställt som sant. Det som skulle undersökas var ju med vilken säkerhet man kan hävda skakvåld som orsak då triaden påvisats.

Om barnskyddsteamens grundantagande hade godtagits, skulle slutsatserna i SBU-rapporten således baseras på cirkelargumentation. Cirkelargument uppkommer om ett diagnostiskt test baseras på kriterier som är sammanvävda med det valda referensvärdet eller referensmetoden (etablerad standard) [18]. Problematiken tydliggörs när man fokuserar på konsekvenserna av att använda cirkelargument.

Barnskyddsteamens och bryggvensteorin

I samband med barnskyddsteamens utredningar av misstänkt skakvåld försöker man först att undersöka om triaden helt eller delvis kan vara orsakad av annat än skakvåld, såsom koagulationsrubbing, kärldmissbildning, leukemi, infektion etc. Men om sådana differentialdiagnostiska förklaringar kan uteslutas baseras barnskyddsteams nästa steg på det nämnda grundantagandet: om triaden påvisats och föräldrarna inte kan ge en »acceptabel« förklaring till triadens uppkomst måste barnet ha skakats våldsamt. Med »acceptabel« förklaring avser barnskyddsteamens förutom vissa sjukdomar även fall från hög höjd eller (bevitnad) olyckshändelse.

Barnskyddsteamens kriterier är baserade på en specifik teori om mekanismen

för triadens uppkomst. Teorin förutsätter att endast högenergivåld kan orsaka triaden genom att bryggveners slits av. Det finns emellertid andra teorier, t ex att triaden orsakas av kapillärblödningar. Huvudpoängen är att man beroende av teoretiska preferenser kommer fram till olika förklaringar som kan anses »acceptabla« eller inte; för närvarande accepteras endast bryggvensteorin av barnskyddsteamens.

Oredlighet i forskning

Barnskyddsteamens val av teori har också lett till att man utvecklat kriterier för när en förälder bedöms trovärdig eller inte [19]. Om föräldern hävdar att barnets symptom uppstått spontant bedöms föräldern inte trovärdig. Om föräldern uppger sig i återupplivningssyfte ha skakat barnet sedan det blivit medvetslöst, bedöms föräldern inte trovärdig. Detta trots att kapillärteorin möjliggör förklaringen att triaden i vissa fall skulle kunna vara ett resultat av en kronisk subduralblödning, vilken i sin tur kan vara en sen komplikation till en okomplicerad vaginal förlossning [1, 2].

Alla sådana fall bedöms som skakvåld och klassificeras sedan av forskare i vetenskapliga studier som sant positiva fall av skakvåld. Ett sådant förfarande innebär en risk för att falskt positiva fall maskeras som sant positiva.

Detta får i sin tur konsekvenser för det diagnostiska testets förmåga att predicera skakvåld när barnet faktiskt har skakats. Man talar om det positivt prediktiva värdet (PPV), som beräknas som antalet sant positiva/(sant positiva + falskt positiva). Om antalet falskt positiva går mot noll går PPV, allt annat lika, mot 1 (eller 100 procent).

Användandet av barnskyddsteamens bedömningskriterier som referensmetod vid klassifikationen av studiefall och kontroller innebär alltså att det diagnostiska testet framstår som mer träffsäkert än det faktiskt är.

Tillvägagångssättet medför också en överskattning av antalet skakvåldsfall [21] och därmed oredlighet i forskning [19].

Annan referensmetod i framtida forskning

För att undvika cirkelargumentation föreslås i SBU-rapporten att framtida forskning måste använda en referensmetod som är oberoende av barnskyddsteams bedömningar och kriterier. Förutom bevittnade och videodokumenterade fall kan man som referensmetod även använda fall där någon erkänt att ha skakat barnet.

Dock krävs detaljerade upplysningar om hur skakningen gått till och under vilka omständigheter erkännandet tillkommit [1, 2]. Det sistnämnda är nödvändigt för att minska risken för falska erkännan-

den, något som tyvärr också förekommer och har använts i vetenskapliga studier som grund för klassifikationen av sant positiva fall [19].

Med tanke på de många fallgroparna är det inte lätt att bedriva forskning om skakvåld. Man får exempelvis inte låsa sig vid en bestämd teori om vilka förklaringar som är »acceptabla« eller inte. Så länge teorier om triadens orsaker är motstridiga bör man utgå från att mekanismen är okänd och betrakta den som ett outforskat område [20]. På detta sätt minskar risken för teoriimpregnerad tolkning av resultat. Detta är särskilt viktigt om det samtidigt finns risk att valet av teori bygger på värderingar [22].

Utöver att utveckla tillförlitlig diagnostisk träffsäkerhet bör forskningen också sträva efter att fylla kunskapsluckor rörande såväl prenatala faktorer som utveckling av förlossningsrelaterade subduralhematom och möjligheten att sådana utvecklas till kroniska subduralhematom med risk för reblödning.

