



HAL
open science

Développement méthodologique pour l'analyse des troubles de la commande du membre supérieur des enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique : implications pour les thérapies et traitements associés

Aurélie Sarcher

► **To cite this version:**

Aurélie Sarcher. Développement méthodologique pour l'analyse des troubles de la commande du membre supérieur des enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique : implications pour les thérapies et traitements associés. Médecine humaine et pathologie. Université de Bretagne occidentale - Brest, 2018. Français. NNT : 2018BRES0078 . tel-02131492

HAL Id: tel-02131492

<https://theses.hal.science/tel-02131492>

Submitted on 16 May 2019

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.

THESE DE DOCTORAT DE

L'UNIVERSITE
DE BRETAGNE OCCIDENTALE
COMUE UNIVERSITE BRETAGNE LOIRE

ECOLE DOCTORALE N° 605

Biologie Santé

Spécialité : *Analyse et Traitement de l'Information et des Images Médicales*

Par

Aurélie SARCHER

Développement méthodologique pour l'analyse des troubles de la commande du membre supérieur des enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique

Implications pour les thérapies et traitements associés

Thèse présentée et soutenue à Brest, le 5 décembre 2018

Unité de recherche : LaTIM INSERM UMR 1101

Rapporteurs avant soutenance :

Stéphane ARMAND Ingénieur de recherche, Hôpitaux Universitaires de Genève, Suisse
Florent MOISSENET Ingénieur de recherche, Rehazenter, Luxembourg

Composition du Jury :

Président :	Olivier REMY-NERIS	PUPH, Vice Doyen, Université de Bretagne Occidentale, Brest
Examineurs :	Brigitte PERROUIN-VERBE	PUPH, Chef de PHU, CHU de Nantes, Nantes
	Franck FITOUSSI	PUPH, CHU Paris-Est Hôpital Armand Trousseau, Paris
	Antoine NORDEZ	Maître de Conférences Universitaire, Université de Nantes, Nantes
Dir. de thèse :	Sylvain BROCHARD	PUPH, Université de Bretagne Occidentale, Brest
Co-dir. de thèse :	Maxime RAISON	Professeur, Ecole Polytechnique de Montréal, Canada

Invité(s)

Raphaël GROSS Maître de Conférences Universitaire-Praticien Hospitalier, CHU de Nantes, Nantes
Fabien LEOEUF Ingénieur de recherche, CHU de Nantes, Nantes

REMERCIEMENTS

Ce travail est le fruit de nombreuses collaborations internationales, quel challenge de n'oublier personne dans ces quelques lignes.

Pour commencer, je ne saurais comment exprimer ma reconnaissance à la personne qui m'a fait découvrir le milieu du handicap moteur de l'enfant et de l'analyse du mouvement, **Maxime Raison**. Cette thèse est l'aboutissement d'un travail débuté il y a 7 ans, mais ne fait qu'amorcer une réelle vocation professionnelle.

Merci à toute l'équipe québécoise qui m'a accompagnée pendant 3 fabuleuses années : **Laurent Ballaz, Martin Lemay, Audrey Parent, Annie Pouliot**, sans oublier **Maria Laitenberger**. Des échanges personnels et professionnels inoubliables, et qui subsistent annuellement grâce au congrès de l'ESMAC !

Le second volet de cette histoire n'aurait pas eu lieu sans **Fabien Leboeuf**, qui m'a sauvée d'une courte carrière technico-commerciale et remise dans le droit chemin de la recherche, en me proposant de postuler au poste remplaçant d'ingénieur de recherche du Laboratoire d'Analyse du Mouvement du CHU de Nantes pendant ses 4 années de mobilité.

Merci donc à **Madame le Professeur Brigitte Perrouin-Verbe**, chef du service de Médecine Physique et de Réadaptation du CHU de Nantes, et **Pr Raphaël Gross**, responsable du laboratoire d'analyse du mouvement du pôle MPR, qui m'ont alors fait confiance pour reprendre le poste d'ingénieur du laboratoire et développer les activités de recherche autour du membre supérieur : merci notamment, d'avoir permis que je m'inscrive en thèse afin de continuer le travail débuté à Montréal en 2012, et de m'avoir ouverte aux problématiques cliniques du handicap moteur chez l'adulte. Merci Raphaël de m'avoir tant appris, et de m'avoir encadrée tout au long de cette thèse. Je n'oublie pas la troisième du trio du LAM, **Lorette Vinet**, qui m'étonnera toujours par ses capacités humaines (et professionnelles !).

Quel honneur d'avoir été encadrée par **Pr Sylvain Brochard**, LE Professeur de MPR pédiatrique français, qui s'est lancé dans mon encadrement de thèse à distance et sans m'avoir rencontrée. Je serai toujours bluffée par sa capacité à résoudre un problème clinique/technique/scientifique/politique aussi rapidement qu'efficacement, tout en restant humble et ouvert. Ces années de thèse ont été un réel plaisir, grâce à toi et Raphaël, merci à vous deux.

Merci à **Dr Guy Letellier** et les ergothérapeutes **Nolwenn et Eileen** de l'ESEAN-APF qui nous ont aidés au recrutement des enfants et ont participé pleinement aux projets. Merci **François Hug, Morgan Sangeux**, pour les échanges passionnants et votre aide dans les publications.

Merci à tous les enfants qui ont participé à cette étude, soit 63 enfants et leurs familles qui se sont déplacés au laboratoire, parfois plusieurs fois, et qui ont vaillamment survécu à l'épilation gratuite lors du retrait des 39 (!) électrodes et marqueurs.

Merci à mon Jérôme, d'avoir servi de cobaye tout à fait volontaire et non forcé (...); d'avoir servi de punching-ball émotionnel tout au long de cette aventure; et en général pour le fantastique quotidien Rezéen que nous avons. Merci à mes deux (autres) poilus de me rappeler quotidiennement (et bruyamment) que les sorties au parc ne dépendent pas des diverses deadlines.

"A child playing air-drums plays no wrong notes."

— adapted from **Victor L. Wooten, The Music Lesson: A Spiritual Search for Growth Through Music**

TABLE DES MATIERES

Remerciements	2
Figures.....	6
Tables.....	8
0. Préambule : historique et contexte de la thèse	9
1. L'analyse des troubles de la commande du membre supérieur de l'enfant paralysé cérébral unilatéral spastique.....	10
1.1. La paralysie cérébrale spastique.....	10
1.1.1. Aspects généraux.....	10
1.1.2. L'atteinte motrice	10
1.2. Rappels d'anatomie fonctionnelle du membre supérieur	17
1.2.1. Anatomie du membre supérieur.....	17
1.2.2. Mobilité du membre supérieur.....	18
1.2.3. Muscles du membre supérieur.....	21
1.3. La mesure de l'activation/co-activation musculaire par électromyographie de surface au membre supérieur du patient paralysé cérébral unilatéral spastique	24
1.3.1. Aspects généraux de la mesure de l'activation musculaire mesurée par électromyographie de surface.....	24
1.3.2. Revue de littérature	25
1.3.3. Analyse de la littérature et manquements méthodologiques	34
2. Synthèse de l'introduction	36
3. Matériels et méthodes communs aux différentes études.....	38
3.1. Expérimentation.....	38
3.1.1. Participants.....	38
3.1.2. Dispositif expérimental	39
3.1.3. Protocole expérimental	43
3.2. Traitement des données.....	47
3.2.1. Calcul des angles articulaires	47
3.2.2. Traitement du signal EMG	48
3.2.3. Interprétation du signal EMG	55

4. Objectif 1 : Caractérisation des anomalies de commande musculaire au membre supérieur chez un groupe d'enfants PC	60
4.1. Article 1. Impact of muscle activation on ranges of motion during active elbow movement in children with spastic hemiplegic cerebral palsy.....	61
4.1.1. Résumé de l'article.....	61
4.1.2. Discussion	71
4.2. Article 2. Pathological and physiological muscle co-activation during active elbow extension in children with unilateral cerebral palsy	72
4.2.1. Résumé de l'article.....	72
4.2.2. Discussion	83
4.3. Discussion générale de l'objectif 1.....	84
5. Objectif 2.1 : Reproductibilité de la mesure de l'activation musculaire du membre supérieur chez l'enfant PC et l'enfant à développement typique	85
5.1. Article 3. Patterns of upper limb muscle activation in children with unilateral spastic cerebral palsy: variability and detection of deviations	86
5.1.1. Résumé de l'article.....	86
5.1.2. Discussion	97
6. Objectif 2.2 : Détectabilité de la mesure de l'activation musculaire du membre supérieur chez l'enfant PC et l'enfant à développement typique	98
6.1. Article 4. Detection of overactivity in the pronator muscles during active supination in children with unilateral spastic cerebral palsy	99
6.1.1. Résumé de l'article.....	99
6.1.2. Discussion	118
7. Objectif 2.3 : Sensibilité au changement de la mesure de l'activation musculaire du membre supérieur chez l'enfant PC et l'enfant à développement typique	120
8. Perspectives	121
8.1. Perspectives méthodologiques	121
8.1.1. Validité de concurrence : comparaison sEMG/iEMG.....	121
8.1.2. Etude des synergies musculaires	126
8.2. Perspectives cliniques	129
8.2.1. Détection des évolutions de commande du membre supérieur après la thérapie motrice induite par la contrainte chez l'enfant paralysé cérébral.....	129
8.2.2. Détection des évolutions de commande du membre supérieur après injections de toxine botulique chez l'enfant paralysé cérébral.....	138

9. Conclusion générale	140
Références	142
Annexes	154
Synergies musculaires chez le tétraplégique – Lettre à l'éditeur	154
Activités parallèles en tant qu'ingénieur de recherche du laboratoire d'analyse du mouvement ...	159
Activités de recherche	159
Activités cliniques	159
Activités d'enseignement.....	160
Communications	161
Abréviations	166

FIGURES

Figure 1. Os du membre supérieur (Wikipédia, libre de droits).....	17
Figure 2. Mouvement d'abduction/adduction du bras [27]	18
Figure 3. Mouvement de flexion/extension du bras [27]	19
Figure 4. Mouvement de rotation médiale/latérale du bras [27].....	19
Figure 5. Mouvements de l'avant-bras. A. Flexion/extension. B. Pronation/supination [27]	20
Figure 6. Mouvement d'abduction/adduction de la main [27].....	20
Figure 7. Mouvement de flexion/extension de la main [27].....	21
Figure 8. Muscles du bras et de l'avant-bras, vue médiale [28].....	21
Figure 9. Muscles de l'avant-bras, vue latérale [28].....	21
Figure 10. Contraction des muscles pendant la pronation et la supination de l'avant-bras [27].....	23
Figure 11. Système de capture du mouvement. Gauche: Laboratoire d'analyse du mouvement. Milieu: Caméra infrarouge VICON (Oxford, UK). Droite: marqueurs passifs rétro réfléchissants.	39
Figure 12. Placement des 29 marqueurs sur des repères anatomiques du thorax, de l'épaule, du bras, de l'avant-bras et de la main [67].	40
Figure 13. Gauche : Palpation du biceps brachial [28] ; Droite : Position du pli du coude délimité par le biceps (1), le brachioradial (2), et le rond pronateur (3) [28].....	42
Figure 14. Enfant équipé d'électrodes d'électromyographie de surface placées sur (1) le biceps brachii, (2) le triceps brachii, (3) le brachioradialis, (4) le rond pronateur, (5) le carré pronateur, (6) le brachialis.....	43
Figure 15. Modèle cinématique du membre supérieur développé par [67].....	47
Figure 16. Cycles de pronosupinations du coude d'un enfant sain (vitesse 0.50Hz). Les traits pointillés représentent les instants de supination maximale. Haut : Angle de supination(+)/pronation(-) du coude (radians). Bas : Signal EMG brut du biceps brachii (supinateur).	48
Figure 17. Activation musculaire du biceps brachii (supinateur) pendant des cycles de pronosupinations du coude d'un enfant sain (vitesse 0.50Hz). Les traits pointillés représentent les instants de supination maximale. Rouge : Signal EMG brut. Bleu : Signal EMG rectifié.....	49
Figure 18. Activation musculaire du biceps brachii (supinateur) pendant des cycles de pronosupinations du coude d'un enfant sain (vitesse 0.50Hz). Les traits pointillés représentent les instants de supination maximale. Haut/Rouge : Signal EMG rectifié. Haut/Bleu et Bas: Signal EMG filtré (50Hz).	50
Figure 19. Activation musculaire du biceps brachii (supinateur) pendant des cycles de pronosupinations du coude d'un enfant sain (vitesse 0.50Hz). Les traits pointillés représentent les instants de supination maximale. Rouge : Signal EMG filtré (50Hz). Bleu : Signal EMG filtré diminué de la valeur du seuil d'activation.	51

Figure 20. Signal EMG du biceps brachii (supinateur) pendant 14 cycles choisis de pronosupinations du coude d'un enfant sain (vitesse 0.50Hz). 0% et 100% du cycle correspondent à une supination maximale.	52
Figure 21. Signal EMG normalisé par MVC du biceps brachii (rouge), du rond pronateur (bleu) et du carré pronateur (vert) pendant un cycle moyen de pronosupination du coude d'un enfant sain (vitesse 0.50Hz). 0% et 100% du cycle correspondent à une supination maximale. Pour cet enfant, on peut dire que l'activation maximale du biceps en supination correspond à 8% de sa MVC ; l'activation maximale du rond pronateur en pronation correspond à 14% de sa MVC ; l'activation maximale du carré pronateur en pronation correspond à 28% de sa MVC.....	53
Figure 22. Signal EMG normalisé par le pic maximal des essais de flexion/extension et de pronosupination (0.50Hz) du biceps brachii (rouge), du rond pronateur (bleu) et du carré pronateur (vert) pendant un cycle moyen de pronosupination du coude d'un enfant sain (vitesse 0.50Hz). 0% et 100% du cycle correspondent à une supination maximale. Pour cet enfant, on peut dire que l'activation maximale du biceps en supination correspond à 18% de son pic maximal; l'activation maximale du rond pronateur en pronation correspond à 30% de son pic maximal ; l'activation maximale du carré pronateur en pronation correspond à 32% de son pic maximal.	54
Figure 23. Signal EMG normalisé par le pic maximal moyen des essais de flexion/extension et de pronosupination (0.50Hz) du biceps brachii (rouge), du rond pronateur (bleu) et du carré pronateur (vert) pendant un cycle moyen de pronosupination du coude d'un enfant sain (vitesse 0.50Hz). 0% et 100% du cycle correspondent à une supination maximale. Pour cet enfant, on peut dire que l'activation maximale du biceps en supination correspond à 50% de son pic maximal moyen; l'activation maximale du rond pronateur en pronation correspond à 70% de son pic maximal moyen ; l'activation maximale du carré pronateur en pronation correspond à 100% de son pic maximal moyen.	55
Figure 24. Electrodes EMG intramusculaires avec l'aiguille de mise en place des fils.....	121
Figure 25. Repérage échographique du rond pronateur (entouré en rouge).....	122
Figure 26. Insertion des électrodes iEMG dans le rond pronateur. L'aiguille est visible par échographie (flèche rouge).....	122
Figure 27. Signaux iEMG (rouge) et sEMG (bleu) normalisés du rond pronateur pendant une pronation-supination du coude du participant A (gauche) et B (droite).....	123
Figure 28. Signaux iEMG (rouge) et sEMG (bleu) normalisés du rond pronateur pendant une extension-flexion du coude du participant A (gauche) et B (droite).	124
Figure 29. Analyse fréquentielle des signaux iEMG (rouge) et sEMG (bleu) filtrés du rond pronateur pendant une extension-flexion du coude du participant A (gauche) et B (droite).	124
Figure 30. Exemple d'extraction de synergies musculaires à partir de signaux EMG. BICE - Biceps ; BRAO - Brachioradialis ; BRAA - Brachialis ; TRIC - Triceps ; PDEL - Deltoïde postérieur ; ADEL - Deltoïde antérieur ; MDEL - Deltoïde moyen.	126
Figure 31. Enfant participant à la TMIC avec son orthèse d'immobilisation du membre controlatéral.	131
Figure 32. Evaluation de l'AHA chez une enfant avec une PCUS à l'ESEAN	133

TABLES

Tableau 1. Caractéristiques des différents symptômes rencontrés dans la paralysie cérébrale unilatérale spastique, leurs mesures et traitements [5]	12
Tableau 2. Revue de littérature sur les études mesurant l'activation/co-activation musculaire par électromyographie de surface de mouvements actifs du membre supérieur de l'enfant avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique. En rouge : articles non accessibles. DT- développement typique ; iEMG – électromyographie intramusculaire ; sEMG – électromyographie de surface ; PC(DS/QS/US) – Paralysie cérébrale (diplégique spastique/quadriplégique spastique/unilatérale spastique).	26
Tableau 3. Variation de la détection de l'hyperactivité en fonction du seuil utilisé	119
Tableau 4. Enfants participant à la TMIC recrutés dans le protocole.	130
Tableau 5. Résultats préliminaires post TMIC. En rouge : différences cliniquement significatives. AHA-assisting hand assessment; AROM-active range of motion ; CA-coactivation; DT-développement typique ; EMG-electromyographie ; FE-flexion/extension ; PS-pronosupination; PQ-carré pronateur; PT-rond pronateur; TMIC-thérapie motrice induite par la contrainte.....	134

0. PREAMBULE : HISTORIQUE ET CONTEXTE DE LA THESE

Ce projet a débuté en 2012 lors de la Maîtrise ès Sciences Appliquées d'Aurélie Sarcher, réalisée à l'Ecole Polytechnique de Montréal (en collaboration avec l'Ecole Centrale de Lyon), sous la direction du Professeur Maxime Raison, et intitulée « Mouvements volontaires du membre supérieur chez des enfants avec une paralysie cérébrale : analyse cinématique et électromyographique ». Le premier article présenté dans cette thèse a été publié au cours de cette Maîtrise (2012-2014).

Ce projet a ensuite été continué par Aurélie Sarcher lors de la thèse présentée ici (2015-2018), réalisée à l'Université de Bretagne Occidentale (Brest) sous la direction du Professeur Sylvain Brochard et en co-direction avec le Professeur Maxime Raison. En parallèle à cette thèse, Aurélie Sarcher était l'ingénieur de recherche à temps plein du laboratoire d'analyse du mouvement du service de Médecine Physique et de Réadaptation du CHU de Nantes.

1. L'ANALYSE DES TROUBLES DE LA COMMANDE DU MEMBRE SUPERIEUR DE L'ENFANT PARALYSE CEREBRAL UNILATERAL SPASTIQUE

1.1. LA PARALYSIE CEREBRALE SPASTIQUE

1.1.1. ASPECTS GENERAUX

La paralysie cérébrale ou « cerebral palsy » en anglais est la déficience motrice la plus courante chez l'enfant. Elle touche 17 millions de personnes dans le monde, et 125,000 en France [1]. La paralysie cérébrale résulte de lésions irréversibles survenues sur un cerveau en voie de développement [2]. Les causes de la paralysie cérébrale peuvent être multiples (accident vasculaire cérébral, infection congénitale, traumatisme obstétrical, méningite, encéphalite, etc.) mais sont rarement connues [3]. La paralysie cérébrale est courante chez les enfants nés prématurément [4].

La paralysie cérébrale se caractérise par un ensemble de troubles du mouvement et de la posture, qui peuvent être associés à des difficultés cognitives ou sensorielles (déficience intellectuelle, déficience visuelle, incontinence, épilepsie, troubles du comportement, etc.) [1], [2]. La nature et la sévérité de ces symptômes dépendent directement des zones du cerveau affectées, de l'étendue des lésions et du moment de survenue de ces lésions.

1.1.2. L'ATTEINTE MOTRICE

Différentes parties du corps peuvent être touchées par l'atteinte motrice [1]:

- Quadriplégie : 23% des cas. Les deux bras et les deux jambes sont touchés. Les muscles du tronc, le visage et la bouche sont aussi souvent affectés.
- Diplégie : 38% des cas. Les deux jambes sont touchées. Les bras peuvent être affectés dans une moindre mesure.
- Hémiplégie/Paralysie cérébrale unilatérale : 39% des cas. Un seul côté du corps (jambe + bras) est touché.

L'atteinte motrice peut se présenter sous différentes formes [1]:

- Spastique : 70-80% des cas. Il s'agit de la forme la plus courante. Elle provient d'une atteinte du cortex moteur.
- Ataxique : 6% des cas. Elle se caractérise par des mouvements instables. Elle affecte l'équilibre et le sens des repères dans l'espace. Elle provient d'une atteinte du cervelet.

- Dyskinétique : 6% des cas. Elle est caractérisée par des mouvements involontaires et un mauvais contrôle postural. Elle provient d'une atteinte à la base des ganglions.
- Type mixte : combinaison des atteintes.

Cette thèse se concentre sur l'exploration des enfants avec une **paralysie cérébrale unilatérale spastique**.

1.1.2.1. PATHOPHYSIOLOGIE DE LA PARALYSIE CEREBRALE SPASTIQUE [5]

En 2005, Jean-Michel Graciès [5] a classifié les symptômes concernant l'atteinte motrice de la paralysie cérébrale spastique en trois groupes :

- la parésie spastique : un défaut de recrutement musculaire, une faiblesse musculaire.
- la rétraction musculaire : un muscle dont les fibres musculaires sont raccourcies : conséquence d'une contraction constante qui finit par figer le muscle en position courte.
- l'hyperactivité musculaire : un excès involontaire de recrutement musculaire. Ce symptôme regroupe plusieurs sous-symptômes : la co-activation spastique, la co-activation pathologique extrasegmentaire (syncinésies), la spasticité et la dystonie spastique.

Le Tableau 1 résume les caractéristiques de ces différents symptômes [5].

Pour rappel, un muscle est agoniste pour un mouvement quand sa contraction provoque le mouvement considéré. A l'inverse, un muscle est antagoniste pour un mouvement quand sa contraction peut provoquer le mouvement inverse au mouvement considéré. Le biceps est un muscle agoniste du mouvement de flexion du coude et antagoniste du mouvement de l'extension du coude. A l'inverse, le triceps est un muscle agoniste du mouvement de l'extension du coude et antagoniste du mouvement de flexion du coude.

Tableau 1. Caractéristiques des différents symptômes rencontrés dans la paralysie cérébrale unilatérale spastique, leurs mesures et traitements [5]

Nom du symptôme	Définition	Mouvement lors duquel le symptôme est présent	Mesure	Traitements/thérapies proposés
Parésie spastique	Défaut de recrutement d'un muscle, faiblesse musculaire.	Mouvement actif pendant lequel le muscle est agoniste.	La force d'un groupe de muscles produisant un mouvement dans une direction peut être mesurée en utilisant un dynamomètre. Cependant, il est impossible de distinguer la force de chaque muscle au sein d'un groupe de muscles agonistes.	Certaines thérapies de renforcement musculaire peuvent réduire la parésie spastique.
Rétraction musculaire	Un muscle constamment contracté dont les fibres musculaires finissent par se raccourcir.	A tout état.	Il est possible de mesurer l'amplitude passive d'un mouvement au repos, qui donne des informations sur la rétraction possible d'un ou de plusieurs muscles antagonistes à ce mouvement. Cependant il n'est pas possible de distinguer quel muscle est rétracté (cf ci-dessous *).	Le traitement préventif pour les rétractions musculaires est des étirements répétés des muscles lors de séances régulières de kinésithérapie. Le traitement pour une rétraction musculaire est un geste chirurgical appelé allongement tendineux.
Hyperactivité musculaire – co-activation spastique	Activation simultanée d'un muscle agoniste et d'un muscle antagoniste excessive. La co-activation spastique doit être distinguée de la co-activation musculaire volontaire et involontaire rencontrée chez les sujets sains qui sert à réguler la raideur d'une articulation. Chez les sujets sains, la co-activation musculaire involontaire peut apparaître pendant des activités à	Mouvement actif pendant lequel le muscle est antagoniste.	La co-activation peut être mesurée en utilisant des électrodes d'électromyographie pendant un mouvement actif [6]–[15]	Les bloquants neuromusculaires réduisent la co-activation spastique [16].

	<p>motricité fine [6]–[9], et la co-activation musculaire volontaire est utilisée pour stabiliser une articulation en cas de charges importantes [10]. La co-activation musculaire spastique est une activation excessive maintenue d'un des muscles antagonistes pendant un mouvement actif, ce qui est délétère pour le mouvement [5], [11], [12]</p>			
<p>Hyperactivité musculaire – co-activation pathologique extrasegmentaire</p>	<p>Contraction involontaire prolongée d'un muscle en parallèle à la contraction volontaire d'un autre muscle, provoquant alors un mouvement syncinétique.</p>	<p>Mouvement actif pendant lequel le muscle n'est ni agoniste ni antagoniste.</p>	<p>La co-activation pathologique extrasegmentaire peut être observée visuellement pendant la réalisation de mouvements actifs. Par ex., le mouvement de pronation du coude est souvent associé à celui d'extension du coude.</p>	
<p>Hyperactivité musculaire – spasticité</p>	<p>Réponse courte excessive d'un muscle soumis à un étirement passif.</p>	<p>Mouvement passif pendant lequel le muscle est antagoniste.</p>	<p>La spasticité peut être évaluée à l'aide d'échelles cliniques comme la Modified Ashworth Scale [17] ou la Modified Tardieu Scale [18]. Cette évaluation se fait au repos, seul l'examineur manipule le membre du patient.</p>	<p>Les bloquants neuromusculaires réduisent la spasticité [5], [16], [19].</p>
<p>Hyperactivité musculaire – Dystonie spastique</p>	<p>Contraction involontaire prolongée d'un muscle provoquant un mouvement anormal.</p>	<p>Mouvement passif pendant lequel le muscle n'est ni agoniste ni antagoniste.</p>	<p>La dystonie spastique peut être évaluée partiellement en mesurant la position au repos des différentes articulations dans différentes positions du corps (debout / assis / allongé). La dystonie est difficile à discerner des rétractions musculaires.</p>	<p>Les bloquants neuromusculaires réduisent la dystonie spastique.</p>

* Dans certains cas particuliers de muscles bi-articulaires, il est possible de déterminer quel muscle antagoniste au mouvement est rétracté en jouant sur la position de l'articulation : par exemple, si une limitation de flexion dorsale passive de la cheville est mesurée, il est possible de distinguer s'il s'agit d'une rétraction du soléaire ou des gastrocnémiens en comparant l'amplitude passive genou tendu et genou fléchi : si l'amplitude passive genou tendu est similaire à celle genou fléchi, alors il s'agit d'une rétraction du soléaire car il n'est ni extenseur ni fléchisseur de genou. Au contraire, si l'amplitude passive genou tendu est plus petite que celle genou fléchi, alors il s'agit d'une rétraction des gastrocnémiens (et peut être également du soléaire) puisqu'ils sont également fléchisseurs de genou. Dans le cas d'une limitation passive de supination, il pourrait être possible de distinguer s'il s'agit d'une rétraction du rond ou du carré pronateur en comparant l'amplitude passive de supination coude tendu et coude fléchi, le rond pronateur étant également faible fléchisseur du coude. Cependant, en pratique clinique, la mesure de l'amplitude passive de supination coude tendu est très compliquée puisque le mouvement est souvent mélangé à de la rotation externe d'épaule. Dans le cas d'une limitation passive d'extension, il est impossible de distinguer s'il s'agit d'une rétraction du brachioradialis ou du brachialis étant donné qu'ils ont exactement la même fonction ; même une rétraction du biceps est difficilement distinguable de rétractions des autres fléchisseurs puisque malgré son action supinatrice, il s'active tout de même pendant une flexion avec l'avant-bras en pronation.

Ces symptômes peuvent être rencontrés dans des combinaisons différentes chez chaque personne atteinte de paralysie cérébrale spastique. Ils dépendent du muscle, du type de mouvement (passif, actif, ou repos), et ils dépendent également du rôle du muscle pendant le mouvement (agoniste, antagoniste, ou pas directement impliqué dans le mouvement).

Ils sont liés entre eux : un membre parétique, donc faible, est sous-utilisé et est donc immobilisé, ce qui finit par provoquer des rétractions musculaires des muscles immobilisés en position courte. De la même manière, la spasticité d'un muscle peut entraîner sa rétraction [5]. Ainsi, il est possible de prévenir l'apparition de rétractions musculaires en diminuant la spasticité d'un muscle et en poussant à l'utilisation d'un membre parétique [20].

Les bloquants neuromusculaires, qui paralysent le muscle à des degrés variables, sont couramment utilisés chez les personnes atteintes de paralysie cérébrale. Les injections de toxine botulique sont les bloquants neuromusculaires les plus utilisés en routine clinique. Ces bloquants font effet principalement sur deux symptômes, avec des objectifs sous-jacents différents :

- La spasticité : l'objectif sera une modification de position d'un membre, ou une prévention de l'apparition de rétractions musculaires. Pour rappel, la spasticité est déclenchée lors d'un mouvement passif pendant lequel le muscle est antagoniste, elle n'est donc pas directement délétère au mouvement actif [5]. Elle est responsable de gênes fonctionnelles liées à des postures quasi permanentes (par exemple en flexion du coude), parfois également inesthétiques et douloureuses.

- La co-activation musculaire : l'objectif sera une amélioration fonctionnelle en mouvement actif.

Cependant, il est commun qu'un muscle hyperactif (spastique et/ou co-activant spastique) soit également parétique, donc faible. Cette combinaison est complexe puisque l'utilisation de bloquants neuromusculaires pour réduire l'hyperactivité musculaire dans certains muscles peut empirer leur parésie spastique [5].

Il est donc essentiel d'isoler la part d'hyperactivité d'un muscle qui peut répondre au traitement par bloquants neuromusculaires. Déjà en 1977 [21], on retrouve l'utilisation de la mesure d'électromyographie en mouvement actif afin de quantifier la co-activation spastique des personnes atteintes de paralysie cérébrale. Pour les membres inférieurs, cette pratique s'est ensuite développée avec la démocratisation de l'examen de l'Analyse Quantifiée de la Marche (AQM), qui se déroule dans un laboratoire d'analyse du mouvement [22]. Si l'AQM et l'EMG dynamique de la marche sont devenus routiniers avant un traitement ou thérapie pour un enfant avec paralysé cérébral, ses équivalents au membre supérieur pour les enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique (PCUS) ne se sont pas démocratisés. Une des principales raisons sont les difficultés méthodologiques aux mesures du membre supérieur.

1.1.2.2. PROBLEMATIQUE CLINIQUE DE LA PCUS

Les enfants avec une PCUS présentent des limitations de mouvement du membre supérieur très contraignantes dans les activités de la vie quotidienne [23] : notamment ils ont des difficultés lors de l'extension du coude [24] et lors de la supination du coude [25]. Comme vu précédemment, ces limitations peuvent être dues en partie aux co-activations spastiques des muscles antagonistes à ces mouvements, soit les muscles fléchisseurs et les muscles pronateurs du coude respectivement [26]. Or, en clinique actuellement, il est commun que la mesure de spasticité des muscles fléchisseurs et pronateurs du coude soit utilisée à tort pour justifier d'un traitement par bloquants neuromusculaires, quand l'objectif est d'améliorer la fonction en mouvement actif de l'extension et de la supination du coude respectivement. L'ambiguïté vient du fait que les bloquants neuromusculaires tels que la toxine botulique réduisent à la fois la spasticité [5], [16], [19] et la co-activation spastique [16], et que l'EMG dynamique ne soit pas utilisé en pratique clinique pour le membre supérieur.

1.2. RAPPELS D'ANATOMIE FONCTIONNELLE DU MEMBRE SUPERIEUR

Quelques rappels d'anatomie fonctionnelle du membre supérieur sont décrits ci-dessous pour mieux comprendre les limitations présentes au membre supérieur des enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique [27].

Le membre supérieur est très mobile et a comme fonction essentielle de positionner la main dans l'espace. Le membre supérieur peut se mouvoir dans l'espace autour de trois axes avec une grande amplitude, grâce aux nombreuses articulations qui le composent. Le membre supérieur est composé de 4 segments : l'épaule, le bras, l'avant-bras et la main.

1.2.1. ANATOMIE DU MEMBRE SUPERIEUR



Figure 1. Os du membre supérieur (Wikipédia, libre de droits)

Les os constituant l'épaule sont la scapula et la clavicule (Figure 1). Au sein du complexe de l'épaule, la clavicule est liée à l'acromion de la scapula par l'articulation acromio-claviculaire. L'épaule est attachée au tronc au niveau de la clavicule, par l'articulation sterno-claviculaire.

L'os du bras est l'humérus (Figure 1). Le bras, plus particulièrement l'extrémité proximale de l'humérus, est attaché à l'épaule, plus particulièrement à la cavité glénoïde de la scapula, par l'articulation gléno-humérale.

Les os constituant l'avant-bras sont le radius, os latéral et l'ulna, os médial (Figure 1). Les extrémités proximales du radius et de l'ulna s'articulent entre elles par l'articulation radio-ulnaire, et s'articulent avec l'humérus par les articulations huméro-radiale et huméro-ulnaire respectivement.

La main est attachée à l'avant-bras par l'articulation du poignet, composée des articulations radio-carpienne et médio-carpienne.

1.2.2. MOBILITE DU MEMBRE SUPERIEUR

1.2.2.1. LE BRAS

L'articulation gléno-humérale permet de mouvoir le bras autour de l'épaule selon trois directions :

- Abduction/adduction du bras (Figure 2) : ce mouvement consiste à écarter (abduction) ou rapprocher (adduction) le bras du tronc sur le côté, dans le plan frontal du corps.

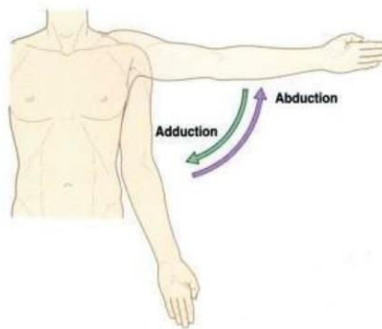


Figure 2. Mouvement d'abduction/adduction du bras [27]

- Flexion/extension du bras (Figure 3) : ce mouvement consiste à amener vers l'avant (flexion) ou vers l'arrière (extension) le bras, dans le plan sagittal du corps.

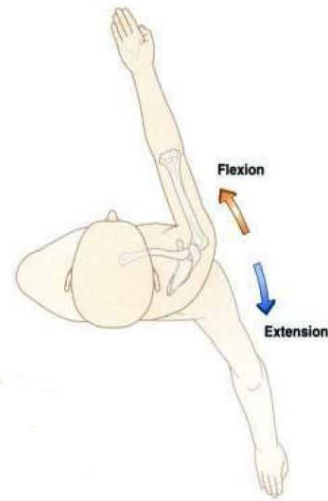


Figure 3. Mouvement de flexion/extension du bras [27]

- Rotation médiale/rotation latérale du bras (Figure 4) : ce mouvement consiste à tourner le bras vers l'intérieur (rotation médiale) ou vers l'extérieur (rotation latérale), dans le plan transversal du corps.

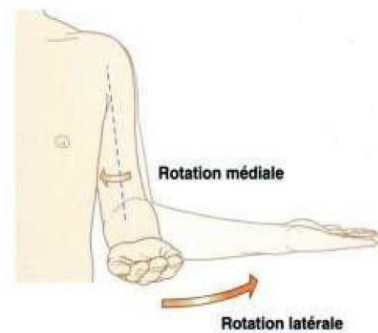


Figure 4. Mouvement de rotation médiale/latérale du bras [27]

1.2.2.2. L'AVANT-BRAS

La réunion des trois articulations radio-ulnaire, huméro-radiale et huméro-ulnaire permet de mouvoir l'avant-bras autour du bras selon deux directions :

- Flexion/extension de l'avant-bras (Figure 5) : ce mouvement consiste à rapprocher (flexion) ou éloigner (extension) l'avant-bras du bras.

- Pronation/supination de l'avant-bras (Figure 5) : ce mouvement consiste à tourner l'avant-bras vers l'intérieur (pronation) de façon à orienter la paume vers le bas, ou vers l'extérieur (supination) de façon à orienter la paume vers le haut.

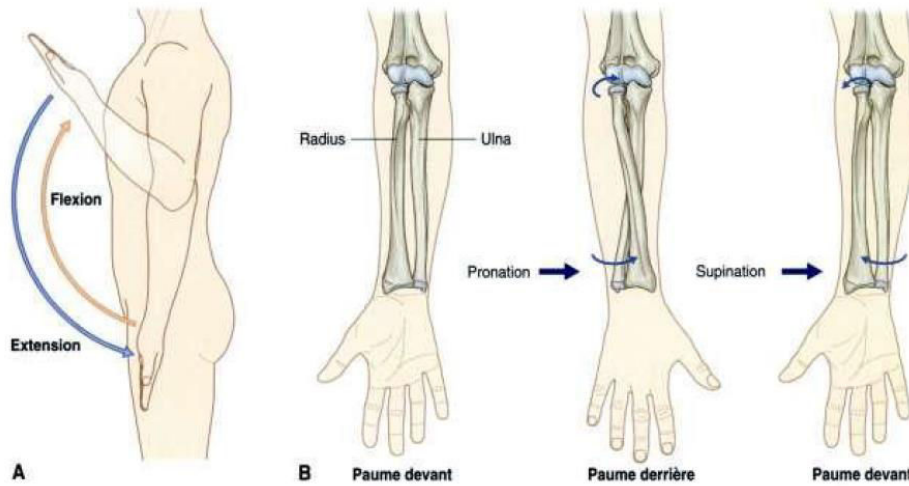


Figure 5. Mouvements de l'avant-bras. A. Flexion/extension. B. Pronation/supination [27]

1.2.2.3. LA MAIN

L'articulation du poignet permet de mouvoir la main selon deux directions :

- Inclinaison radiale (abduction)/inclinaison ulnaire (adduction) de la main (Figure 6) : ce mouvement consiste à dévier la main vers le radius (inclinaison radiale) ou vers l'ulna (inclinaison ulnaire).

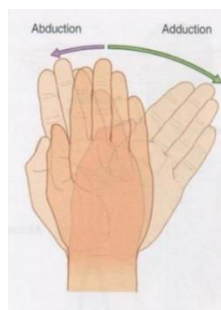


Figure 6. Mouvement d'abduction/adduction de la main [27]

- Flexion/extension de la main (Figure 7) : ce mouvement consiste à rapprocher la paume de l'avant-bras (flexion) ou à rapprocher la face dorsale de la main de l'avant-bras (extension).

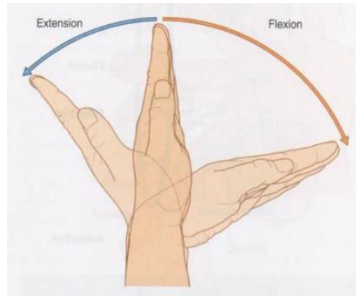


Figure 7. Mouvement de flexion/extension de la main [27]

1.2.3. MUSCLES DU MEMBRE SUPERIEUR



Figure 8. Muscles du bras et de l'avant-bras, vue médiale [28]

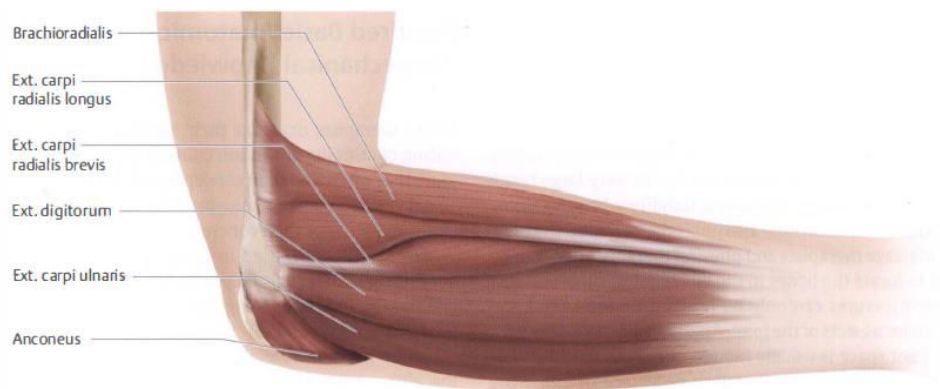


Figure 9. Muscles de l'avant-bras, vue latérale [28]

Dans ce paragraphe, seuls les muscles du membre supérieur impliqués dans les mouvements de l'avant-bras seront abordés.

1.2.3.1. MUSCLES EXTENSEURS DE L'AVANT-BRAS

Le triceps brachial (Figure 8) est composé de 3 chefs : le chef latéral, le chef médial et le chef long. Le triceps brachial est l'extenseur principal de l'avant-bras.

1.2.3.2. MUSCLES FLECHISSEURS DE L'AVANT-BRAS

Le biceps brachial (Figure 8) est composé de 2 chefs : le chef court et le chef long. Le biceps brachial est un puissant fléchisseur de l'avant-bras, et également un puissant supinateur de l'avant-bras quand le coude est fléchi.

Le muscle brachial est situé sous le biceps brachial (Figure 8). Le muscle brachial est un fléchisseur de l'avant-bras.

Le muscle brachioradial (Figure 9) se trouve dans la couche superficielle du compartiment postérieur de l'avant-bras, aux côtés de 5 autres muscles : le long et le court extenseur radial du carpe (extenseurs et abducteurs du poignet), l'extenseur des doigts, l'extenseur propre de l'auriculaire, l'extenseur ulnaire du carpe (extenseur et adducteur du poignet). Le brachioradial est un fléchisseur accessoire de l'avant-bras. Son action est plus efficace quand l'avant-bras est en position de pronation/supination neutre.

1.2.3.3. MUSCLES PRONATEURS DE L'AVANT-BRAS

Le rond pronateur (Figure 8) est situé dans la couche superficielle du compartiment antérieur de l'avant-bras. Cette couche superficielle comprend aussi le fléchisseur ulnaire du carpe (fléchisseur et adducteur du poignet), le long palmaire (fléchisseur du poignet) et le fléchisseur radial du carpe (fléchisseur et abducteur du poignet).

Le muscle carré pronateur (Figure 10) est un muscle plat en forme de drapeau situé au niveau de l'extrémité distale de l'avant-bras. Il est situé dans la couche profonde du compartiment antérieur de l'avant-bras.

1.2.3.4. MUSCLES SUPINATEURS DE L'AVANT-BRAS

Le biceps brachial est un puissant supinateur de l'avant-bras quand le coude est fléchi.

Le second muscle qui permet la supination est le muscle supinateur (Figure 10). Il est situé dans la couche profonde du compartiment postérieur de l'avant-bras.

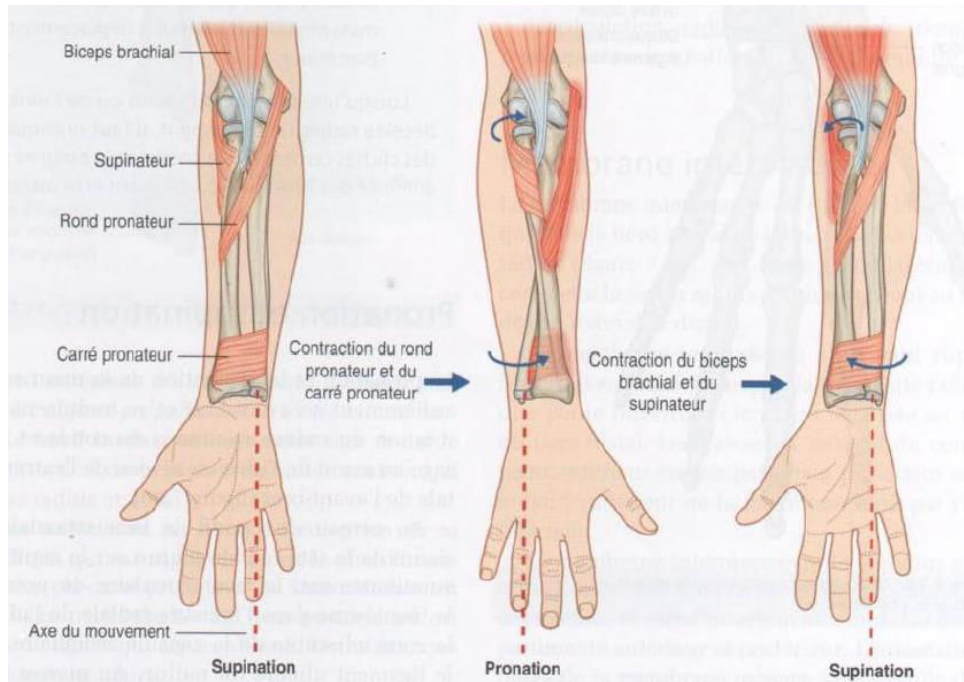


Figure 10. Contraction des muscles pendant la pronation et la supination de l'avant-bras [27]

1.3. LA MESURE DE L'ACTIVATION/CO-ACTIVATION MUSCULAIRE PAR ELECTROMYOGRAPHIE DE SURFACE AU MEMBRE SUPERIEUR DU PATIENT PARALYSE CEREBRAL UNILATERAL SPASTIQUE

1.3.1. ASPECTS GENERAUX DE LA MESURE DE L'ACTIVATION MUSCULAIRE MESUREE PAR ELECTROMYOGRAPHIE DE SURFACE

La source du signal électromyographie (EMG) est la différence de potentiel d'action des unités motrices recrutées pour produire la contraction du muscle [29]. Les unités motrices les plus proches des électrodes sont donc celles qui contribuent le plus au signal EMG. La somme de ces différences de potentiel d'action donne le signal EMG. Il peut varier du microvolt au millivolt selon l'intensité de la contraction. Il doit donc être amplifié avant d'être analysé. Plus la distance séparant les fibres activées lors d'une contraction de la surface la peau est grande, et plus l'amplitude du signal enregistré sera faible. Le contenu fréquentiel de ce signal est aussi affecté car les milieux qu'il traverse agissent comme des filtres passe-bas, c'est-à-dire que les basses fréquences passent alors que les hautes fréquences sont atténuées. Un des tissus offrant le plus de résistance au signal myoélectrique est la couche adipeuse présente entre le muscle actif et les électrodes sur la peau. Ainsi, pour deux personnes de corpulence différente, le contenu fréquentiel des signaux EMG sera différent. Le signal EMG est un signal très bruité, qui demande d'être filtré et normalisé avant analyse.