Huruvida tidig hemgång efter förlossning gör att kvalificerad personal inte observerar barnets tillstånd under den första veckan och därmed missar subtila symtom på subduralhematom bör också studeras. Eventuella samband mellan subduralblödningar och risk för förhöjt intrakraniellt tryck samt dessa företeasers betydelse för utveckling av retinala blödningar och olika symtom bör också undersökas.

Sammanfattningsvis finns det alltså mycket kvar att beforska. ○

● Potentiella bindningar eller jävsförhållanden: Inga uppgivna.

Citera som: *Läkartidningen*. 2018;115:EY9F

REFERENSER

1. Skakvåld. Triadens roll vid medicinsk utredning av misstänkt skakvåld. En systematisk översikt. Stockholm: Statens beredning för medicinsk och social utvärdering; 2016. SBU-rapport 255.
2. Lynøe N, Elinder G, Hallberg B, et al. Insufficient evidence for »shaken baby syndrome« - a systematic review. *Acta Paediatr.* 2017;106(7):1021-7.
3. Lucas S, Bårtås A, Edstedt Bonamy AK, et al. The way forward in addressing head trauma in infants - current perspectives from Sweden. *Acta Paediatr.* 2017;106(7):1033-5.
4. Narang SK, Greeley CS, Lynøe et al. - #theRestoftheStory. *Acta Paediatr.* 2017;106(7):1047-9.
5. Levin AV. The SBU report: a different view. *Acta Paediatr.* 2017;106(7):1037-9.
6. Hellgren K, Hellström A, Hård AL, et al. The new Swedish report on shaken baby syndrome is misleading. *Acta Paediatr.* 2017;106(7):1040.
7. Bilò RA, Banaschak S, Hermann B, et al. Using the table in the Swedish review on shaken baby syndrome will not help courts deliver justice. *Acta Paediatr.* 2017;106(7):1043-5.
8. Ludvigsson J. Extensive shaken baby syndrome review provides a clear signal that more research is needed. *Acta Paediatr.* 2017;106(7):1028-30.
9. Saunders D, Raissaki M, Servaes S, et al; Written on behalf of the European Society of Pediatric Radiology Child Abuse Task Force and the Society for Pediatric Radiology Child Abuse Committee. Throwing the baby out with the bath water - response to the Swedish Agency for Health Technology Assessment and Assessment of Social Services (SBU) report on traumatic shaking. *Pediatr Radiol.* 2017;47(11):1386-9.
10. Offiah AC, Servaes S, Adamsbaum CS, et al. Initial response of the European Society of Paediatric Radiology and Society for Pediatric Radiology to the Swedish Agency for Health Technology Assessment and Assessment of Social Services' document on the triad of shaken baby syndrome. *Pediatr Radiol.* 2017;47:369-71.
11. Ludvigsson J. Förekkomsten av »skakvåld« är vetenskapligt fastslagen. *Läkartidningen.* 2015;112:DE6U.
12. Axelsson ES, Liliemark JO, Traaneus SH. Reply to Offiah, et al: The triad of shaken baby syndrome. *Pediatr Radiol.* 2017;47(8):1022.
13. Lynøe N, Elinder G, Hallberg B, et al. Authors' overarching reply to all the responses received to the systematic literature review on shaken baby syndrome. *Acta Paediatr.* 2017;106(7):1031.
14. Lynøe N, Elinder G, Hallberg B, et al. Conflict of interest issues. Response to Lucas et al. *Acta Paediatr.* 2017;106(7):1036.
15. Lynøe N, Elinder G, Hallberg B, et al. The shaken baby syndrome report was not the result of a conspiracy. Response to Dr Narang et al. *Acta Paediatr.* 2017;106(7):1050-1.
16. Lynøe N, Elinder G, Hallberg B, et al. What are acceptable conclusions? Response to Dr Ludvigsson. *Acta Paediatr.* 2017;106(7):1032.
17. Lynøe N, Elinder G, Hallberg B, et al. The scientific evidence regarding retinal haemorrhages. Response to Hellgren et al and Levin. *Acta Paediatr.* 2017;106(7):1041-2.
18. Internetmedicin; Ludvigsson J, Ekblom A. Medicinsk statistik - diagnostiska tester. <http://www.internetmedicin.se/page.aspx?id=3282>
19. Lynøe N, Elinder G, Hallberg B, et al. Is accepting circular reasoning in shaken baby studies bad science or misconduct? *Acta Paediatr.* 2017;106(9):1445-6.
20. Riggs JE, Hobbs GR. Infant homicide and accidental death in the United States, 1940-2005: ethics and epidemiological classification. *J Med Ethics.* 2011;37(7):445-8.
21. Lynøe N, Elinder G, Hallberg B, et al. Pouring out the dirty bathwater without throwing away either the baby or its parents. Commentary to Saunders et al. *Pediatr Radiol.* 2018;48(2):284-6.
22. Lynøe N, Björk J, Juth N. Is healthcare providers' value-neutrality depending on how controversial a medical intervention is? Analysis of ten more or less controversial interventions. *Clin Ethics.* 2017;12(3):117-23.