L'utilisation d'électrodes de surface pour capter le signal EMG est très fréquente car elle est non-invasive. Cependant, sa principale limitation est qu'elle ne permet pas de capter l'activation des muscles profonds, puisque celle-ci est parasitée par l'activation des muscles superficiels. De la même manière, l'utilisation d'électrodes de surface entraîne la présence de diaphonie (ou cross-talk) : le signal provenant d'un puissant muscle distant peut se propager sur une grande distance et venir s'ajouter à celui du muscle au-dessus duquel les électrodes sont placées. Il devient alors très difficile, voire impossible d'isoler le signal propre à chaque muscle. Une grande attention doit donc être apportée lors du placement des électrodes, pour limiter au maximum le phénomène de diaphonie, surtout chez les enfants pour qui les volumes musculaires et les distances entre chaque muscle sont réduites.

Pour favoriser les comparaisons entre études sur l'EMG, une standardisation, tant au niveau du placement des électrodes que du traitement du signal, a été développée avec le projet SENIAM (Surface Electromyography for the Non-Invasive Assessment of Muscles) du Biomedical Health and Research Program (BIOMED II) [30]. Cependant, cette standardisation n'aborde pas tous les muscles du membre supérieur, et notamment pas les muscles brachialis, brachioradialis, rond et carré pronateurs.

Du signal EMG peuvent être extraits de nombreux paramètres. Dans la revue de littérature suivante, le terme « détection » sera utilisé pour décrire le ou les paramètres extraits des signaux EMG. Le terme « caractérisation » sera utilisé pour décrire la façon de comparer les paramètres mesurés à une référence, provenant souvent d'un groupe contrôle de participants sains.

1.3.2. REVUE DE LITTÉRATURE

L'utilisation de l'électromyographie pour analyser l'activation/co-activation musculaire pendant des mouvements actifs est très répandue dans les membres inférieurs des enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique, et reste plus rare dans les membres supérieurs (trois fois moins de résultats) : la recherche PubMed [(EMG OR electromyography) AND children AND (cerebral palsy) AND (upper limb OR arm OR elbow OR upper extremity)] donne 97 résultats entre 1968 et Septembre 2018, dont 30 articles mesurent l'activation de muscles du membre supérieur par électromyographie pendant des mouvements volontaires actifs du bras d'enfants avec une paralysie cérébrale. Le Tableau 2 résume ces études et leurs caractéristiques. Parmi les 67 résultats restants, on retrouve notamment des études mesurant l'activation musculaire du membre supérieur par électromyographie pendant des mouvements passifs du bras d'enfants avec une paralysie cérébrale, avec pour objectif d'obtenir une mesure plus quantitative et objective de la spasticité que celle obtenue par les échelles utilisées en pratique clinique ([31], [32]). Cette recherche est également courante aux membres inférieurs ([33], [34]). Cependant, d'après la classification de Graciès [5], la spasticité n'intervient pas directement pendant le mouvement actif et ainsi nous avons fait le choix de ne pas analyser ces études.

Tableau 2. Revue de littérature sur les études mesurant l'activation/co-activation musculaire par électromyographie de surface de mouvements actifs du membre supérieur de l'enfant avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique. En rouge : articles non accessibles. DT- développement typique ; iEMG – électromyographie intramusculaire ; sEMG – électromyographie de surface ; PC(DS/QS/US) – Paralysie cérébrale (diploégique spastique/quadruploégique spastique/unilatérale spastique).

Article / Année	Titre	Participants	Protocole	Mesures sEMG du membre supérieur	Détection et caractérisation des anomalies de commande musculaire chez les enfants PC
1977 [21]	Preoperative and postoperative dynamic electromyography as an aid in planning tendon transfers in children with cerebral palsy	24 enfants PC 4 membres sups	Grasp and release	iEMG : Brachioradialis Flexor carpi ulnaris Extensor carpi radialis brevis Extensor digitorum communis Flexor digitorum superficialis and profundus	Détection : observation des signaux EMG bruts pour visualiser une contraction « normale » ou non pendant chaque mouvement. Caractérisation : activation correcte pendant le bon mouvement.
1979 [35]	Pathophysiological mechanisms in cerebral palsy	20 patients PC (enfants adolescents et adultes)	Flexion/extension du coude à fréquences basses (0.1 à 0.5Hz) et le plus vite possible.	Biceps Triceps	Détection : observation des signaux EMG bruts pour visualiser une contraction « normale » ou non pendant chaque mouvement. Caractérisation : activation correcte pendant le bon mouvement.
1979 [36]	Dynamic electromyography and decision-making for surgery in the upper extremity of patients with cerebral palsy	18 enfants PC	Grasp, release, flexion/extension du poignet, flexion/extension du coude, pronosupination de l'avant-bras	iEMG : Brachioradialis Pronateur carré Extensor digitorum communis	Détection : observation des signaux EMG bruts pour visualiser une contraction « normale » ou non pendant chaque mouvement. Caractérisation : activation correcte pendant le bon mouvement.

				Flexor carpi ulnaris Flexor digitorum superficialis Flexor digitorum profundus Extensor carpi radialis	
1985 [37]	Upper extremity tendon transfers in cerebral palsy: electromyographic and functional analysis	12 enfants PCUS			
1987 [38]	Nondominant arm restraint and dominant arm function in a child with athetoid cerebral palsy: electromyographic and functional evaluation	1 enfant PC ataxique	Adduction horizontale d'épaule		
1992 [39]	Influences of a hand positioning device on upper-extremity control of children with cerebral palsy	10 enfants PC		Brachioradialis Triceps Deltoïde antérieur Extensor carpi radialis Flexor carpi ulnaris	
1996	Changes in voluntary motor control induced by	2 enfants PC (1 seul membre sup')	Flexion/extension du coude horizontale aussi	Biceps	Détection : observation des signaux EMG bruts pour visualiser une contraction « normale » ou non pendant

[40]	intrathecal baclofen in patients with spasticity of different etiology		vite que possible	Brachioradialis Triceps	chaque mouvement Caractérisation : réduction suite aux injections de toxine, activation correcte pendant le bon mouvement.
1999 [41]	Development of postural adjustments during reaching in infants with CP	7 enfants PC	Mouvements de reaching à vitesse libre	Biceps Triceps Deltoïde	Détection : timings d'activation musculaire sont utilisés pour voir l'activation des muscles posturaux. Caractérisation : aucune.
2004 [42]	Postural control during reaching in preterm children with CP	34 enfants PCUS 24 enfants PCQS	Mouvements de reaching à vitesse libre	Biceps Deltoïde	Détection : timings d'activation musculaire sont utilisés pour voir l'activation des muscles posturaux. Caractérisation : aucune.
2005 [43]	Trunk use and co-contraction in CP as regulatory mechanisms for accuracy control	4 enfants PCUS 4 enfants PCQS 4 enfants DT	Mouvements de déplacement d'une cuillère remplie ou non entre deux points à vitesse imposée par un métronome.	Biceps Triceps Brachioradialis Deltoïde antérieur/postérieur	Détection : 1. durée de co-activation quand les deux muscles antagonistes sont activés en même temps. 2. Quantité d'activation antagoniste à certains instants. Caractérisation : niveaux de co-contraction au coude similaires entre les trois groupes.
2005 [44]	Cerebral palsy improvement achieved by coordination dynamics therapy	8 enfants PC		Biceps Triceps	
2006 [45]	Effects of neuromuscular electrical stimulation treatment of cerebral palsy on potential impairment mechanisms: a pilot	9 enfants PCUS	Flexion/extension du poignet	Flexor carpi radialis Extensor carpi radialis longus	Détection : observation visuelle des patterns. Caractérisation : aucune.

study					
2007 [46]	Does dystonia always include co-contraction ? A study of unconstrained reaching in children with primary and secondary dystonia	7 enfants PCdystonique 7 enfants DT	Mouvements de flexion/extension du coude (reach + toucher le nez) le plus rapidement possible.	Biceps Triceps Flexor carpi radialis Extensor carpi radialis longus	Détection : mouvement décomposé en phase d'accélération et de décélération pour la flexion et l'extension du coude. Pour la co-activation : 1. multiplication du signal EMG triceps*biceps pour différentes fenêtres temporelles. 2. Valeur minimale du signal entre biceps et triceps. Et valeur moyenne de l'amplitude EMG. Ils présentent d'autres indices de co-activation : 1. antagoniste/agoniste : peut devenir très grand si l'activation agoniste est faible. 2. Min(agoniste, antagoniste)/max(agoniste, antagoniste): peut sous estimer la co-contraction quand l'activité de l'agoniste est grande. 3. Diff(agoniste, antagoniste)/somme(agoniste, antagoniste) :si les deux muscles sont au repos alors ce rapport est non défini. Caractérisation : co-activation plus faible chez les dystoniques. Modulation de l'activation musculaire différente chez les dystoniques.
2007 [47]	Effect of seat surface inclination on postural control during reaching in preterm children with cerebral palsy	34 enfants PCUSmix 24 enfants PCQSmix	Mouvements de reaching à vitesse libre	Biceps Deltoïde	Détection : timings d'activation musculaire sont utilisés pour voir l'activation des muscles posturaux. Caractérisation : aucune.
2008 [48]	Effect of wrist hand splints on grip, pinch, manual dexterity, and muscle activation in children with spastic hemiplegia: a	10 enfants PCUS 5 enfants DT	Essais de grip strength; Lateral pinch ; Test Peg-board	Biceps Triceps Flexor carpi radialis Extensor carpi radialis	Détection : valeur moyenne de l'EMG. Caractérisation : pendant le test peg-board, plus d'activité musculaire dans tous les groupes musculaires chez les enfants PC.

	preliminary study			longus Deltoïde antérieur/moyen Trapèze	
2010 [49]	Assessment of neuromuscular activation of the upper limbs in children with spastic hemiparetic cerebral palsy during a dynamical task	10 enfants PCUS 12 enfants DT	Faire tourner une roue horizontale en tâche bimanuelle à vitesse libre	Biceps Triceps Flexor digitorum superficialis Extensor carpi radialis brevis Deltoïde antérieur/postérieur	Détection : le signal EMG est décomposé en activation excentrique, concentrique et isométrique en fonction de la cinématique qui est synchronisée. La variable d'intérêt est le temps d'activation (calculé avec un seuil d'activation) pour les différentes phases par rapport au temps total. Les valeur et fréquence moyenne de l'EMG est aussi calculée. Caractérisation : les enfants PC ont une valeur et une fréquence EMG moyenne plus grande que DT. Activation excentrique est plus importante chez les PC.
2010 [50]	Neuromuscular adaptations to eccentric strength training in children and adolescents with cerebral palsy	14 enfants PCUS 14 enfants DT	Flexion/extensions du coude isocinétiques	Biceps Brachioradialis	Détection: valeurs moyennes d'activation pendant des tâches excentriques ou concentriques. Caractérisation : valeurs moyennes plus élevées en concentrique chez les CP. Pas de différence en excentrique (pré-entraînement).
2010 [51]	Mirror visual feedback induces lower neuromuscular activity in children with spastic hemiparetic cerebral palsy	8 enfants PCUS 12 enfants DT	Faire tourner une roue horizontale en tâche bimanuelle à vitesse libre	Biceps Triceps Deltoïde antérieur/postérieur	Détection : le signal EMG est décomposé en activation excentrique, concentrique et isométrique en fonction de la cinématique qui est synchronisée. La variable d'intérêt est le temps d'activation (calculé avec un seuil d'activation) pour les différentes phases par rapport au temps total. La valeur moyenne de l'EMG est aussi calculée. Caractérisation : valeur moyenne de l'EMG plus grande chez les CP et plus grande dans le membre atteint. Différences dans les temps excentriques d'activation du biceps (plus long) et les temps

					concentriques également.
2011 [52]	Contributors to excess antagonist activity during movement in children with secondary dystonia due to cerebral palsy	11 enfants PC dystoniques 11 enfants DT	Extension et flexion du coude à vitesse libre avec 90° de flexion de l'épaule.	Biceps Triceps	Détection : visualisation des enveloppes et calcul sur les valeurs moyennes de l'enveloppe pendant un mouvement. Caractérisation : excès d'activation musculaire dans le biceps et le triceps
2012 [53]	The role of coactivation in strength and force modulation in the elbow of children with unilateral cerebral palsy	21 enfants PCUS	Mouvements de flexion/extension du coude actifs à vitesse contrôlée de 60°/s (contraint) à force maximale.	Biceps Triceps	Détection : valeur moyenne du signal sur tout le mouvement et calcul de la co-activation comme le rapport du muscle phase agoniste/phase antagoniste. Caractérisation : comparaison avec le bras non atteint. Moins d'activation agoniste dans le bras atteint, autant d'activation antagoniste et du coup plus de co-activation !
2013 [26]	Biceps brachii can add performance of tasks requiring supination in cerebral palsy patients	12 enfants PCUS 10 enfants DT	Mouvements de reaching et grasping, flexion/extension et pronation/supination du coude à vitesse libre	Biceps Triceps	Détection : valeurs moyennes de chaque muscle et co-activation calculée comme l'activation de l'antagoniste divisée par l'activation de l'agoniste. Caractérisation : activation plus importante des biceps et triceps pendant l'extension. Activation plus importante des biceps et triceps pendant la pronosupination entière.
2013 [54]	The effect of lower body stabilization and different writing tools on writing biomechanics in children with CP	6 enfants PCDS 6 enfants PCQS 2 enfants PCUS	Mouvements d'écriture à vitesse libre	Flexor carpi ulnaris Flexor digitorum superficialis 1st inter digitorum Extensor carpi radialis Extensor digitorum	Détection : valeur RMS. Caractérisation : aucune.

communis					
Trapèze					
2013 [55]	Associated reactions during a visual pursuit position tracking task in hemiplegic and quadriplegic cerebral palsy	23 enfants PCUS 12 enfants PCQS 22 enfants DT	Flexion/extension du coude pour suivre une cible contrôlée par ordinateur	Biceps Triceps	Détection: Amplitude moyenne du signal EMG pendant le mouvement entier. Caractérisation : pas de différence significative d'amplitude entre les deux bras du groupe PCUS ou entre PCUS et DT.
2013 [56]	NeuroGame Therapy to improve wrist control in children with cerebral palsy: a case series	4 enfants PCUS	Extension du poignet Lancer une balle de tennis Prendre une cannette	Fléchisseur du poignet Extenseur du poignet	Détection : activation maximale des extenseurs de poignet. Pourcentage d'activation des extenseurs de poignet sans co-activation des fléchisseurs de poignet. Agonist/antagonist ratio. Caractérisation : comparaison avant vs. après la thérapie par le jeu.
2014 [57]	Effects of innovative virtual reality game and EMG biofeedback on neuromotor control in cerebral palsy	2 enfants PCQS 1 enfant PCDS	Mouvements de reaching à vitesse libre	Biceps Triceps	Détection: Amplitude moyenne du signal EMG du triceps / amplitude moyenne du signal EMG du biceps pendant l'extension (Root Mean Square) Caractérisation : pas de comparaison DT
2016 [58]	Transcranial direct current stimulation combined with upper limb functional training in children with spastic, hemiparetic cerebral palsy: study protocol for a randomized	34 enfants PCUS	Mouvements de reaching à vitesse libre	Biceps Triceps	Non précisé – papier décrivant seulement le protocole

controlled trial					
2017 [59]	Augmented effects of EMG biofeedback interfaced with virtual reality on neuromuscular control and movement coordination during reaching in children with cerebral palsy	18 enfants PC (?) 8 enfants DT	?	Biceps Triceps	Détection: "triceps and biceps muscle activity imbalance"
2018 [60]	Upper extremity muscle activation in children with unilateral cerebral palsy during an auditory cued repetitive task: effects on bimanual coordination	6 enfants PCUS 6 enfants DT	Mouvements répétés bimanuels de pression d'une balle synchronisés par un métronome.	Biceps Triceps Deltoid anterior Extensor carpi radialis Flexor carpi radialis	Détection: Onset timing de l'activation musculaire ; onset amplitude. Caractérisation : ?
2018 [61]	Assessment of upper limb motor dysfunction for children with cerebral palsy based on muscle synergy analysis	14 enfants PC mix 10 enfants DT	Mouvements de reaching à vitesse libre	Biceps Triceps Brachioradialis Brachialis Deltoid anterior/medial/posterior Upper trapezius	Détection : Synergies musculaires. Caractérisation : Moins de synergies musculaires et différences dans la structure des synergies.

1.3.3. ANALYSE DE LA LITTÉRATURE ET MANQUEMENTS METHODOLOGIQUES

Ces articles présentent globalement deux objectifs :

- 14 articles ont pour objectif de détecter des activations pathologiques dans le membre supérieur des enfants CP, en comparant avec une « référence » :
 - o 10 articles [26], [43], [46], [48]–[52], [55], [61] ont comparé les signaux d'enfants avec une paralysie cérébrale à ceux d'un groupe d'enfants sans trouble moteur qui établissent la référence.
 - o 2 articles plus anciens (1977) n'utilisent pas de groupe contrôle et déduisent si une activation musculaire est correcte en fonction du mouvement réalisé par l'enfant [35], [36].
 - o 2 articles ont comparé les signaux du bras atteint avec le bras non atteint [53], [55].

- 9 articles ont pour objectif de détecter des évolutions d'activations dans le membre supérieur des enfants PC, après une thérapie ou un traitement du membre supérieur :
 - o transferts tendineux [21]
 - o injections intrathécales de baclofène [40]
 - o stimulation électrique neuromusculaire [45]
 - o attèles de poignet [48]
 - o thérapie de renforcement musculaire excentrique [50]
 - o feedback visuel par miroir [51]
 - o stabilisation du corps et différents outils d'écriture [54]
 - o thérapie par jeu vidéo contrôlé par les signaux EMG [56]
 - o jeu de réalité virtuelle et feedback EMG [57].

Si les conclusions de ces articles sont intéressantes, la question de la validité de la mesure n'y est jamais abordée. La validité d'une mesure inclut :

- **La reproductibilité** : Plusieurs sources de variabilité peuvent affecter les signaux EMG de surface et doivent être considérés pendant l'interprétation. Ces sources incluent : 1. La variabilité naturelle entre plusieurs cycles consécutifs d'un même mouvement (variabilité inter-trial) ; 2. La variabilité qui a lieu entre deux sessions de mesure (variabilité inter-session), à cause de la variabilité extrinsèque de la mesure (par exemple le placement des électrodes ou la condition de la peau) et à cause de la variabilité naturelle à plusieurs jours ou heures d'écart. 3. La variabilité entre les sujets (variabilité inter-subjects) réalisant le même mouvement : cette variabilité doit être

considérée à partir du moment où l'on compare les signaux EMG d'un groupe de sujets, par exemple d'un groupe contrôle qui est utilisé comme référence « saine ». 4. La variabilité entre les expérimentateurs (variabilité inter-observateur). Si la variabilité des signaux EMG de muscles des membres inférieurs a déjà été évaluée chez les enfants pendant la marche [62], [63], aucun des articles cités ci-dessus n'a évalué la variabilité des signaux EMG associée à leurs protocoles. Globalement à ce jour, aucun article n'a déjà évalué la variabilité des signaux EMG des muscles des membres supérieurs de patients atteints de paralysie cérébrale en mouvement actif. *La variabilité des signaux EMG sera évaluée dans cette thèse.*

- **La sensibilité au changement** : La sensibilité au changement ne peut être évaluée qu'après avoir quantifié la variabilité des signaux EMG. *Ce point sera abordé dans cette thèse, et dans ses perspectives.*
- **La validité de concurrence** : l'activation musculaire peut également être mesurée par électromyographie intramusculaire, qui est le « gold standard » puisque l'électrode est alors directement insérée dans la fibre musculaire. Aucune étude n'a comparé les signaux EMG superficiels et intramusculaires au membre supérieur des enfants avec une paralysie cérébrale. *Ce point sera uniquement abordé dans la partie « perspectives » de cette thèse, comme l'objectif était de rester sur un protocole non invasif.*

2. SYNTHÈSE DE L'INTRODUCTION

Les enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale présentent des limitations de mouvement du membre supérieur en lien avec des limitations d'activités de la vie quotidienne [23] : notamment ils ont des difficultés lors de l'extension du coude [24] et lors de la supination du coude [25]. Ces limitations peuvent être dues en partie aux co-activations spastiques des muscles antagonistes à ces mouvements, soit les muscles fléchisseurs et les muscles pronateurs du coude respectivement [26].

Une évaluation individualisée fiable de ces co-activations musculaires spastiques permettrait de déterminer le meilleur traitement ou thérapie à proposer pour améliorer la fonction active. De nos jours, la seule manière de mesurer ces co-activations est de mesurer les activations musculaires par électromyographie de surface (ou intramusculaire) pendant des mouvements actifs du membre supérieur de l'enfant. Cependant, plusieurs sources de variabilité peuvent affecter cette mesure électromyographique : 1. La variabilité naturelle entre plusieurs cycles consécutifs d'un même mouvement (variabilité inter-trial) ; 2. La variabilité qui a lieu entre deux sessions de mesure (variabilité inter-session), à cause de la variabilité extrinsèque de la mesure (par exemple le placement des électrodes ou la condition de la peau) et à cause de la variabilité naturelle à plusieurs jours ou heures d'écart. 3. La variabilité entre les sujets (variabilité inter-sujets) réalisant le même mouvement : cette variabilité doit être considérée à partir du moment où l'on compare les signaux EMG d'un groupe de sujets, par exemple d'un groupe contrôle qui est utilisé comme référence « saine ». 4. La variabilité entre les expérimentateurs (variabilité inter-observateur).

Actuellement, bien que 23 articles aient été publiés avec pour objectif de détecter des activations pathologiques ou des évolutions d'activations après un traitement/thérapie dans le membre supérieur des enfants PC, aucun de ces articles n'a évalué la variabilité de la mesure électromyographique associée à leurs protocoles.

Ce manque de preuves de validité est un obstacle à l'utilisation clinique de l'évaluation par électromyographie des co-activations musculaires spastiques pendant des mouvements actifs du membre supérieur des enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique. Cette connaissance permettrait de placer l'EMG du membre supérieur dans un arbre de décision clinique thérapeutique dont l'objectif est l'amélioration de la fonction active des membres supérieurs de ces enfants.

Objectif général :

L'objectif général de la thèse est de développer un protocole d'analyse de l'activation et de la co-activation musculaire lors de mouvements du coude de l'enfant avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique pouvant être utilisé dans des applications de recherche et clinique.

Objectif spécifique 1 :

Caractériser les anomalies de commande musculaire au membre supérieur chez un groupe d'enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique.

Article 1. "Impact of muscle activation on ranges of motion during active elbow movement in children with spastic hemiplegic cerebral palsy" Clinical Biomechanics, 2015 (published)

Article 2. "Pathological and physiological muscle co-activation during active elbow extension in children with unilateral cerebral palsy" Clinical Neurophysiology, 2017 (published)

Objectif spécifique 2 :

Caractériser des anomalies de commande musculaire au membre supérieur chez un enfant avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique.

1. Evaluer la reproductibilité de la mesure de l'activation musculaire

Article 3. "Patterns of upper limb muscle activation in children with unilateral spastic cerebral palsy: variability and detection of deviations" Clinical Biomechanics, 2018 (published)

2. Evaluer la détectabilité de la mesure de l'activation musculaire

Article 4. "Detection of overactivity in the pronator muscles during active supination in children with unilateral spastic cerebral palsy" Annals of Physical Medicine and Rehabilitation, 2018 (submitted on the 7th of September 2018)

3. Evaluer la sensibilité au changement de la mesure de l'activation musculaire

Article 3. "Patterns of upper limb muscle activation in children with unilateral spastic cerebral palsy: variability and detection of deviations" Clinical Biomechanics, 2018 (published)

3. MATERIELS ET METHODES COMMUNS AUX DIFFERENTES ETUDES

3.1. EXPERIMENTATION

3.1.1. PARTICIPANTS

Dans le cadre de cette étude, des enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique (PCUS) et des enfants à développement typique (DT) ont été recrutés sur 2 sites, à Montréal puis à Nantes :

A Montréal, 13 enfants avec une PCUS (8 M, 5 F ; âge moyen 9.1 SD 2.0 ans; [6.2-12.5ans]) et 13 enfants à DT (8 M, 5 F ; âge moyen 9.6 SD 1.9 ans; [6.3-12.9ans]) ont été recrutés pour effectuer une analyse des mouvements du membre supérieur. Ces groupes sont ceux des Articles 1 et 2 ([64], [65]).

A Nantes, au total 25 enfants avec une PCUS et 12 enfants à DT ont été recrutés dans le cadre de trois protocoles :

- 11 enfants avec une PCUS (5 M, 6 F ; âge moyen 12.8 SD 3.4 ans; [7.9-17.4ans]) et 12 enfants à DT (7 M, 5 F ; âge moyen 11.0 SD 3.0 ans; [6.7-15.9ans]) ont participé au protocole « reproductibilité » et ont effectué deux sessions d'analyse des mouvements du membre supérieur (espacées d'au minimum une journée). Les enfants inclus dans l'Article 3 [66] font partie de ces groupes.
- 13 enfants avec une PCUS (6 M, 7 F ; âge moyen 12.1 SD 3.0 ans; [8.4-18.0ans]) ont participé au protocole « pré/post thérapie » et ont effectué trois sessions d'analyse des mouvements du membre supérieur: une avant leur session de thérapie, une dans le mois suivant la session de thérapie et une dernière à 6 mois post thérapie. Parmi ces enfants, 9 enfants ont suivi une thérapie motrice induite par la contrainte et 4 enfants ont suivi une thérapie intensive bimanuelle.
- 1 enfant avec une PCUS (F, 13 ans) a participé au protocole « pré/post toxine » et a effectué deux sessions d'analyse des mouvements du membre supérieur: une avant ses toxines et une dans la période d'efficacité des toxines, c'est-à-dire 1 mois et demi après les injections.

Les enfants inclus dans l'Article 4 sont à la fois ceux recrutés à Montréal et ceux recrutés à Nantes.

Les critères d'exclusion pour les enfants avec une PCUS étaient : incapacité à suivre les consignes (troubles de l'attention ou visuels), incapacité à réaliser les mouvements demandés, contracture de flexion, extension, supination, ou pronation supérieure à 10°.

La candidate a été chargée de rédiger les dossiers de Comité d'Ethique associés à ces différentes études. A Montréal, la Comité d'Ethique de la Recherche du CHU Sainte-Justine a approuvé l'étude (Protocole #3362). Le financement pour ces démarches avait déjà été trouvé. A Nantes, un dossier rédigé

par la candidate et ses encadrants a été soumis à l'appel d'offres compétitif de la Fondation Paralysie Cérébrale 2015-2016 et sélectionné pour un financement de 23keuros. Ce financement couvre les frais de la Délégation Interrégionale à la Recherche Clinique du CHU de Nantes. En effet, ces études sont classées en « recherche interventionnelle » du fait que l'on demande aux patients de se déplacer pour cet examen « nouveau » (les marqueurs ne sont pas positionnés au même endroit que ceux déclarés dans le dossier HAS de l'analyse de la marche). En conséquence, les frais associés à ces études sont élevés. Le Comité de Protection des Personnes Ouest IV a approuvé l'étude (IdRCB No 2016-A0131 4-47). Les données ont été traitées conformément aux conditions de la Commission Nationale de l'Informatique et des Libertés. Pour les deux sites, le consentement écrit des parents et l'assentiment de l'enfant ont été obtenus avant les collectes de données.

3.1.2. DISPOSITIF EXPERIMENTAL

3.1.2.1. ANALYSE CINEMATIQUE

La cinématique du membre supérieur a été mesurée à l'aide d'un système optoélectronique de capture du mouvement (VICON, Oxford, UK). Ce système est composé de caméras infrarouges calibrées entre elles, qui suivent dans l'espace 3D la trajectoire de marqueurs passifs rétro-réfléchissants (Figure 11). A Montréal, le système VICON était composé de 12 caméras VICON T40Sx. A Nantes, le système VICON était composé de 8 caméras VICON MX-F40. La fréquence d'acquisition était de 100Hz sur les deux sites.



Figure 11. Système de capture du mouvement. Gauche: Laboratoire d'analyse du mouvement. Milieu: Caméra infrarouge VICON (Oxford, UK). Droite: marqueurs passifs rétro-réfléchissants.

Le modèle du membre supérieur utilisé a été développé par [67] et demande de positionner 29 marqueurs sur des repères anatomiques du thorax, de l'épaule, du bras, de l'avant-bras et de la main (Figure 12).

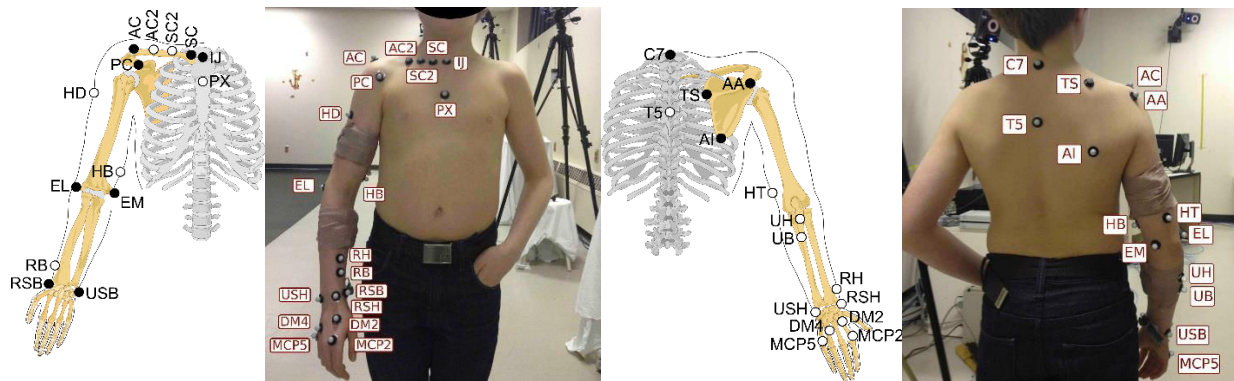


Figure 12. Placement des 29 marqueurs sur des repères anatomiques du thorax, de l'épaule, du bras, de l'avant-bras et de la main [67].

L'analyse cinématique du membre supérieur est de plus en plus courante chez les enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique [68]–[77]. Elle permet de caractériser le mouvement, de mesurer les mouvements compensatoires, de quantifier des améliorations de mouvement à la suite d'une thérapie, en suivant la position des différents segments corporels mis en jeu, et en faisant ainsi le lien entre la commande et la réalisation d'une tâche motrice.

3.1.2.2. ELECTROMYOGRAPHIE

Comme vu précédemment, les mouvements de l'avant-bras se font à l'aide des muscles fléchisseurs, extenseurs, pronateurs et supinateurs. Dans la littérature, certains de ces muscles sont couramment mesurés par électromyographie de surface chez les enfants avec une paralysie cérébrale, tandis que d'autres n'ont jamais encore été mesurés :

- Fléchisseurs du coude :
 - o Le biceps est couramment mesuré chez les enfants avec une paralysie cérébrale (mesuré dans 18 articles : [26], [35], [50]–[53], [55], [57], [58], [61], [40]–[43], [46]–[49]) : en effet, c'est le muscle superficiel le plus volumineux du bras, ce qui facilite le positionnement des électrodes, surtout chez une population pédiatrique.
 - o Le brachioradialis n'est quant à lui que très rarement mesuré (mesuré dans 5 articles [21], [36], [40], [43], [50], [61], dont 2 articles en électromyographie intra-musculaire [21], [36]) : en effet, le biceps est souvent privilégié comme fléchisseur. C'est néanmoins un muscle superficiel facile à localiser qui a une action différente du biceps, n'ayant pas d'action supinatrice.

- Le brachialis n'a été mesuré qu'une seule fois chez les enfants avec une paralysie cérébrale [61]. Malgré sa position profonde, le brachialis peut être mesuré à l'aide d'électrodes de surface sans que celles-ci ne captent l'activation du biceps, comme montré par [78]. Cependant, cette étude a été réalisée chez des adultes sains, et il faudra encore déterminer si la diaphonie n'est pas plus importante chez des enfants avec une paralysie cérébrale.
- Extenseurs du coude :
 - Le triceps est couramment mesuré chez les enfants avec une paralysie cérébrale (mesuré dans 15 articles : [26], [35], [53], [55], [57], [58], [61], [40], [41], [43], [46], [48], [49], [51], [52]) : de la même manière que le biceps, c'est un muscle surfacique relativement grand et facile à localiser. Il est couramment mesuré en même temps que le biceps puisqu'il s'agit de son antagoniste.
- Pronateurs du coude :
 - Le carré pronateur a été mesuré une seule fois en électromyographie intramusculaire ([36]). Sa position profonde dissuade d'utiliser de l'électromyographie de surface pour le mesurer. Or, sa position isolée des autres muscles empêche toute diaphonie et en fait au contraire un muscle très facile à mesurer par EMG de surface.
 - Le rond pronateur n'a jamais été mesuré, à notre connaissance, chez les enfants avec une paralysie cérébrale. Bien que surfacique, ce muscle peut être compliqué à localiser chez une population pédiatrique. De plus, de par sa proximité à de nombreux autres muscles, il faut s'assurer que son signal n'est pas trop parasité.
- Supinateurs du coude :
 - Le biceps (voir ci-dessus).
 - Le supinateur : comme il s'agit d'un muscle profond impossible à mesurer en électromyographie de surface, il n'a jamais été mesuré, à notre connaissance, chez les enfants avec une paralysie cérébrale.

Ainsi, l'activation de ces muscles (excepté du supinateur) a été mesurée par électromyographie de surface, à l'aide de deux systèmes sans fil d'électromyographie de surface : FreeEMG300 (BTS, Milan, Italy) pour les premières expérimentations puis Cometa ZeroWire (Cometa, Milan, Italy), avec une fréquence d'acquisition de 1,000Hz.

Des électrodes de surface à usage unique Ag/AgCl avec un diamètre d'enregistrement de 10mm ont été utilisées avec ces systèmes (Covidien, Mansfield, MA, USA et LTT FIAB Vicchio, Firenze, Italy).

Pour déterminer le placement des électrodes, chaque muscle a été palpé [79] pendant des contractions volontaires isométriques contre résistance manuelle de :

- Flexion du coude avec le coude en supination pour le biceps [30]. Les contours du biceps brachial peuvent aisément être sentis quand le muscle est contracté (Figure 13).
- Flexion du coude avec le coude en pronosupination neutre pour le brachioradialis [78]. Son relief devient alors très distinct, situé juste à côté du pli du coude (Figure 13).
- Flexion du coude avec le coude en pronation pour le brachialis, avec une électrode placée sur le côté latéral du bras comme conseillé par [78] (Figure 14).
- Extension du coude pour le triceps [30].
- Pronation du coude pour le rond pronateur [80], [81]. Le rond pronateur peut alors facilement être palpé en partant du pli du coude (Figure 13).
- Pronation du coude pour le pronateur carré, cependant ce muscle ne peut être palpé comme il est situé en profondeur. Les électrodes ont été placées sur la face antérieure du poignet, perpendiculairement à l'avant-bras [79], [80].

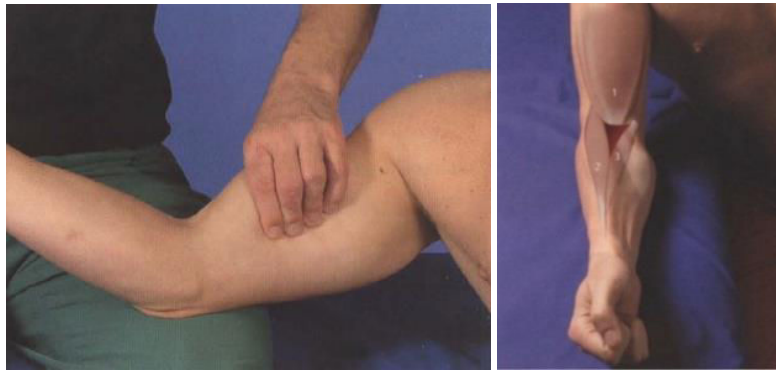


Figure 13. Gauche : Palpation du biceps brachial [28] ; Droite : Position du pli du coude délimité par le biceps (1), le brachioradial (2), et le rond pronateur (3) [28]

Pour chaque muscle, les électrodes de surface ont été placées sur la partie du muscle la plus saillante (Figure 14).

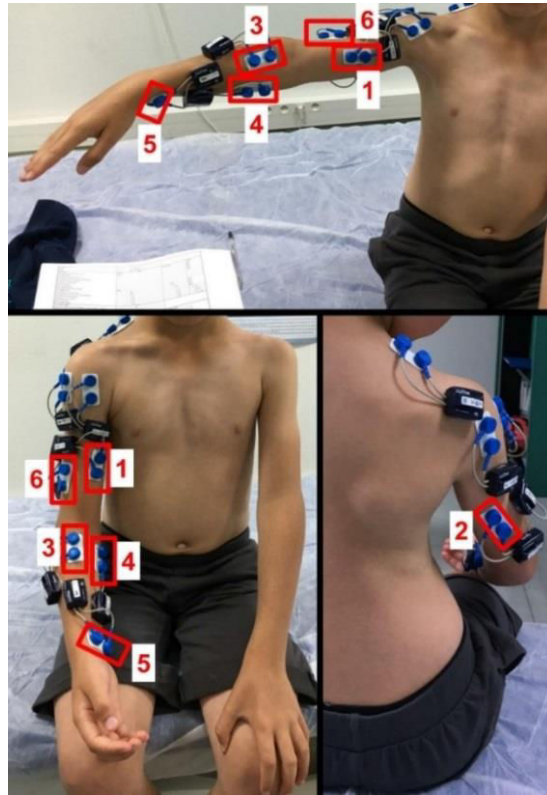


Figure 14. Enfant équipé d'électrodes d'électromyographie de surface placées sur (1) le biceps brachii, (2) le triceps brachii, (3) le brachioradialis, (4) le rond pronateur, (5) le carré pronateur, (6) le brachialis.

Pour certains enfants, les muscles deltoïde antérieur, moyen, postérieur et trapèze ont été ajoutés, cependant ces données n'ont pas été traitées dans le cadre de cette thèse.

3.1.3. PROTOCOLE EXPERIMENTAL

Les protocoles ont légèrement évolué entre Montréal et Nantes : à Montréal, les enfants à développement typique ont été équipés au bras dominant, puis l'expérimentation a été répétée pour le bras non dominant. Les enfants avec une PCUS ont été équipés au bras atteint, puis au bras non atteint. Cependant la durée du protocole était de plus de 3h, et il a été observé que les performances du second bras mesuré étaient dégradées, à cause de la fatigue de l'enfant. A la suite de ces observations, seul un bras a été équipé à Nantes, réduisant le temps du protocole à 1h-1h30. Pour les enfants à développement typique, le bras dominant ou non dominant a été choisi aléatoirement pour l'acquisition du mouvement, tandis que pour les enfants avec une PCUS, le bras atteint a naturellement été choisi. Bien que choix discutable, c'est la raison pour laquelle le bras analysé des enfants à développement typique dans les Articles 1 et 2 ([64], [65]) est le bras dominant.

Le protocole expérimental s'est déroulé selon les étapes suivantes :

1. Des mesures anthropométriques (poids, taille, longueurs, circonférences et largeurs du bras, de l'avant-bras et de la main) ont été prises sur le bras mesuré des enfants. Ces données sont nécessaires au modèle cinématique du membre supérieur utilisé pour calculer les angles, vitesses et accélérations des différents segments [67].

2. Les enfants ont été équipés des différentes électrodes de sEMG et de cinématique.

2.BIS. Les enfants du groupe « Reproductibilité » (11 enfants PCUS, 12 enfants DT) ont réalisé 3 contractions maximales volontaires isométriques contre résistance manuelle de quelques secondes pour les mouvements suivants : flexion, extension, pronation, supination du coude ; flexion, extension, abduction de l'épaule ; élévation des deux épaules.

3. Les enfants ont été installés sur des bancs de kinésithérapie à hauteur ajustable pour avoir les deux pieds à plat au sol et les genoux fléchis à 90°.

4. Les enfants ont posé leur bras sur leur genou et se détendre le plus possible pendant quelques secondes, afin de mesurer l'activation musculaire du bras au repos.

5. Les enfants ont réalisé deux mouvements du coude et de l'épaule nécessaires au modèle cinématique pour raffiner la position des centres articulaires et des axes articulaires du coude et de l'épaule [67]: pour le coude, un enchaînement de trois flexion/extension, trois pronosupinations, et trois circonductions. Pour l'épaule, un enchaînement de trois flexion/extensions, trois abduction/adductions et trois circonductions. Quand les enfants n'arrivaient pas à réaliser ces mouvements en actif, ils étaient réalisés en passif à l'aide d'une personne tierce.

6. Les enfants ont réalisé des mouvements du membre supérieur, cette fois-ci exclusivement en mouvement actif :

- des cycles de flexion/extension du coude à 3 fréquences de mouvement différentes (0.35Hz, 0.50Hz, 0.65Hz)
- des cycles de pronosupination du coude à 3 fréquences de mouvement différentes (0.35Hz, 0.50Hz, 0.65Hz).
- des cycles de « main à la bouche » à vitesse libre (non traités dans cette thèse).

Pendant ces mouvements, les enfants n'étaient pas contraints mais devaient utiliser le moins de compensations possibles.

Les fréquences de mouvement ont été imposées à l'aide d'un métronome qui émettait un bip que l'enfant devait synchroniser avec chaque amplitude maximale (par exemple de flexion ou d'extension du coude). L'expérimentateur effectuait les mouvements simultanément pour aider les enfants à suivre le rythme du métronome. Une motivation orale accompagnant le mouvement était ajoutée au besoin (« en haut », « en bas », etc.). Au besoin, les enfants pouvaient faire quelques cycles d'entraînement avant acquisition des mouvements.

Des temps de repos étaient donnés aux enfants quand ils en sentaient le besoin.

3.1.3.1. CHOIX DES MOUVEMENTS

Parmi les 23 articles publiés avec mesure d'activation musculaire du membre supérieur des enfants PC, on retrouve deux catégories de mouvements demandés, incluant des mouvements du coude :

Des mouvements à un degré de liberté (9 articles) :

- Flexion/extension du coude [26], [35], [36], [40], [46], [50], [52], [53], [55].
- Pronosupination du coude [26], [36].

Des mouvements à plusieurs degrés de liberté (13 articles) :

- Reaching [41], [42], [47], [57], [58], [61].
- Reaching et grasping [26], [56].
- Déplacement d'une cuillère [43].
- Test du Pegboard [48].
- Faire tourner une roue horizontale à l'aide d'un levier [49], [51].
- Lancer une balle de tennis [56].

Dans ce protocole nous avons fait le choix de nous concentrer sur des mouvements à un degré de liberté du coude, pour plusieurs raisons :

- Limiter les mouvements du poignet et de la main permet de réduire le risque de diaphonie avec d'autres muscles de l'avant-bras que ceux mesurés, c'est-à-dire le brachioradialis et les pronateurs.

- L'objectif est d'évaluer la reproductibilité des signaux EMG, et le choix de mouvements à plusieurs degrés de liberté augmente la possibilité pour les enfants d'utiliser des mouvements compensatoires, par conséquent plus variables.

Il pourrait être critiqué que les mouvements choisis ne soient pas fonctionnels, cependant l'objectif de cette thèse était de réaliser avant tout une quantification des activations pathologiques. En perspective, des études futures permettront d'établir un diagnostic fonctionnel des capacités motrices de l'enfant.

3.1.3.2. CHOIX D'UNE VITESSE DE MOUVEMENT IMPOSEE

Un mouvement à vitesse imposée permet d'homogénéiser les conditions expérimentales et de souligner les différences cinématiques et musculaires entre les participants [43]. De plus, il a clairement été montré dans la littérature que la vitesse du mouvement a une forte influence sur l'activation musculaire [11], [15], [63], [82], c'est pourquoi les mouvements de flexion/extension et de pronosupination du coude ont été demandés à 3 vitesses différentes. Sur les 23 articles publiés avec mesure d'activation musculaire du membre supérieur des enfants PC, seuls 4 articles ont imposé une vitesse de mouvement ([35], [43], [50], [53]). Cette vitesse peut être imposée de différentes manières :

- A l'aide d'un appareil d'isocinétisme tel qu'un Biodex ([50], [53]), qui permet d'imposer directement une vitesse en °/s mais qui présente l'inconvénient de contraindre le mouvement (et d'être un appareil imposant).
- A l'aide d'un métronome, qui permet d'imposer une fréquence de mouvement en Hz ([35], [43]). Un inconvénient d'imposer une fréquence de mouvement plutôt qu'une vitesse est que pour deux enfants ayant des amplitudes de mouvement différentes, la vitesse réelle du mouvement sera différente. En vue de la méthodologie utilisée ici, le métronome semblait toutefois la solution la plus simple et pratique, dans l'optique d'appliquer ce protocole en clinique. Les fréquences choisies sont inspirées de [35]. Le choix a été fait d'une fréquence haute inférieure à 1Hz (=0.65Hz) afin que tous les enfants recrutés puissent réaliser les mouvements à cette fréquence.

3.2. TRAITEMENT DES DONNEES

Des routines Matlab (Mathworks, Natick, MA, USA) ont été utilisées pour le traitement des données, ainsi que la bibliothèque libre Biomechanical Toolkit [83].

3.2.1. CALCUL DES ANGLES ARTICULAIRES

Le modèle du membre supérieur développé par [67] décrit 20 degrés de liberté (Figure 15). Il inclut un modèle de l'avant-bras en boucle fermée, qui distingue les deux segments du radius et de l'ulna. Grâce à cela, les angles de flexion/extension et de pronosupination du coude peuvent être obtenus avec une amélioration de précision de 30% en comparaison avec les modèles du membre supérieur classiques [67]. Les angles, vitesses, et accélérations pour tous les degrés de liberté sont obtenus à partir des coordonnées cartésiennes des marqueurs passifs, grâce à un processus de cinématique inverse combiné à une optimisation globale [84].

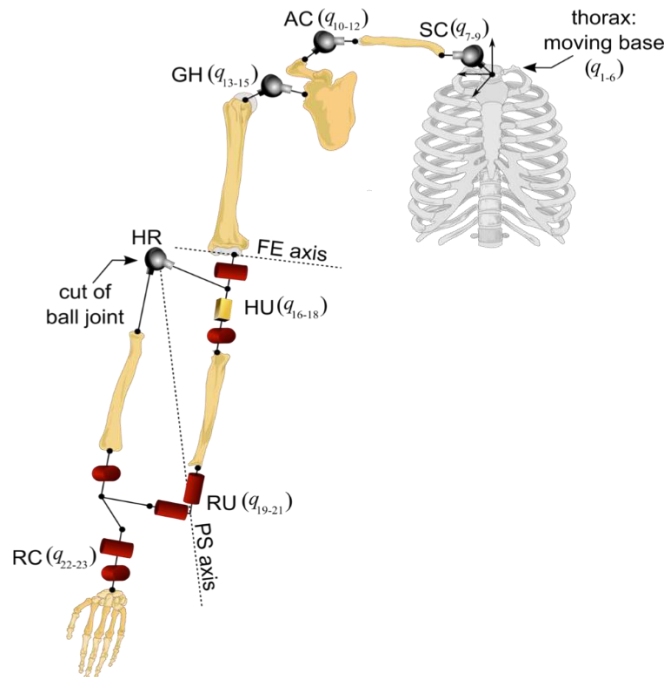


Figure 15. Modèle cinématique du membre supérieur développé par [67].

Cette thèse ne traitera pas du fonctionnement du code de calcul des angles articulaires. Se référer à [67] pour plus d'informations sur le modèle.

3.2.2. TRAITEMENT DU SIGNAL EMG

Le signal EMG est un signal brut, qui nécessite plusieurs étapes de traitement.

Afin d'illustrer ces étapes de traitement, nous allons visualiser le signal du biceps d'un enfant à développement typique pendant des cycles de pronosupination du coude (Figure 16).

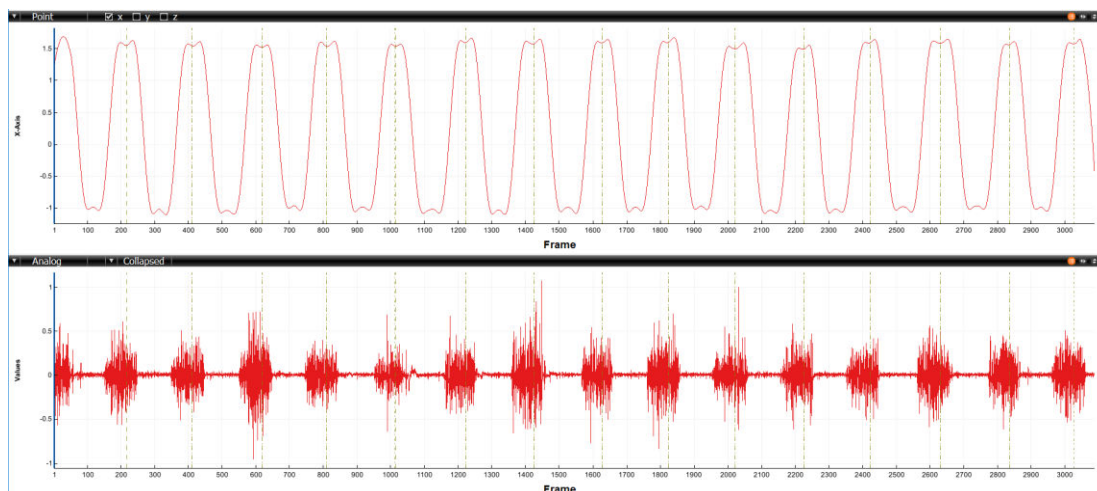


Figure 16. Cycles de pronosupinations du coude d'un enfant sain (vitesse 0.50Hz). Les traits pointillés représentent les instants de supination maximale. Haut : Angle de supination(+)/pronation(-) du coude (radians). Bas : Signal EMG brut du biceps brachii (supinateur).

La première étape consiste à filtrer le signal avec un filtre passe-bande. La fréquence de coupure basse permet de filtrer les artéfacts de mouvement. Pour cette fréquence basse, plusieurs recommandations existent, comprises entre 5Hz et 20Hz :

- Les recommandations de l'International Society of Electrophysiology and Kinesiology, d'utiliser une fréquence de coupure de 20Hz [85].
- Les « Standards for Reporting EMG Data » qui recommandent 5Hz [86].
- Les recommandations du Journal of Electromyography and Kinesiology d'utiliser une fréquence de 10Hz.
- Les recommandations de la SENIAM (Surface EMG for Non Invasive Assessment of Muscles) d'utiliser une fréquence entre 10Hz et 20Hz [87].

La fréquence basse choisie dans cette étude est de 10Hz, conformément aux recommandations du Journal of Electromyography and Kinesiology et de la SENIAM [87]. D'un autre côté, la fréquence de coupure haute élimine les bruits induits par les divers signaux électromagnétiques qui nous entourent. La

fréquence de coupure haute est recommandée entre 400Hz et 450Hz, pour une fréquence d'acquisition de 1000Hz [88]. Le filtre passe bande choisi est donc 10-450Hz, réalisé à l'aide d'un filtre Butterworth d'ordre 4 sans décalage. Ensuite, les signaux EMG sont rectifiés, c'est-à-dire que seule la valeur absolue des signaux est conservée (Figure 17).

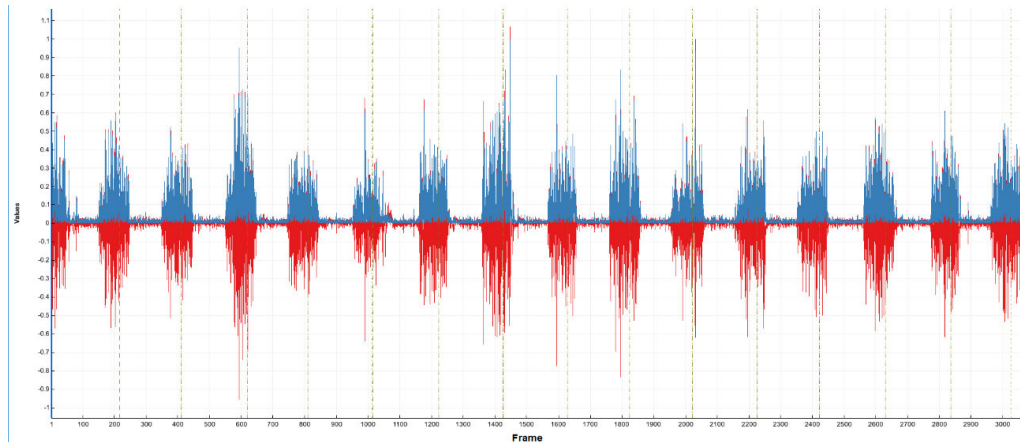


Figure 17. Activation musculaire du biceps brachii (supinateur) pendant des cycles de pronosupinations du coude d'un enfant sain (vitesse 0.50Hz). Les traits pointillés représentent les instants de supination maximale. Rouge : Signal EMG brut. Bleu : Signal EMG rectifié.

Ensuite, le signal EMG est filtré avec un filtre passe-bas (filtre Butterworth d'ordre 2 sans décalage) avec une fréquence de coupure variant d'environ 5Hz à 50Hz selon les études, pour obtenir une enveloppe du signal qui permet d'interpréter visuellement l'activation du muscle. Il a été montré qu'un filtrage excessif des données avait pour conséquence une perte d'informations et l'apparition d'erreurs de détection des temps d'activation des muscles [89]. A l'inverse, un manque de filtrage des données avait pour conséquence de détecter des variations en amplitude importantes mais très courtes dues aux hautes fréquences, ne correspondant pas à des activations « physiologiques » [89]. Dans cette étude, nous avons fait le choix d'utiliser une fréquence de coupure de 50Hz, afin de conserver une quantité suffisante d'informations du signal EMG, comme recommandé par [89] (Figure 18).

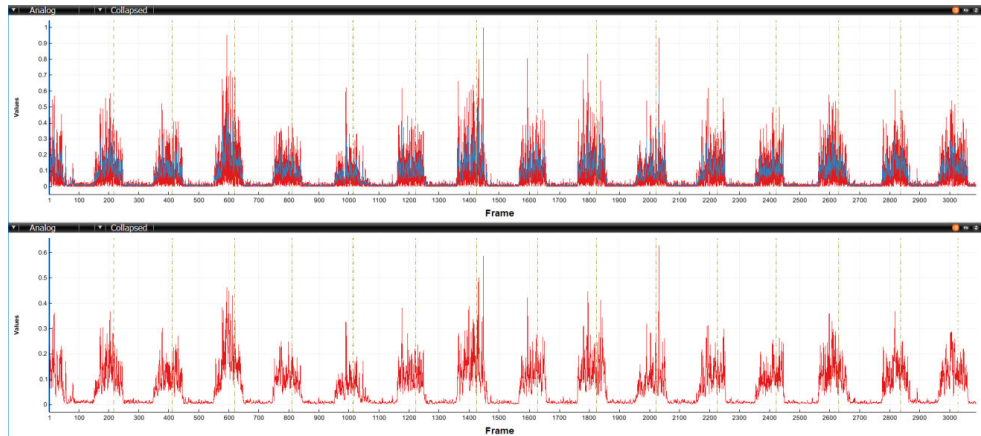


Figure 18. Activation musculaire du biceps brachii (supinateur) pendant des cycles de pronosupinations du coude d'un enfant sain (vitesse 0.50Hz). Les traits pointillés représentent les instants de supination maximale. Haut/Rouge : Signal EMG rectifié. Haut/Bleu et Bas: Signal EMG filtré (50Hz).

L'étape suivante consiste à calculer le seuil d'activation du signal EMG, c'est-à-dire la limite qui détermine si le muscle est en effet actif ou bien s'il est au repos et si le signal EMG visualisé est en réalité du « bruit ». Cette étape, rarement effectuée dans la littérature, est très importante, puisque le « bruit » du signal EMG est très dépendant :

- Du muscle : un muscle très superficiel, situé directement sous la peau du patient n'aura que très peu de bruit en comparaison avec un muscle situé sous une couche adipeuse.
- Du patient : l'épaisseur de la peau, la condition de la peau, la couche adipeuse, etc. sont des critères ayant un impact direct sur le « bruit » du signal EMG.

Cependant, évaluer le niveau de « bruit » du signal EMG est une étape délicate. La solution couramment choisie [89], [90] est d'utiliser le niveau du signal EMG mesuré au repos pour calculer le seuil d'activation. Cependant, même au repos, le signal EMG est variable. La solution choisie ici a été de calculer l'écart-type ($\mu[V]$) de chaque fenêtre de 300ms du signal EMG mesuré au repos, afin de localiser la fenêtre avec le plus petit écart-type, et ce pour chaque muscle. La moyenne ($\sigma[V]$) et l'écart-type de cette fenêtre ont ensuite été utilisés pour calculer le seuil d'activation ($T[V]$) selon la formule suivante :

$$T = \mu + h * \sigma$$

Avec $h=3$ comme recommandé par [89]. Cette méthode permet d'être assez précis dans le calcul du seuil d'activation, cependant certaines exceptions ont empêché l'utilisation de cette formule :

- Non-respect de la consigne du repos : rappelons que nos participants étaient des enfants, certains très jeunes (6 ans), et obtenir un vrai repos pouvait être délicat.

- Présence d'un tonus musculaire excessif dû aux troubles sensorimoteurs des enfants avec une paralysie cérébrale qui entraînait un seuil trop grand non réaliste.

Ainsi, pour chaque muscle de chaque participant, le seuil « automatique » était calculé, visualisé et ajusté si-besoin manuellement. Cet ajustement se faisait à l'aide de la visualisation du signal EMG lors d'essais dynamiques pour lesquels le muscle était supposément actif et lors d'essais dynamiques pour lesquels le muscle était supposément inactif. Sur Matlab, une routine permettait de délimiter à l'aide d'une barre horizontale le seuil d'activation désiré, en comparaison avec celui calculé automatiquement. Ensuite, le signal EMG est diminué de la valeur du seuil d'activation (Figure 19).

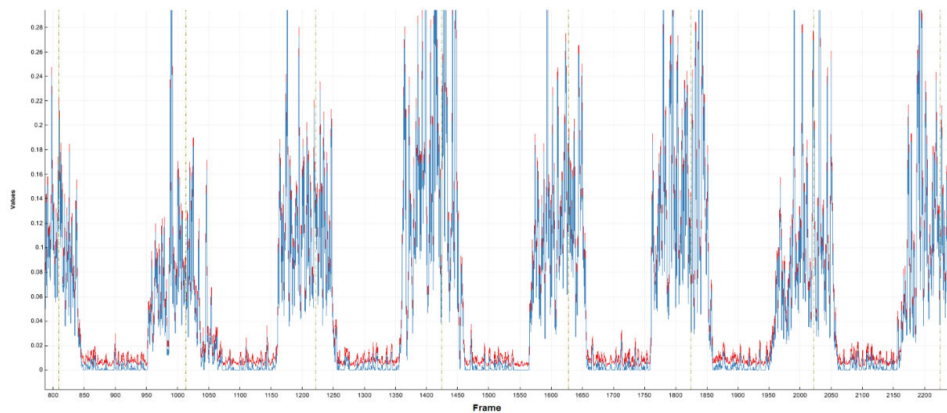


Figure 19. Activation musculaire du biceps brachii (supinateur) pendant des cycles de pronosupinations du coude d'un enfant sain (vitesse 0.50Hz). Les traits pointillés représentent les instants de supination maximale. Rouge : Signal EMG filtré (50Hz). Bleu : Signal EMG filtré diminué de la valeur du seuil d'activation.

3.2.2.1. NORMALISATION TEMPORELLE DU SIGNAL EMG

L'étape suivante consiste à normaliser les signaux EMG sur un cycle de mouvement, divisé en 100 points. Ce cycle peut correspondre à une flexion/extension du coude ou à une pronosupination du coude (Figure 20). Les cycles sont divisés manuellement par le même expérimentateur, à l'aide des courbes cinématiques. Plusieurs méthodes de détection automatique des maximums locaux ont été testées sur les données cinématiques, sans succès, à cause des plateaux/multi-pics de ces données selon les enfants. Un découpage manuel a donc été préféré, de la même manière que lors de l'analyse de la marche.

Puis, seulement certains cycles sont conservés lors de l'analyse. Ils sont choisis en fonction de plusieurs critères, tels que le bon respect de la consigne (fréquence du mouvement et amplitude maximale active), absence de fatigue observée, absence d'interférences de mouvement non filtrables, etc.

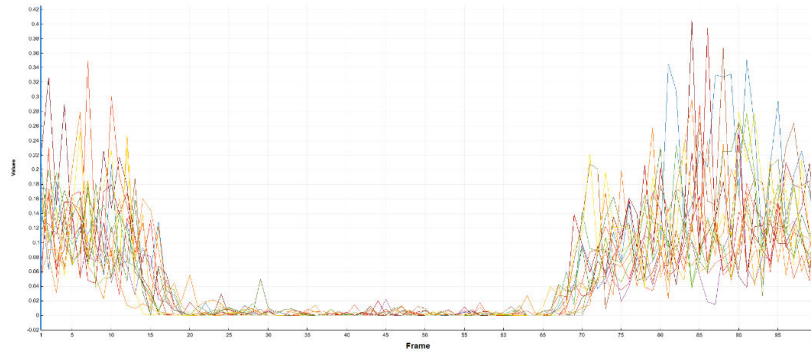


Figure 20. Signal EMG du biceps brachii (supinateur) pendant 14 cycles choisis de pronosupinations du coude d'un enfant sain (vitesse 0.50Hz). 0% et 100% du cycle correspondent à une supination maximale.

3.2.2.2. NORMALISATION EN AMPLITUDE DU SIGNAL EMG

La comparaison directe des valeurs EMG entre individus ou entre muscles d'un même individu est impossible à cause des différences anthropomorphiques et des différences de sites de positionnement d'électrodes EMG. Il faut donc utiliser une normalisation en amplitude ([29], [91]). Cette normalisation consiste généralement à diviser les signaux EMG pendant une tâche par une valeur de référence obtenue pour le même muscle [92]. De nombreuses méthodes existent, seuls quelques exemples sont présentés ci-dessous :

Normalisation par MVC (Figure 21) :

La méthode la plus courante utilisée chez les adultes sains est la normalisation par Contractions Maximales Isométriques Volontaires (MVIC) ([93]–[96]): on demande au sujet de produire 3 MVIC de quelques secondes du mouvement pour lequel le muscle mesuré est agoniste. La moyenne de l'activation générée pendant ces 3 essais représente alors son MVC. Les autres niveaux d'activation produits sont ensuite exprimés en % relativement à ce maximum, et plus en volts. Cette méthode dépend toutefois de la bonne volonté des personnes. Comment savoir si une personne a bien fourni un effort maximal ? Est-ce que cet effort maximal est reproductible au cours du temps ? Ceci est particulièrement à considérer avec les enfants avec une PCUS qui présentent des difficultés à produire et à reproduire des MVC, à cause de leur faiblesse musculaire et de leur spasticité [13]. Cette méthode de normalisation peut ne pas être adaptée à une population pédiatrique pathologique. Dans notre cas, la normalisation MVC a été étudiée chez 11 enfants PCUS et 12 enfants DT qui ont réalisé 3 contractions maximales volontaires isométriques contre résistance manuelle de quelques secondes pour les mouvements suivants : flexion, extension, pronation, supination du coude ; flexion, extension, abduction de l'épaule ; élévation des deux épaules (Article 3 [66]).

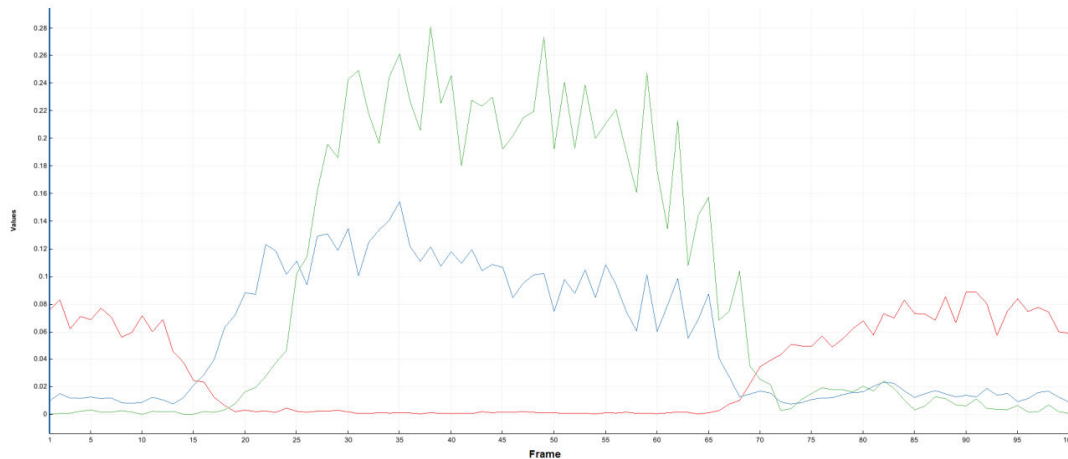


Figure 21. Signal EMG normalisé par MVC du biceps brachii (rouge), du rond pronateur (bleu) et du carré pronateur (vert) pendant un cycle moyen de pronosupination du coude d'un enfant sain (vitesse 0.50Hz). 0% et 100% du cycle correspondent à une supination maximale. Pour cet enfant, on peut dire que l'activation maximale du biceps en supination correspond à 8% de sa MVC ; l'activation maximale du rond pronateur en pronation correspond à 14% de sa MVC ; l'activation maximale du carré pronateur en pronation correspond à 28% de sa MVC.

Normalisation par le pic maximal obtenu lors d'essais dynamiques (Figure 22):

Une méthode de normalisation souvent utilisée pour la population pédiatrique pathologique est de normaliser chaque muscle étudié par l'amplitude maximale de ce muscle mesurée dans tous les essais analysés, pour un même positionnement d'électrodes [15]. Il a été montré que cette méthode permet de réduire la variabilité entre les individus en comparaison avec des signaux non normalisés ou normalisés par MVIC [97]–[100]. Il est important de noter que cette réduction de variabilité entre les individus est réalisée en supprimant des réelles différences physiologiques entre les individus, par exemple des différences de force musculaire [99], [101]. Cependant, l'objectif que nous avons ici n'est pas de mesurer la force musculaire des individus, mais de comparer les patterns d'activation musculaire entre individus, ce qui n'est pas impacté par l'utilisation de cette méthode de normalisation [99]–[101].

Cette méthode a cependant plusieurs inconvénients :

- Elle peut être faussée par un pic excessif d'activation musculaire, par exemple à cause d'interférences de mouvement
- Elle est très dépendante des mouvements étudiés.

Dans notre cas, cette méthode de normalisation a été utilisée dans les articles 1, 2 et 3 [64]–[66]. Les mouvements étudiés étaient les flexion/extensions du coude à 0.50Hz et les pronosupinations du coude à

0.50Hz pour les études (Article 1 et 3 [65], [66]). Les mouvements réalisés aux trois vitesses 0.35Hz , 0.50Hz, et 0.65Hz ont été utilisés pour l'étude (Article 2 [64]).

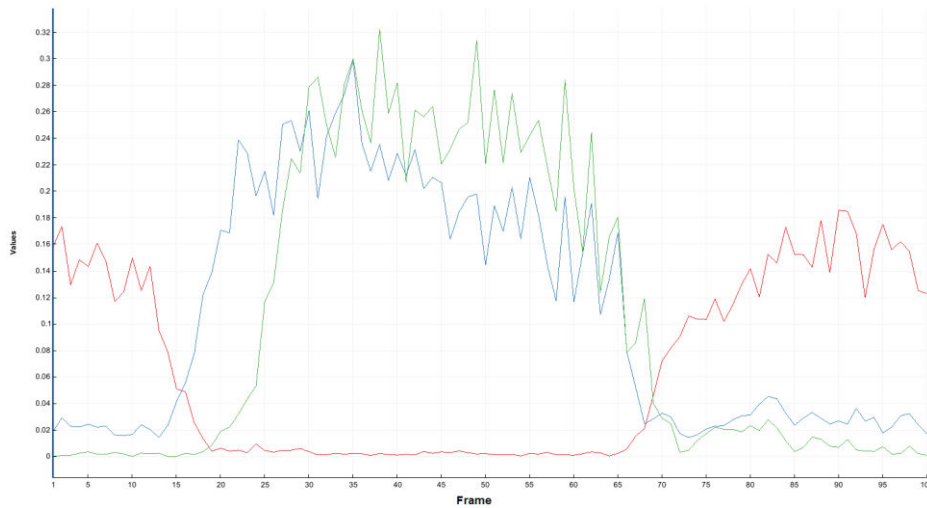


Figure 22. Signal EMG normalisé par le pic maximal des essais de flexion/extension et de pronosupination (0.50Hz) du biceps brachii (rouge), du rond pronateur (bleu) et du carré pronateur (vert) pendant un cycle moyen de pronosupination du coude d'un enfant sain (vitesse 0.50Hz). 0% et 100% du cycle correspondent à une supination maximale. Pour cet enfant, on peut dire que l'activation maximale du biceps en supination correspond à 18% de son pic maximal; l'activation maximale du rond pronateur en pronation correspond à 30% de son pic maximal ; l'activation maximale du carré pronateur en pronation correspond à 32% de son pic maximal.

Normalisation par le pic moyen obtenu lors d'essais dynamiques (Figure 23) :

Une autre méthode de normalisation consiste à normaliser chaque muscle étudié par l'amplitude maximale moyenne de ce muscle mesurée dans tous les mouvements analysés. Cette méthode est dépendante des mouvements étudiés, mais est moins sensible à des pics excessifs d'activation musculaire causés par des interférences de mouvement.

Dans notre cas, cette méthode de normalisation a été utilisée pour les articles 3 [66] et 4 [soumis]. Les mouvements étudiés étaient les flexion/extensions du coude à 0.50Hz et les pronosupinations du coude à 0.50Hz (articles 3 [66] et 4 [soumis]).

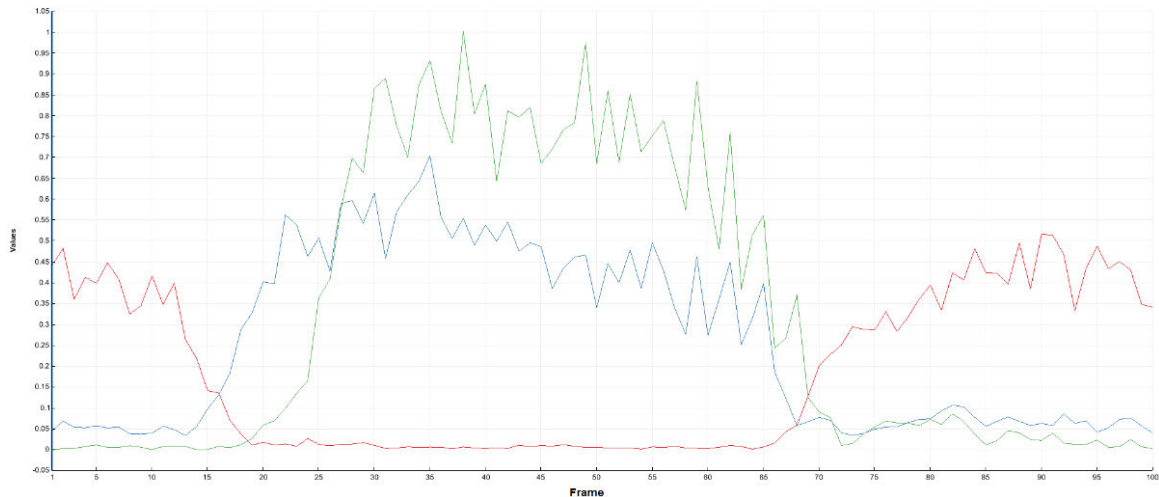


Figure 23. Signal EMG normalisé par le pic maximal moyen des essais de flexion/extension et de pronosupination (0.50Hz) du biceps brachii (rouge), du rond pronateur (bleu) et du carré pronateur (vert) pendant un cycle moyen de pronosupination du coude d'un enfant sain (vitesse 0.50Hz). 0% et 100% du cycle correspondent à une supination maximale. Pour cet enfant, on peut dire que l'activation maximale du biceps en supination correspond à 50% de son pic maximal moyen; l'activation maximale du rond pronateur en pronation correspond à 70% de son pic maximal moyen ; l'activation maximale du carré pronateur en pronation correspond à 100% de son pic maximal moyen.

Le choix de la méthode de normalisation en amplitude a une forte influence sur les signaux EMG (Figure 21, Figure 22, Figure 23), et il n'y a à l'heure actuelle pas de consensus sur la méthode à utiliser [102]. Il est donc important avant de comparer des signaux EMG de s'assurer qu'ils ont été traités de la même manière.

3.2.3. INTERPRETATION DU SIGNAL EMG

La détection des anomalies de commande musculaire au membre supérieur chez une population d'enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique peut s'effectuer en analysant de nombreux paramètres différents extraits des signaux EMG filtrés et normalisés.

Ainsi, parmi les 20 articles ayant pour objectif d'analyser les activations pathologiques dans le membre supérieur des enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique ([21], [26], [50]–[58], [61], [35], [36], [40], [43], [45], [46], [48], [49]), on retrouve 12 méthodes différentes de détection à partir des signaux EMG. Ces méthodes de détection peuvent être des analyses muscle par muscle, par paires de muscles antagonistes, ou bien des analyses globales de l'ensemble des muscles mesurés :

3.2.3.1. ANALYSE MUSCLE PAR MUSCLE

Observation visuelle des signaux :

Cette méthode se retrouve dans les articles [21], [35], [36], [40], [45], [52], la plupart d'entre eux étant les premiers articles publiés fin des années 1970. En effet, il était fréquent au début de l'EMG d'« observer » visuellement les signaux EMG et de déterminer par expérience si un muscle s'activait correctement ou pas. Cependant, cette méthode est très subjective et les résultats peuvent être variables d'un expérimentateur à l'autre. Dans l'objectif d'établir une méthodologie homogène pouvant être exportée dans d'autres laboratoires, elle n'a pas été retenue dans cette thèse. Cependant, une analyse de l'enveloppe linéaire associée à une méthode de détection statistique a été utilisée dans les articles 3 [66] et 4 [soumis].

Quantité d'activation d'un muscle :

Cette méthode se retrouve couramment, dans les articles [26], [43], [56], [48]–[55]. La quantité d'activation d'un muscle se traduit par l'aire sous la courbe de son signal EMG traité et normalisé (donc en %). On peut extraire la quantité d'activation agoniste d'un muscle (par exemple du biceps pendant la flexion du coude), la quantité d'activation antagoniste d'un muscle (par exemple du biceps pendant l'extension du coude), ou encore la quantité d'activation totale d'un muscle (du biceps pendant le cycle entier de flexion/extension). Cette méthode est intéressante, mais elle a deux inconvénients majeurs : elle est très dépendante de la méthode de normalisation choisie, et elle perd la dimension temporelle du signal. Ainsi, deux signaux EMG, l'un avec une activation moyenne continue et l'autre avec une forte et courte bouffée d'activation, pourront avoir la même quantité d'activation. De la même manière, deux signaux EMG de forme équivalente mais avec des bouffées décalées dans le temps pourront avoir la même quantité d'activation. Comme nous nous intéressons essentiellement à la co-activation spastique, l'aspect temporel de l'activation musculaire est primordial. Cette méthode n'a donc pas été retenue dans cette thèse.

Durée d'activation agoniste ou antagoniste d'un même muscle :

Cette méthode se retrouve dans les articles [49], [51]. La durée d'activation agoniste ou antagoniste d'un muscle, calculée en % de cycle du mouvement, est une donnée importante qui peut mettre en évidence une durée excessive d'activation musculaire souvent présente dans la PCUS. De plus, elle n'est pas dépendante de la méthode de normalisation EMG choisie. Cependant, elle ne donne pas d'informations sur l'instant d'activation du muscle. Cette méthode a été retenue dans l'article 1 [65].

Rapport activation antagoniste / activation agoniste d'un même muscle :

Cette méthode se retrouve dans l'article [53]. Elle consiste à calculer la quantité d'activation d'un muscle en tant qu'antagoniste, et en tant qu'agoniste, et à calculer le rapport de ces deux quantités. Cette méthode est très intéressante car elle est complètement indépendante de la méthode de normalisation EMG choisie. Cependant, ce rapport peut devenir très grand si l'activation agoniste est faible. Ce rapport peut également sous-estimer l'activation antagoniste si l'activation agoniste est grande. Cette méthode n'a pas été retenue dans cette thèse.

Instant d'activation maximale :

En complément à la durée d'activation agoniste ou antagoniste d'un muscle, l'instant d'activation maximale a été utilisé dans l'article 1 [65]. Ce paramètre permet d'évaluer l'instant du cycle où le muscle est le plus actif, et est intéressant pour détecter une activation musculaire précoce ou retardée, souvent présente dans la PCUS. De plus, ce paramètre est indépendant de la méthode de normalisation EMG choisie.

3.2.3.2. ANALYSE DE DEUX MUSCLES ANTAGONISTES

De nombreux paramètres sont utilisés dans la littérature pour calculer la co-activation spastique de deux muscles antagonistes, c'est-à-dire leur activation commune. Ainsi, parmi les 20 articles ayant pour objectif d'analyser les activations pathologiques dans le membre supérieur des enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique, 5 articles ont calculé la co-activation spastique de deux muscles antagonistes, avec 5 méthodes utilisées (7 méthodes décrites). La plupart de ces méthodes conservent l'aspect temporel des signaux EMG, c'est-à-dire la synchronicité d'activation des 2 muscles antagonistes, primordial puisque directement dans la définition de la « co-activation » de deux muscles.

Rapport activation muscle antagoniste / activation muscle agoniste :

Cette méthode est décrite par [46] et utilisée par [26], [56], [57]. Elle présente de nombreux inconvénients : elle dépend de la méthode de normalisation EMG choisie, elle ne conserve pas l'aspect temporel des signaux EMG, ce rapport peut devenir très grand si l'activation du muscle agoniste est faible, et ce rapport peut également sous-estimer l'activation du muscle antagoniste si l'activation du muscle agoniste est grande. Cette méthode n'a pas été retenue dans cette thèse.

Multiplication du signal agoniste*antagoniste :

Méthode utilisée dans l'article [46]. Ce paramètre conserve bien l'aspect temporel des signaux EMG, cependant il présente un inconvénient majeur de ne pas correspondre à une grandeur physiologique. Cette méthode n'a pas été retenue dans cette thèse.

Valeur minimale d'activation entre un muscle agoniste et un muscle antagoniste :

Méthode utilisée dans l'article [46]. Cette grandeur est intéressante puisqu'elle conserve l'aspect temporel des signaux EMG, cependant elle est très dépendante de la méthode de normalisation utilisée. Cette méthode n'a pas été retenue dans cette thèse.

Valeur minimale d'activation entre un muscle agoniste et un muscle antagoniste / valeur maximale d'activation entre un muscle agoniste et un muscle antagoniste :

Cette méthode est décrite par [46]. Elle est intéressante puisqu'elle conserve l'aspect temporel des signaux EMG, cependant elle est très dépendante de la méthode de normalisation utilisée. De plus, ce rapport peut sous-estimer la co-contraction quand l'activité de l'agoniste est grande.

Différence d'activation entre l'agoniste et l'antagoniste / somme d'activation agoniste + antagoniste :

Cette méthode est décrite par [46]. Cette méthode est intéressante puisqu'elle conserve l'aspect temporel des signaux EMG, et ne dépend pas de la méthode de normalisation utilisée. Cependant, ce paramètre ne correspond pas à une grandeur physiologique explicable.

Valeur minimale d'activation entre un muscle agoniste et un muscle antagoniste / somme d'activation agoniste + antagoniste :

L'indice de co-activation utilisé dans cette thèse, et plus particulièrement dans les articles 1 et 2 [64], [65], est basé sur l'indice développé par Falconer et Winter en 1985 [103]. Cet indice est le plus pertinent car il ne dépend pas de la méthode de normalisation EMG, conserve l'aspect temporel des activations musculaires, et correspond à la grandeur physiologique du « pourcentage d'activation commune » des deux muscles antagonistes. Cette grandeur n'a jamais été utilisée pour les membres supérieurs des enfants avec une PCUS.

Pourcentage d'activation d'un muscle sans activation d'un muscle antagoniste :

Cette méthode est utilisée dans l'article [56]. Elle est intéressante car indépendante de la méthode de normalisation EMG, et elle conserve l'aspect temporel des activations musculaires. Cependant, cette méthode n'a pas été retenue dans cette thèse puisque l'indice de Falconer and Winter [103] semblait plus pertinent.

Durée de co-activation de deux muscles antagonistes :

Cette méthode a été utilisée dans l'article [43]. Elle est très intéressante car indépendante de la méthode de normalisation EMG, et elle conserve l'aspect temporel des activations musculaires. Cependant, cette

méthode n'a pas été retenue dans cette thèse puisque l'indice de Falconer and Winter [103] semblait plus pertinent.

3.2.3.3. ANALYSE GLOBALE MUSCULAIRE

Synergies musculaires :

Cette méthode est utilisée dans l'article [61]. L'analyse des synergies musculaires englobe l'ensemble des signaux EMG mesurés. Comme l'objectif de cette thèse était de développer un protocole d'analyse de l'activation et de la co-activation musculaire lors de mouvements du coude de l'enfant avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique pouvant être utilisé en clinique, la première étape était d'analyser les signaux EMG des muscles indépendamment, et non comme une seule variable. Cependant, cette méthodologie est très intéressante et a été utilisée dans un « case report » publié en parallèle à cette thèse qui étudiait deux adultes avec une tétraplégie [104].

4. OBJECTIF 1 : CARACTERISATION DES ANOMALIES DE COMMANDE MUSCULAIRE AU MEMBRE SUPERIEUR CHEZ UN GROUPE D'ENFANTS PC

Cette première partie de la thèse décrit la mise en place de l'électromyographie de surface pour l'ensemble des muscles biceps, brachioradialis, brachialis, triceps, rond et carré pronateurs dans une population d'enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale et à DT.

Ainsi, dans un premier temps, une étude de faisabilité a été réalisée chez 13 enfants PC en comparaison avec 13 enfants à DT, pour vérifier que l'EMG du membre supérieur permettait bien de détecter des anomalies de commande musculaire chez une population d'enfants PC, et caractériser ces anomalies de commande.

L'article 1 propose une comparaison des signaux EMG des enfants à DT avec ceux des enfants avec une PCUS. La détection et caractérisation des anomalies de commande musculaire est réalisée à l'aide de plusieurs paramètres extraits des signaux EMG.

L'article 2 va plus loin dans la caractérisation des anomalies de commande des enfants avec une PCUS, en analysant l'effet de la vitesse de mouvement sur ces anomalies de commande.

Une introduction générale de chaque article est présentée expliquant brièvement le cheminement scientifique, les objectifs, la méthode et le résumé des résultats. L'article est ensuite présenté sous sa forme publiée. A la suite de ces deux articles, une discussion est réalisée autour de ces articles.

4.1. ARTICLE 1. IMPACT OF MUSCLE ACTIVATION ON RANGES OF MOTION DURING ACTIVE ELBOW MOVEMENT IN CHILDREN WITH SPASTIC HEMIPLEGIC CEREBRAL PALSY

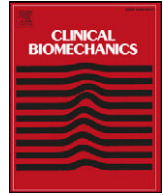
4.1.1. RESUME DE L'ARTICLE

L'objectif de l'étude présentée dans l'article 1 est de détecter et caractériser les anomalies de commande musculaire chez un groupe d'enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique lors de mouvements de flexion/extension et de pronosupination du coude. L'objectif secondaire de cette étude est de faire le lien entre les anomalies de commande musculaire trouvées et les limitations en amplitudes de mouvement actives de ces enfants.

Pour répondre à ces objectifs, la cinématique et l'activation musculaire du membre supérieur de 13 enfants à développement typique ont été comparées avec celles de 13 enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique, pendant des mouvements de flexion/extension et de pronosupination du coude réalisés à une fréquence de mouvement de 0.50Hz. Plusieurs paramètres ont ainsi été comparés : amplitude de mouvement maximale active, indice de co-activation de Falconer et Winter [103], instant d'activation musculaire maximale et durée d'activation musculaire. De plus, des corrélations entre paramètres musculaires et amplitude de mouvement maximale active ont été réalisées pour chaque mouvement et pour chaque groupe d'enfants.

Les principaux résultats montrent des co-activations biceps/triceps, brachioradialis/triceps et brachialis/triceps pendant le mouvement d'extension et biceps/rond pronateur pendant le mouvement de supination plus élevées chez les enfants avec une PCUS. Les corrélations mettent en évidence un lien entre co-activation fléchisseur/extenseur plus élevée pendant l'extension et amplitude d'extension restreinte qui n'existe pas chez les enfants à DT. De la même manière pour le mouvement de supination, une co-activation rond pronateur/biceps plus élevée est corrélée à une amplitude de supination plus faible chez les enfants avec une PCUS, relation qui n'existe pas chez les enfants à DT.

Cette étude caractérise les anomalies d'activation musculaire retrouvées chez les enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique. Ces anomalies correspondent en partie à des activations excessives des muscles pronateurs pendant la supination, et des muscles fléchisseurs pendant l'extension. De plus, cette étude confirme l'aspect délétère au mouvement actif de la co-contraction spastique chez les enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique. Enfin, il fait ressortir l'indice de Falconer et Winter comme une méthode de détection intéressante des anomalies de commande musculaire chez les enfants avec une PCUS.



Impact of muscle activation on ranges of motion during active elbow movement in children with spastic hemiplegic cerebral palsy



A. Sarcher^{a,b,*}, M. Raison^{a,b}, L. Ballaz^{a,c}, M. Lemay^{a,c}, F. Leboeuf^d, K. Trudel^e, P.A. Mathieu^{a,f}

^a Research Centre, CHU Sainte-Justine, 3175 Chemin de la Côte-Sainte-Catherine, Montreal, Quebec, Canada

^b Department of Mechanical Engineering, Polytechnique Montréal, 2500 Chemin de Polytechnique, Montreal, Quebec, Canada

^c Department of Kinanthropology, Université du Québec à Montréal, C.P. 8888, succursale Centre-Ville, Montreal, Quebec, Canada

^d Laboratoire d'analyse du Mouvement, Pôle Médecine Physique et Réadaptation, hôpital Saint Jacques, CHU Nantes, Nantes, France

^e Marie Enfant Rehabilitation Centre, 5200 Bélanger, Montreal, Quebec, Canada

^f Institute of Biomedical Engineering, Université de Montréal, 2960 Chemin de la Tour, Montreal, Quebec, Canada

ARTICLE INFO

Article history:

Received 28 March 2014

Accepted 28 October 2014

Keywords:

Cerebral palsy
Co-activation
Electromyography
Extension/flexion
Functional evaluation
Kinematics
Pediatrics
Pronosupination
Rehabilitation
Upper limb

ABSTRACT

Background: Children with spastic hemiplegic cerebral palsy are restricted in their daily activities due to limited active ranges of motion of their involved upper limb, specifically at the elbow. Their impaired muscles are frequently targeted by anti-spastic treatments that reduce muscle tone. But these treatments do not necessarily improve the limb function. There is a lack of comprehensive knowledge of the quantitative relations between muscle activation and joint active ranges of motion. Consequently, the objective of this study is to quantify the impact of muscle activation on the elbow active ranges of motion.

Methods: During voluntary elbow pronation/supination and extension/flexion movements, kinematic and electromyographic measurements were collected from the involved upper limb of 15 children with spastic hemiplegic cerebral palsy (mean age = 8.7 years, standard deviation = 2.2) and the dominant upper limb of 15 age-matched children who are typically developing. Representative indicators of the muscle activation, such as the muscle co-activation, were extracted from the electromyographic measurements.

Findings: Muscle co-activation in the involved upper limb accounted for 78% and 59% of the explained variance of the supination and extension limited active ranges of motion respectively. The agonist and antagonist muscle activations were both longer in the involved upper limb.

Interpretations: This study succeeded in quantifying the impact of longer antagonist muscle activation on decreased elbow active ranges of motion in children with spastic hemiplegic cerebral palsy. Longer agonist muscle activation suggests that strengthening agonist muscles could increase the extension and supination ranges of motion, which constitutes a perspective of future clinical studies.

© 2014 Elsevier Ltd. All rights reserved.

1. Introduction

Spastic hemiplegic cerebral palsy (SHCP) is the most common form of cerebral palsy (Himmelman et al., 2010). Children with SHCP are restricted in their daily activities due to limited active ranges of motion (AROM) of their involved upper limb (IUL) (Levitt, 2010; Steenbergen

and Gordon, 2006). Specifically, the IUL presents reduced extension (Steenbergen et al., 2000) and supination (Kreulen et al., 2007) AROM.

In clinical practice, the IUL limited elbow AROM is often associated with muscular impairments like spasticity, mostly affecting the pronator and flexor muscles. The impaired muscles are therefore targeted by anti-spastic treatments that successfully reduce muscle tone (Levitt, 2010). But these treatments do not necessarily improve the limb function (Gracies et al., 1997; Ward, 2008).

In this context, an analysis with objective measurements of the impact of muscle activation on the elbow AROM would give a more accurate indication of the causes of reduced elbow AROM in the IUL of children with SHCP. This analysis would help target the muscles with specific treatments to improve the limb function. 3D motion capture and surface electromyography are increasingly used for upper limb movement analysis in children with SHCP. They indeed provide non-invasive and objective measurements of the AROM and muscle activation. However, there is still a lack of comprehensive knowledge of the

Abbreviations: AROM, Active range(s) of motion; CAI, Co-activation index; DUL, Dominant upper limb; EF, Extension/flexion; EMG, Electromyography; IUL, Involved upper limb; MACS, Manual Ability Classification System; MAS, Modified Ashworth Scale; PS, Pronation/supination; SD, Standard deviation; SHCP, Spastic hemiplegic cerebral palsy; TD, Typically developing.

* Corresponding author at: Research Centre, Rehabilitation Engineering Chair Applied to Pediatrics (RECAP), Marie Enfant Rehabilitation Centre, 5200 Bélanger, Montreal, Quebec H1T1C9, Canada.

E-mail address: aurelie.sarcher@polymtl.ca (A. Sarcher).

URL: <http://www.polymtl.ca/recap/> (A. Sarcher).

quantitative relations between muscle activation and upper limb joint AROM.

To our knowledge, the impact of muscle activation on the elbow AROM in the IUL of children with SHCP has never been thoroughly studied. Only *de Bruin et al. (2013)* briefly addressed this issue. They found a lack of correlation between the extension AROM and the average activation of the biceps brachii at maximal extension. However, no other correlation was reported for any other muscle indicator or for any other movement.

To analyze the impact of muscle activation on the elbow AROM, quantitative indicators of the global muscle activation are necessary. Two interesting indicators of muscle activation extracted from EMG signals emerge from the studies on upper limb movements of children with cerebral palsy:

- Muscle activation expressed as a percentage of the overall movement time (*Feltham et al. 2010*) gives an indication on the duration of muscle activation and can highlight an increased muscle tone.
- Co-activation value (*de Bruin et al. 2013*) gives an indication of the amount of simultaneous activation of antagonist muscles (*Ikeda et al., 1998*). In healthy participants, co-activation typically provides joint stability and movement accuracy, both in the upper limb (*Gribble et al., 2003; Humphrey and Reed, 1983*) and the lower limb (*Bowsher et al., 1993; Detrembleur et al., 1997*). The interest of this indicator lies in the fact that co-activation is known to be excessive in the lower limb of children with SHCP during walking (*Ikeda et al., 1998; Unnithan et al., 1996*), affecting their gait. Although *de Bruin et al. (2013)* found no excessive biceps/triceps co-activation during reach and grasp tasks in the IUL of children with SHCP, this issue deserves further analysis.

In children with SHCP, our objective is to evaluate the impact of the activation of six key muscles on the elbow AROM during voluntary elbow pronation/supination (PS) and elbow extension/flexion (EF). The studied muscles are the biceps brachii, the triceps brachii, the brachialis, the brachioradialis, the pronator teres and the pronator quadratus. Our research hypothesis is that impaired flexor and pronator muscles limit the extension and supination AROM respectively. Specifically, longer activations of flexor and pronator muscles and excessive co-activation values are expected during these movements, with an important impact on the elbow AROM.

2. Methods

2.1. Experimentation

2.1.1. Participants

The study included 15 children with SHCP (eight boys, seven girls, mean age = 8.7 years, Standard Deviation (SD) = 2.2, range 5.9–12.5). Their medical records indicated that five children had an upper limb function score at level I, eight at level II and two at level III on the Manual Ability Classification System (MACS) (*Eliasson et al., 2006*). An experimented occupational therapist evaluated the spasticity levels of the IUL, using the Modified Ashworth Scale (MAS) (*Bohannon and Smith, 1987*). Inclusion criteria for the SHCP participants were: unilateral spastic cerebral palsy, age between 5 and 12 years. Exclusion criteria for the SHCP participants were: inability to understand or perform the tasks, botulinum toxin injections within six months before measurements or previous orthopedic surgery at the upper limbs. *Table 1* lists the participant characteristics.

Fifteen typically developing (TD) children (nine boys, six girls, mean age = 9.3 years, SD = 2.0, range 5.9–12.9) were recruited as control group. The inclusion criterion for the TD children was: age between 5 and 12 years. The exclusion criterion for the TD children was: no previous orthopedic surgery at the upper limbs. The study was approved by the Research Ethics Board of Ste-Justine Hospital. Written informed

Table 1

Demographic and clinical data for the children with SHCP. The Ashworth scale was used to evaluate the spasticity [0: none, 4: severe] and the MACS levels for classification of their manual ability (1: quite good, 5: very impaired). Abbreviations: F – Female. IUL – Involved upper limb. L – Left. M – Male. MACS – Manual ability classification system. R – Right. SHCP – Spastic hemiplegic cerebral palsy.

Participant	Age (years)	Gender	IUL	Ashworth for the IUL			MACS score
				Flexors	Pronators	Extensor	
1	8.3	F	R	2	1	0	2
2	6.8	M	R	0	0	0	1
3	5.9	M	L	0	0	0	2
4	6.2	F	R	0	1	0	1
5	7.5	M	L	1+	1+	1	2
6	9.1	F	R	1	1	0	1
7	9.3	M	R	1+	1+	0	2
8	11.3	M	R	1	1	0	1
9	8.9	M	L	1+	1	1+	3
10	6.2	F	L	0	0	0	1
11	8.2	M	R	1+	1+	0	3
12	10.8	F	L	1	1	0	2
13	12	F	L	0	1	0	2
14	7.8	F	L	1	1+	0	2
15	12.5	M	R	1	2	0	2

consent was obtained from the child parents or guardians, and informed assent was obtained from all children.

2.1.2. Experimental set-up

2.1.2.1. Kinematics. Kinematics was recorded by a 12-camera 3D motion analysis system (*T40Sx VICON, Oxford*) at a sampling frequency of 100 Hz. Twenty-nine retro-reflective markers were mono-laterally placed on anatomical landmarks of the hand, forearm, arm, shoulder, and thorax (*Fig. 1a*). See *Laitenberger et al. (2014)* for more details.

2.1.2.2. Electromyography. The activation of superficial muscles responsible for extension (triceps brachii longus), flexion (biceps brachii brevis, brachialis, brachioradialis), pronation (pronator teres, pronator quadratus) and supination (biceps brachii brevis) (*Basmajian, 1982*) was recorded using a wireless FreeEMG300 system (BTS, Milan, Italy) (*Fig. 1b*). Disposable self-adhesive surface Ag/AgCl electrodes with a recording diameter of 10 mm (Covidien, Mansfield, MA, USA) were placed according to the SENIAM guidelines (*Hermens et al., 1999*).

2.1.3. Participant instructions and measurements

The experiment was conducted according to the following six steps:

1. The dominant upper limb (DUL) of TD children and the IUL of children with SHCP were equipped with the markers and electrodes.
2. The participants sat on a height-adjustable bench, both feet flat on the floor and knees bent at 90°.
3. They were asked to relax and let their arm hang loosely for several seconds, to record a baseline signal from each EMG recording site.
4. They performed four consecutive cycles of eight distinct randomized tasks: maximum active EF and maximum active PS at three different movement frequencies (2 × 3 tasks); then two multidimensional tasks consisting in hand-to-mouth and hand-to-back, at self-chosen movement frequency (2 × 1 tasks). The experimental conditions were as follows:

- The participants were asked to keep the shoulder, wrist and finger joints as motionless as possible during each trial. They had to keep their forearm in neutral PS position during EF tasks and their upper limb in neutral EF position during PS tasks.

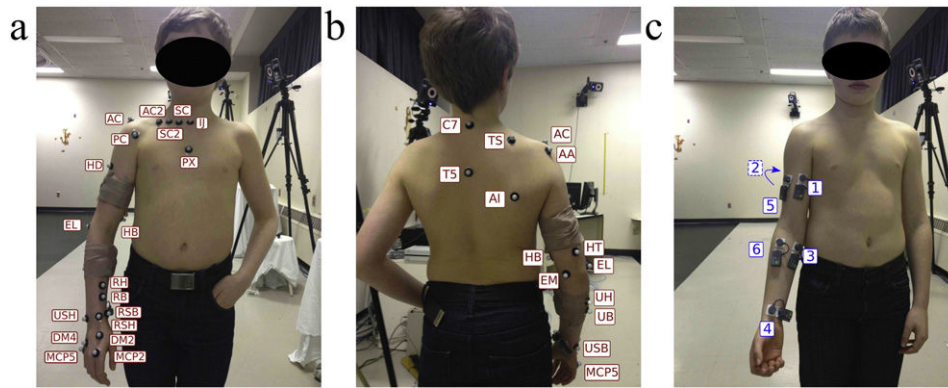


Fig. 1. A typically developing child equipped with 29 retroreflective markers (a.: front view, b.: rear view) on the thorax (II, PX, C7, T5), the clavicle (SC, SC2, AC2, AC), the scapula (AA, PC, TS, AI), the humerus (HD, HT, HB, EL, EM), the ulna (UH, UB, USH, USB), the radius (RH, RB, RSH, RSB), and the hand (MCP2, MCP5, DM2, DM4) (Laitenberger et al., 2014), and with electromyographic electrodes (c.) placed on the biceps brachii (1), the triceps brachii (2), the pronator teres (3), the pronator quadratus (4), the brachialis (5), and the brachioradialis (6).

- The movement frequencies were imposed using an auditory metronome for the EF and PS tasks (0.35 Hz, 0.50 Hz, 0.65 Hz). Externally paced movement frequency homogenizes the experimental conditions and thus highlights the differences in AROM and muscle activation between participants (van Roon et al., 2005).
 - An occupational therapist stood next to the participants and mimed the movement to be produced, and when needed guided the movement before data collection.
 - Between each task, the participants were given 2 min of rest to recover from eventual fatigue.
5. The eight tasks were produced twice with the first tested arm to assess repeatability of the recorded data.
6. Steps 1 to 4 were repeated for the other arm, i.e. for the non-DUL of TD children and the non-IUL of children with SHCP.

In this study, we have chosen to compare the DUL of TD children and the IUL of children with SHCP, as advocated by de Bruin et al. (2013), since this study is the closest one to ours and is the one to which we can compare our results most.

Further, to our knowledge, the upper limb dominance in TD children during tasks involving moderate strength performance, such as in our experiments, has not yet been shown to be an important factor according to the literature. Especially during pointing tasks, Hill and Khanem (2009) showed that the degree of arm preference is comprised between 60% and 95% for right-handed children between 4 and 11 years, meaning that e.g. right-handed children do not necessarily reach forwards with their right arm.

Thus, this study focuses on the analysis of the IUL of children with SHCP and the DUL of TD children during the EF and PS trials at 0.50 Hz.

2.2. Data processing

Custom-written MATLAB® (MathWorks®, Natick (MA), USA) routines written with the open-source Biomechanical ToolKit (Barre and Armand, 2014) were used for the kinematic and EMG data post-processing.

2.2.1. Post-trial selection criteria

Some data were excluded from our analysis due to: 1. Non-respect of the instructions by SHCP participant 3 and two TD children; 2. Hardware failure during the data acquisition of SHCP participant 4; 3. Reduced AROM (<0.5 than the average of TD children) associated with a lack of

active supination during the PS tasks in the IUL of SHCP participants 1, 9, 11 and 15, for whom the data from other movements than PS tasks were kept. Therefore, 13 TD children and 13 children with SHCP were included in the analysis.

2.2.2. Kinematic processing

Kinematic data of each participant were computed using a refined subject-specific model of the upper limb with 20 degrees of freedom, including a closed-loop forearm model dissociating radius and ulna (Laitenberger et al., 2014). With this model, EF/PS angles can be obtained with an accuracy improvement of up to 30% comparatively to classical models (Laitenberger et al., 2014). The joint kinematics at the elbow, specifically the PS and EF relative angles, were obtained from the Cartesian coordinates of the anatomical landmarks, recorded by the cameras, using an inverse kinematic process combined with a global optimization (Lu and O'Connor, 1999).

2.2.3. EMG post-processing

2.2.3.1. Determination of onset and offset activation times. All raw digital EMG signals were band-pass filtered (10–450 Hz, Butterworth zero-lag 4th order) and full-wave rectified. The EMG signals were low-pass filtered (Butterworth zero-lag 2nd order) with a cut-off frequency of 50 Hz (Hodges and Bui, 1996). For each signal recorded in the relaxed state, the activation threshold was obtained by calculating the standard deviation (σ [V]) over non-overlapping consecutive 300 ms windows (Tedroff et al., 2006). The window with the smallest σ was located and its mean value (μ [V]) was obtained. For each of the 6 muscles $m = 1...6$, a threshold T_m [V] was calculated as formulated by Eq. (1).

$$T_m = \mu_m + h\sigma_m, \quad (1)$$

where $h = 3$ is a variable set by the operator (Hodges and Bui, 1996).

The onset time of each muscle, t_{1m} [s], was reached when the processed EMG signal of muscle m was above its threshold T_m for at least 25 consecutive samples (Hodges and Bui, 1996). Similarly, offset time, t_{2m} [s], occurred when the signal fell below the threshold T_m for at least 25 consecutive samples. To eliminate the baseline noise on each muscle signal, the T_m value of each signal was subtracted from the data included between t_{1m} and t_{2m} (Roberts and Gabaldon, 2008). Outside of those bands, EMG signals were put to zero (Ghosh and Haggard, 2014).

2.2.3.2. EMG normalization. Spasticity and weakness prevent maximum voluntary contractions in children with SHCP (Damiano et al., 2000). Therefore, EMG signals of each participant muscle were normalized to their peak value (Gross et al., 2013) in all trials. The activation area of a muscle is defined as the area under the curve of its normalized EMG signal.

Co-activation index. The EMG normalization method used implies that the activation areas cannot be compared between different participants, because of the large variability between electrode sites (Feltham et al., 2010; Van Roon et al., 2005). Therefore, the co-activation index CAI [%] was based on the specific formulation by Falconer and Winter (1985) as presented in Eq. (2), which provides a normalized index that enables direct comparison between participants.

$$CAI = 2 \cdot \frac{A_{(Ag, Antag)}}{A_{Ag} + A_{Antag}} \cdot 100, \quad (2)$$

where $A_{(Ag, Antag)}$ [%] is the common activation area between agonist and antagonist muscles; A_{Ag} [%] and A_{Antag} [%] are the activation areas of agonist and antagonist muscles respectively.

Since several flexor and pronator muscles were studied, the CAI was defined for each antagonist pair. For example during the PS trials, where the action of the two pronators, the teres and the quadratus, opposes the biceps brachii action, the CAI was calculated for the pronator teres/biceps brachii pair as well as for the pronator quadratus/biceps brachii pair.

2.2.4. Quantified indicators of muscle activation and AROM

EMG and kinematic signals were temporally normalized with regard to the EF or PS cycle time. All signals were then averaged over the four cycles.

Quantified indicators studied are EF/PS AROM (maximum angles) and CAI. Additionally, we identified two other quantified indicators of muscle activation, described here below.

Duration of muscle main activation. Adapted from Feltham et al. (2010), the duration of the muscle main activation was calculated as the percentage of each half-cycle during which the muscle activation was above 5% (Fig. 2), to ignore very low activations. This variable was calculated for the agonist and antagonist muscles of each movement. For example, the triceps brachii duration of the main activation was calculated for the extension and flexion movements, but not for the pronation and supination movements.

Peak activation time. To evaluate when a muscle is most active, and thus contributes most to the achievement of a movement, the peak activation time was detected. However, the exact peak of an EMG signal is very sensitive to movement artifacts, noise, etc. Consequently, we chose to calculate the peak activation time as the instant initiating the window of 10% of the cycle during which the activation area is the largest (Fig. 2). This variable was only calculated for the agonist muscles of each movement. For example, the biceps brachii peak activation time during extension was not calculated.

2.2.5. Statistical analysis

Inter-group differences (age, height and body mass) were assessed using an unpaired Student's T-test for the included participants (13 TD children and 13 children with SHCP). Distribution normality of the quantified indicators was determined using the Lilliefors normality test (subset of the Kolmogorov–Smirnov test) (Sheehan et al., 2008). Depending on the Lilliefors test results, paired Student's T-test or Wilcoxon signed rank W-test was performed to assess differences (quantified indicators) between both arms of TD children. Similarly, unpaired Student's T-test or Wilcoxon rank-sum W-test was performed accordingly to assess differences (quantified indicators) between the IUL and the DUL.

Intra-class correlation coefficient ICC(2,k) was calculated to assess kinematics repeatability. Linear regressions were calculated to model the impact of each quantified indicator of muscle activation on the

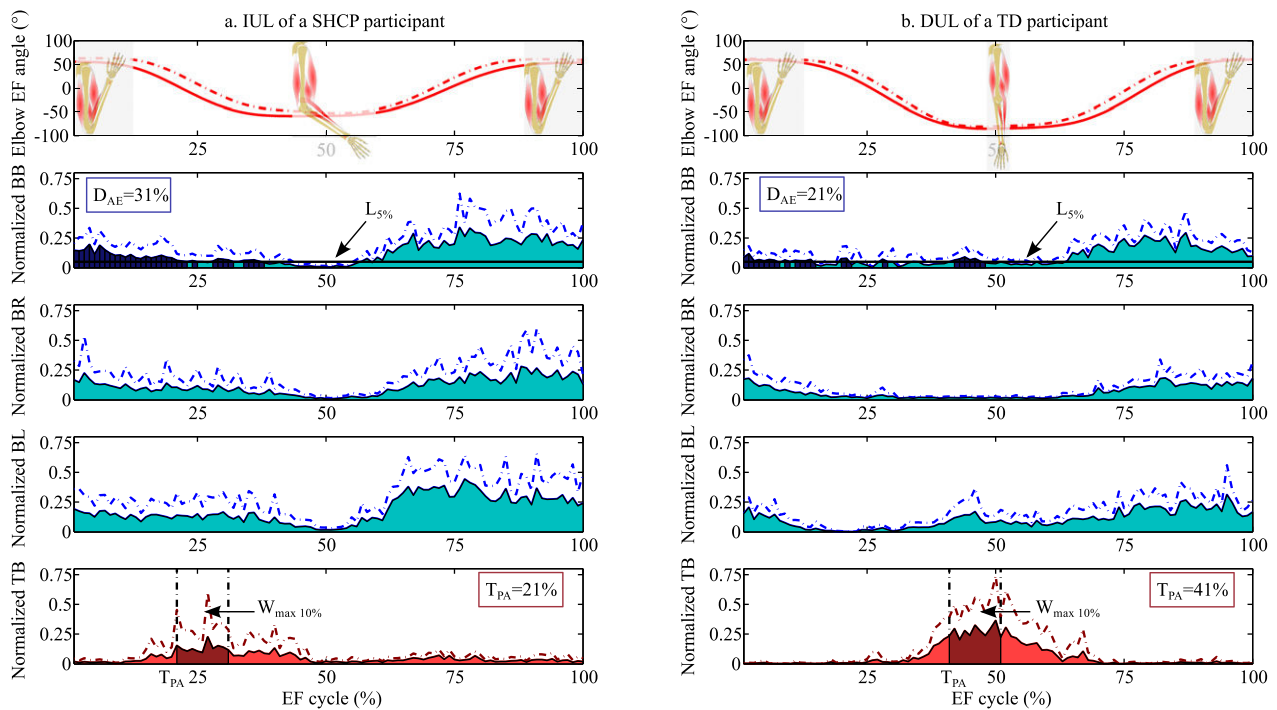


Fig. 2. From top to bottom: elbow EF angle and normalized EMG signals (mean + standard deviation) of the biceps brachii (BB), the brachioradialis (BR), the brachialis (BL), and the triceps brachii (TB) during an EF cycle at 0.50 Hz for: a. the IUL of a SHCP participant (Participant 5); b. the DUL of a TD participant. The duration of biceps main activation during extension, D_{AE} is the percentage of the extension cycle during which the biceps activation is above the 5% limit, $L_{5\%}$. For a better visualization, the biceps activation area is darkened when biceps activation during extension is above $L_{5\%}$. The triceps brachii time of peak activation, T_{PA} , is the instant initiating the window of 10% during which the triceps brachii activation is the greatest, $W_{max 10\%}$. Abbreviations: DUL: Dominant upper limb. EF: Extension/Flexion. EMG: Electromyographic. IUL: Involved upper limb. SHCP: Spastic hemiplegic cerebral palsy. TD: Typically developing.

AROM in the IUL and DUL. The coefficient of determination R^2 and the slope of the model were reported.

Statistical analyses were performed using the software R 2.14 (R Development Core Team, 2013) and the significance was set at $P < 0.05$.

3. Results

3.1. Morphological comparison between groups

Age, weight, and height, were not significantly different between both groups.

3.2. Kinematics repeatability

With $P < 0.0001$, the ICC (95% confidence interval) was:

- 0.97 (0.93 < ICC < 0.99) for maximal extension angle;
- 0.81 (0.58 < ICC < 0.91) for maximal flexion angle;
- 0.96 (0.90 < ICC < 0.98) for maximal pronation angle;
- 0.99 (0.99 < ICC < 1.00) for maximal supination angle.

As this kinematics repeatability was excellent, the following analysis was performed on the averaged cycle of the two repeated trials for both PS and EF trial.

3.3. Studied movements

Fig. 2 shows the elbow EF angle and the normalized EMG signals of flexor and extensor muscles, in a DUL and an IUL during an EF cycle.

Quantified indicators mean (SD) values, differences between groups and results of the linear regression models of the elbow AROM are summarized in Table 2.

3.3.1. Elbow extension (Table 2a)

The extension AROM was smaller in the IUL than in the DUL ($T = 4.32, P < 0.001$).

The biceps/triceps brachii, brachioradialis/triceps brachii and brachialis/triceps brachii CAI were higher in the IUL than in the DUL ($T = -3.10, P = 0.007$; $T = -3.32, P = 0.005$; $T = -2.51, P = 0.023$, respectively). The duration of activation was longer for the biceps brachii, the brachioradialis and the brachialis during extension in the

Table 2
Quantified indicators mean (SD) values, differences between groups (unpaired Student T-test or Mann–Whitney–Wilcoxon W-test as appropriated) and results of the linear regression models (slope of the model and coefficient of determination R^2) of the elbow AROM, during: a. extension, b. flexion, c. pronation, d. supination movement. Abbreviations: * – Significant. AROM – Active range of motion. CAI – Co-activation index. DUL – Dominant upper limb (typically developing children). IUL – Involved upper limb (children with spastic hemiplegic cerebral palsy). NS – Nonsignificant. PT – Pronator teres. PQ – Pronator quadratus. SD – Standard deviation.

Kinematic, temporal, and EMG data (units)	Mean (SD)		Between groups: W or T-value (P value)	Linear model of the extension AROM: Slope (°/%) (R^2)	
	DUL	IUL		DUL	IUL
a.					
Extension AROM (°)	81.93 (9.17)	51.57 (24.06)	$T = 4.32 (<0.001^*)$		
Biceps/triceps brachii CAI (%)	7.91 (3.88)	16.19 (8.80)	$T = -3.10 (0.007^*)$	NS	-2.06 (0.59)
Brachioradialis/triceps brachii CAI (%)	8.24 (3.14)	20.76 (13.25)	$T = -3.32 (0.005^*)$	NS	-1.15 (0.40)
Brachialis/triceps brachii CAI (%)	10.55 (6.66)	22.17 (15.28)	$T = -2.51 (0.023^*)$	NS	-1.03 (0.44)
Triceps brachii peak activation time (%)	39.85 (3.16)	32.23 (8.00)	$W = 142 (0.004^*)$	NS	NS
Duration of biceps brachii main activation (%)	16.46 (9.99)	32.62 (12.85)	$T = -3.58 (0.002^*)$	NS	-1.09 (0.35)
Duration of brachioradialis main activation (%)	16.00 (14.20)	32.69 (15.11)	$T = -2.90 (0.008^*)$	NS	NS
Duration of brachialis main activation (%)	16.62 (9.61)	33.54 (14.89)	$T = -3.44 (0.003^*)$	NS	-0.92 (0.31)
Duration of triceps brachii main activation (%)	14.23 (2.86)	27.38 (16.00)	$T = -2.92 (0.012^*)$	NS	-1.09 (0.51)
b.					
Flexion AROM (°)	55.58 (5.16)	48.70 (5.73)	$T = 3.31 (0.003^*)$		
Biceps/triceps brachii CAI (%)	15.24 (7.67)	20.75 (15.16)	$T = -1.17 (0.258)$	NS	NS
Brachioradialis/triceps brachii CAI (%)	15.18 (9.15)	21.84 (15.62)	$T = -1.33 (0.200)$	NS	NS
Brachialis/triceps brachii CAI (%)	15.38 (8.83)	22.30 (16.50)	$T = -1.33 (0.199)$	NS	NS
Biceps brachii peak activation time (%)	82.54 (7.96)	81.54 (7.10)	$W = 95.5 (0.589)$	NS	NS
Brachioradialis peak activation time (%)	82.00 (8.32)	80.38 (8.01)	$T = 0.50 (0.619)$	NS	NS
Brachialis peak activation time (%)	85.38 (6.29)	80.54 (7.57)	$W = 126 (0.034^*)$	NS	NS
Duration of biceps brachii main activation (%)	39.54 (7.17)	40.77 (6.03)	$T = -0.47 (0.640)$	NS	NS
Duration of brachioradialis main activation (%)	33.62 (7.97)	39.62 (9.27)	$T = -1.77 (0.090)$	NS	0.40 (0.49)
Duration of brachialis main activation (%)	38.15 (7.79)	42.62 (5.09)	$T = -1.73 (0.099)$	NS	NS
Duration of triceps brachii main activation (%)	13.31 (10.72)	22.77 (20.91)	$W = 71.5 (0.521)$	NS	NS
c.					
Pronation AROM (°)	56.72 (10.31)	37.82 (16.62)	$T = 3.01 (0.011^*)$		
PT/biceps brachii CAI (%)	20.79 (8.27)	23.42 (11.03)	$T = -0.61 (0.554)$	NS	NS
PQ/biceps brachii CAI (%)	14.78 (7.07)	22.87 (13.56)	$T = -1.64 (0.129)$	NS	NS
PT peak activation time (%)	31.77 (7.95)	23.67 (16.51)	$W = 81.5 (0.132)$	NS	NS
PQ peak activation time (%)	33.62 (6.67)	24.56 (14.77)	$T = 1.72 (0.115)$	NS	NS
Duration of biceps brachii main activation (%)	15.46 (12.04)	34.89 (15.00)	$T = -3.23 (0.006^*)$	NS	NS
Duration of PT main activation (%)	30.92 (13.65)	35.11 (13.81)	$T = -0.70 (0.492)$	NS	NS
Duration of PQ main activation (%)	30.00 (11.06)	38.89 (11.19)	$T = -1.84 (0.083)$	NS	NS
d.					
Supination AROM (°)	78.50 (9.17)	47.56 (26.36)	$T = 3.44 (0.007^*)$		
PT/biceps brachii CAI (%)	21.17 (7.17)	32.08 (14.25)	$T = -2.12 (0.058)$	NS	-1.60 (0.78)
PQ/biceps brachii CAI (%)	17.34 (10.31)	26.97 (17.10)	$T = -1.51 (0.157)$	NS	-1.03 (0.46)
Biceps brachii peak activation time (%)	83.38 (6.50)	84.67 (3.24)	$W = 54 (0.788)$	0.92 (0.38)	NS
Duration of biceps brachii main activation (%)	26.46 (13.76)	38.33 (10.11)	$T = -2.33 (0.030^*)$	NS	-1.83 (0.52)
Duration of PT main activation (%)	19.38 (16.56)	32.78 (14.11)	$T = -2.04 (0.056)$	NS	NS
Duration of PQ main activation (%)	21.92 (10.68)	32.44 (16.20)	$T = -1.71 (0.112)$	NS	NS

IUL ($T = -3.58, P = 0.002$; $T = -2.90, P = 0.008$; $T = -3.44, P = 0.003$, respectively). In the IUL, the triceps brachii peak occurred earlier in the extension movement ($W = 142, P = 0.004$). The duration of its main activation was higher ($T = -2.92, P = 0.012$).

The biceps/triceps brachii, brachioradialis/triceps brachii and brachialis/triceps brachii CAI accounted for 59% ($R^2 = 0.59, P < 0.05$) (Fig. 3a), 40% ($R^2 = 0.40, P < 0.05$) and 44% ($R^2 = 0.44, P < 0.05$) of the explained variance of the extension AROM, respectively, while these CAI did not account for the explained variance of the extension AROM in the DUL ($P > 0.05$) (Fig. 3b). The duration of the biceps brachii main activation accounted for 35% of the explained variance of the extension AROM ($R^2 = 0.35, P < 0.05$) in the IUL.

3.3.2. Elbow flexion (Table 2b)

The flexion AROM in the IUL was smaller than in the DUL ($T = 3.31, P = 0.003$).

The brachialis showed an earlier peak of main activation ($W = 126, P = 0.034$) in the IUL than in the DUL.

The duration of the brachioradialis main activation during flexion accounted for 49% of the explained variance of maximal angle of flexion in the IUL ($R^2 = 0.49, P < 0.05$). The brachialis main activation during flexion did not account for the explained variance of maximal angle of flexion, neither in the IUL nor in the DUL ($P > 0.05$).

3.3.3. Elbow pronation (Table 2c)

The pronation AROM was smaller in the IUL than in the DUL ($T = 3.01, P = 0.011$).

The biceps brachii had a longer activation ($T = -3.23, P = 0.006$) in the IUL than in the DUL. However, no significant difference was found for the pronator teres/biceps brachii CAI ($T = -0.61, P > 0.05$) and the pronator quadratus/biceps brachii CAI ($T = -1.64, P > 0.05$).

None of the quantified indicators accounted for the explained variance of the maximal pronation angle in the IUL ($P > 0.05$).

3.3.4. Elbow supination (Table 2d)

The supination AROM was smaller in the IUL than in the DUL ($T = 3.44, P = 0.007$).

Results showed a higher duration of pronator teres activation and higher biceps brachii/pronator teres CAI in the IUL, however these trends slightly failed to reach significance ($T = -2.04, P = 0.056$; $T = -2.12, P = 0.058$, respectively). Moreover, the biceps brachii showed a longer activation in the IUL ($T = -2.33, P = 0.030$). The biceps brachii peak activation time was not significantly different between the IUL and the DUL ($W = 54, P > 0.05$).

The pronator teres/biceps brachii and pronator quadratus/biceps brachii CAI during supination accounted for 78% ($R^2 = 0.78, P < 0.05$) (Fig. 3c) and 46% ($R^2 = 0.46, P < 0.05$) of the explained variance of the maximal supination angle in the IUL, respectively, while these CAI did not account for the explained variance of the maximal supination angle in the DUL ($P > 0.05$) (Fig. 3d).

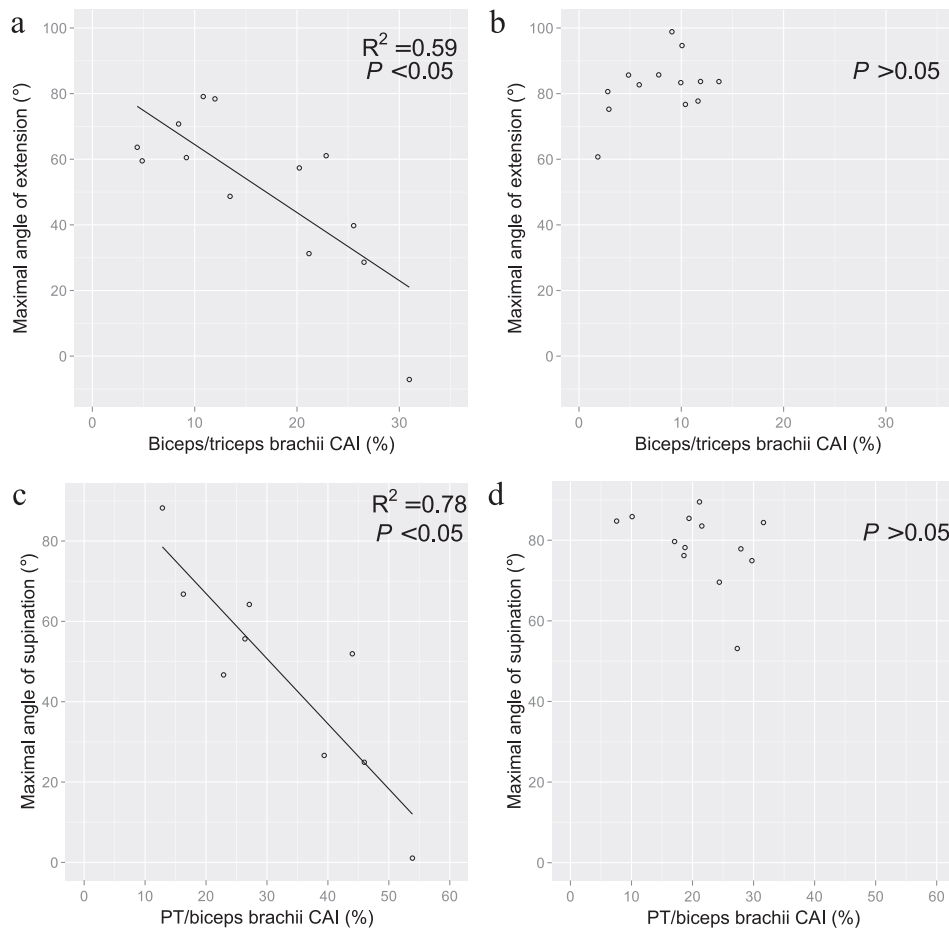


Fig. 3. Top: Effect of the biceps/triceps brachii CAI during extension on the maximal angle of extension, in two cases: a. the IUL of SHCP children ($R^2 = 0.59, P < 0.05$) and b. the DUL of TD children ($P > 0.05$). Bottom: Effect of the PT/biceps brachii CAI during supination on the maximal angle of supination, in two cases: c. the IUL of SHCP children ($R^2 = 0.78, P < 0.05$) and d. the DUL of TD children ($P > 0.05$). Abbreviations: CAI: Co-activation index. DUL: Dominant upper limb. IUL: Involved upper limb. PT: Pronator teres. SHCP: Spastic hemiplegic cerebral palsy. TD: Typically developing.

4. Discussion

The objective of this study was to evaluate the impact of the muscle activation of 6 key muscles on the elbow AROM in the IUL of children with SHCP during voluntary isolated elbow PS and EF. The main finding is that co-activation accounted for 78% and 59% of the explained variance of the reduced supination and extension AROM in the IUL, respectively. As hypothesized, excessive antagonist muscle activation was found in the IUL during these movements. Additionally, the agonist muscles showed a significant response against this excessive antagonist muscle activation. Finally, the impact of muscle activation on the flexion and pronation limited AROM was respectively weak and absent in the IUL.

To our knowledge, this is the first time that the pronators' activation was studied during active movements in children with SHCP. The only comparable results in the literature concern the biceps and triceps brachii activations and co-activation in the IUL during EF (de Bruin et al., 2013; Feltham et al., 2010) and PS (de Bruin et al., 2013). Therefore the part of our discussion regarding these aspects will be mainly based on these previous studies.

4.1. Impact of co-activation on the AROM

The IUL presents a reduced supination and extension AROM compared to the DUL, in agreement with the results from de Bruin et al. (2013). Excessive co-activation seems to be the factor that most influences these reduced AROM in the IUL. Specifically, the biceps/triceps brachii and pronator teres/biceps brachii co-activations have the greatest impact on the reduced extension and supination AROM respectively. Therefore, both agonist and antagonist muscle activations contribute to the elbow extension and supination AROM. The IUL also presents a reduced pronation and flexion AROM, which however is not influenced by co-activation.

4.2. Impact of antagonist muscle activation on the AROM

Excessive antagonist muscle activation creates an opposing force at the elbow, which limits the extension and supination AROM. Indeed, the limitations of extension and supination AROM were associated with a longer duration of flexors activation, in agreement with Feltham et al. (2010) and the trend of a longer duration of pronator teres activation, respectively. This excessive antagonist muscle activation agrees with the notion that the upper motor neuron lesion at the origin of SHCP causes a failure in reciprocal inhibition leading to an increase in antagonist muscle tone during active movements (Sheean and McGuire, 2009), thus limiting the AROM. No significant difference was found for the pronator quadratus behavior between the IUL and the DUL. Solely a weak impact of the biceps brachii duration of activation on the extension AROM was found similarly to de Bruin et al. (2013). This confirms that the agonist muscle activation cannot be ignored when studying the limitation of elbow AROM.

The limited pronation AROM observed in the present study was associated with longer biceps brachii activation, however no significant difference was found for pronator teres/biceps brachii co-activation and pronator quadratus/biceps brachii co-activation. Since no other different muscle behavior has been highlighted for this movement, we assume that abnormal features linked to SHCP other than increased antagonist muscle tone may be more important factors of the limited pronation angle.

4.3. Impact of agonist muscle activation on the AROM

The response from agonist muscles positively contributes to the extension and supination AROM in the IUL. Indeed, during the extension movement, a longer duration of the triceps brachii main activation was found in the IUL, in agreement with Feltham et al. (2010). Similarly

during supination, a longer duration of the biceps brachii main activation was found in the IUL. These longer agonist muscle activations therefore seem to be a response to the opposing forces of the antagonist muscles, thus helping the IUL to reach a greater AROM. In agreement with the foregoing, the triceps brachii peak activation time occurred earlier in the IUL (mean triceps brachii peak activation time = 32.23%, SD = 8) than in the DUL (mean triceps brachii peak activation time = 39.85%, SD = 3.16) during extension. We assume that gravity is sufficient in TD children to perform a full extension. Thus, the triceps brachii acts more as a joint stabilizer at the end of the extension rather than as an extensor, as it has been shown in healthy adults (Naito et al., 1991). In SHCP children, the gravity is no longer sufficient with the emergence of opposing forces from antagonist muscles. Thus, the triceps brachii acts as a potentially powerful extensor opposing the antagonist muscle forces in the IUL.

Limited flexion AROM found in the IUL was associated with a brachialis peak activation time appearing earlier than in the DUL. The duration of the brachioradialis main activation has some positive influence on the maximal angle of flexion in the IUL, which means that the brachioradialis is particularly useful in the last part of the flexion movement. We assume that abnormal features linked to SHCP other than increased antagonist muscle tone may explain this different muscle strategy during flexion and may be more important factors of the limited pronation angle.

4.4. Other abnormal features linked to SHCP

The studied quantified indicators could not fully explain the limited pronation and flexion angle found in the IUL, as seen in the results of the linear regression models. Other abnormal features linked to SHCP, like muscle weakness during movement and decreased movement control (Levitt, 2010), could be more important factors of these limited angles. Indeed, it has been shown that the IUL has weaker biceps and triceps brachii muscles than the non-IUL during maximal voluntary isokinetic concentric contractions (Braendvik and Roeleveld, 2012). However, to our knowledge, muscle weakness has never been studied in the IUL during unconstrained voluntary movements. It could be a factor of upper limb functional limitation, in the same way that it is considered by several studies as an important factor of functional limitation in children with diplegic cerebral palsy during gait (Damiano et al., 2001; Ross and Engsberg, 2007).

Moreover, the decreased movement control in children with SHCP makes it very difficult for them to fractionate the movement due to abnormal synergies between the shoulder, elbow and wrist muscle groups (Levitt, 2010). However in our instructions, the participants were asked to isolate the elbow movements while keeping other joints as motionless as possible. This could therefore limit the activation from the elbow muscle groups.

4.5. Limitations of the study

The small size of the children forearms, especially of the IUL, entailed the risk of electromyographic cross-talk between muscles. However, the risk of cross-talk between the three pronation and supination muscles in the forearm was very low, because they are isolated from one another. Indeed, the supinator muscle is a deep muscle located in the forearm dorsal compartment, whereas the pronator teres is a superficial muscle located in the forearm anterior compartment. Moreover, the pronator quadratus is a deep muscle in the distal anterior area of the forearm, where no other muscle can generate an interference signal (Tichauer et al., 1974). Moreover, no muscle underneath the brachioradialis presents an extension action. Finally, movements studied did not involve any wrist or hand movements, so the cross-talk between these muscles and the flexors of the hand or fingers had limited influence.

Recommendations from Blanc and Dimanico (2010) were still followed to reduce the possibility of cross-talk.

Another limitation of the study is that the results may not be generalized to those with more severe forms of SHCP, as the participants needed to have some minimal ability to perform the elbow movements.

4.6. Clinical output

Triceps brachii has an important role as an extensor against antagonist muscle forces during extension. Strengthening therapies of the triceps brachii like the one presented in Lee et al. (2009) would therefore improve the extension AROM. Moreover, in agreement with de Bruin et al. (2013), the positive role of the biceps brachii during supination may be stronger than its negative role during extension, as the brachialis and the brachioradialis also influence negatively the extension AROM. The supination AROM could then benefit from a stronger biceps brachii. Therefore, this study supports the therapies strengthening muscles that are antagonist to the spastic ones, in the cases in which the limited AROM interferes with function during daily tasks.

With a little perspective on this study, we expect that equivalent findings could be found in other joints of the human body, at least at the upper and lower limbs, which can perform large ranges of motion and large activations, and during various movements. For example at the lower limb during gait, children with SHCP also present limited ranges of motion, such as limited knee extension (Cooney et al., 2006). However, the relationship between leg muscle activation and limited ranges of motion during functional tasks such as walking has not been clarified yet in the literature. Therefore considering for example the extension of our findings to the knee during gait, we expect that the rectus femoris/semiteudinosus co-activation may impact the knee extension range of motion of the involved lower limb in children with SHCP. Moreover, we expect that strengthening the rectus femoris muscle may increase the knee extension range of motion and may compensate for the excessive activation of semiteudinosus muscle due to its spasticity (Cooney et al., 2006). More work is needed to confirm these hypotheses.

5. Conclusion

This study succeeded in quantifying the impact of longer muscle activation on decreased elbow active ranges of motion in children with spastic hemiplegic cerebral palsy. The main finding was that the muscle co-activation in the involved upper limb accounted for 78% and 59% of the explained variance of the supination and extension limited active ranges of motion respectively. Further, the agonist and antagonist muscle activations were both longer in the involved upper limb. Longer agonist muscle activation suggests that strengthening agonist muscles could increase the extension and supination ranges of motion, which constitutes a perspective of future clinical studies.

Acknowledgments

This work was partially supported by the MÉDITIS (NSERC/CREATE, subvention number 371297-2010) training program and scholarships in biomedical technologies. We thank Nathalie Trudelle, head of the Cerebral palsy program at Marie Enfant Rehabilitation Centre – Ste Justine UHC, to have supported this study. We are grateful to the children and their parents for their collaboration.

References

- Barre, A., Armand, S., 2014. Biomechanical Toolkit: open-source framework to visualize and process biomechanical data. *Comput. Methods Prog. Biomed.* <http://dx.doi.org/10.1016/j.cmpb.2014.01.012>.
- Basmajian, J.V., 1982. *Primary Anatomy*, 8th ed. Williams & Wilkins, Baltimore.
- Blanc, Y., Dimanico, U., 2010. Electrode placement in surface electromyography (sEMG) Minimal Crosstalk Area (MCA). *Open Rehabil. J.* 3, 110–126.
- Bohannon, R.W., Smith, M.B., 1987. Interrater reliability of a modified Ashworth scale of muscle spasticity. *Phys. Ther.* 67, 206–207.
- Bowsher, K.A., Damiano, D.L., Vaughan, C.L., 1993. Joint torques and co-contraction during gait for normal and cerebral palsy children. *J. Biomech.* 26, 326.
- Braendvik, S.M., Roeleveld, K., 2012. The role of co-activation in strength and force modulation in the elbow of children with unilateral cerebral palsy. *J. Electromyogr. Kinesiol.* 22, 137–144.
- Cooney, K.M., Sanders, J.O., Concha, M.C., Buczek, F.L., 2006. Novel biomechanics demonstrate gait dysfunction due to hamstring tightness. *Clin. Biomech.* 21, 59–66.
- Damiano, D.L., Martellotta, T.L., Sullivan, D.J., Granata, K.P., Abel, M.F., 2000. Muscle force production and functional performance in spastic cerebral palsy: relationship of contraction. *Arch. Phys. Med. Rehabil.* 81, 895–900.
- Damiano, D.L., Quinlivan, J., Owen, B.F., Shaffrey, M., Abel, M.F., 2001. Spasticity versus strength in cerebral palsy: relationships among involuntary resistance, voluntary torque, and motor function. *Eur. J. Neurol.* 8 (Suppl. 5), 40–49.
- de Bruin, M., Veeger, H.E., Kreulen, M., Smeulders, M.J., Bus, S.A., 2013. Biceps brachii can add to performance of tasks requiring supination in cerebral palsy patients. *J. Electromyogr. Kinesiol.* 23, 516–522.
- Detrembleur, C., Willems, P., Plaghki, L., 1997. Does walking speed influence the time pattern of muscle activation in normal children? *Dev. Med. Child Neurol.* 39, 803–807.
- Eliasson, A.C., Kruminde-Sundholm, L., Rosblad, B., Beckung, E., Arner, M., Ohrvall, A.M., Rosenbaum, P., 2006. The Manual Ability Classification System (MACS) for children with cerebral palsy: scale development and evidence of validity and reliability. *Dev. Med. Child Neurol.* 48, 549–554.
- Falconer, K., Winter, D.A., 1985. Quantitative assessment of co-contraction at the ankle joint in walking. *Electromyogr. Clin. Neurophysiol.* 25, 135–149.
- Feltham, M.G., Ledebt, A., Deconinck, F.J., Savelsbergh, G.J., 2010. Assessment of neuromuscular activation of the upper limbs in children with spastic hemiparetic cerebral palsy during a dynamical task. *J. Electromyogr. Kinesiol.* 20, 448–456.
- Ghosh, A., Haggard, P., 2014. The spinal reflex cannot be perceptually separated from voluntary movements. *J. Physiol.* 592, 141–152.
- Gracies, J.M., Nance, P., Elovic, E., McGuire, J., Simpson, D.M., 1997. Traditional pharmacological treatments for spasticity. Part II: general and regional treatments. *Muscle Nerve Suppl.* 6, S92–S120.
- Gribble, P.L., Mullin, L.L., Cothros, N., Mattar, A., 2003. Role of cocontraction in arm movement accuracy. *J. Neurophysiol.* 89, 2396–2405.
- Gross, R., Leboeuf, F., Hardouin, J.B., Lempereur, M., Perrouin-Verbe, B., Remy-Neris, O., Brochard, S., 2013. The influence of gait speed on co-activation in unilateral spastic cerebral palsy children. *Clin. Biomech.* 28, 312–317.
- Hermens, H.J., Freriks, B., Merletti, R., Stegeman, D., Blok, J., Rau, G., Disselhorst-Klug, C., Hagg, G., 1999. European Recommendations for Surface ElectroMyoGraphy, Results of SENIAM Project, 8th ed. Roessingh Research and Development, Enschede.
- Hill, E.L., Khanem, F., 2009. The development of hand preference in children: the effect of task demands and links with manual dexterity. *Brain Cogn.* 71, 99–107.
- Himmelmann, K., Hagberg, G., Uvebrant, P., 2010. The changing panorama of cerebral palsy in Sweden. X. Prevalence and origin in the birth-year period 1999–2002. *Acta Paediatr.* 99, 1337–1343.
- Hodges, P.W., Bui, B.H., 1996. A comparison of computer-based methods for the determination of onset of muscle contraction using electromyography. *Electroen. Clin. Neuro./Electromyogr. Motor Control* 101, 511–519.
- Humphrey, D.R., Reed, D.J., 1983. Separate cortical systems for control of joint movement and joint stiffness: reciprocal activation and coactivation of antagonist muscles. *Adv. Neurol.* 39, 347–372.
- Ikeda, A.J., Abel, M.F., Granata, K.P., Damiano, D.L., 1998. Quantification of cocontraction in spastic cerebral palsy. *Electromyogr. Clin. Neurophysiol.* 38, 497–504.
- Kreulen, M., Smeulders, M.J., Veeger, H.E., Hage, J.J., 2007. Movement patterns of the upper extremity and trunk associated with impaired forearm rotation in patients with hemiplegic cerebral palsy compared to healthy controls. *Gait Posture* 25, 485–492.
- Laitenberger, M., Raison, M., Périé, D., Begon, M., 2014. Refinement of the upper limb joint kinematics and dynamics using a subject-specific closed-loop forearm model. *Multibody Sys. Dyn.* 1–26.
- Lee, D.R., You, J.H., Lee, N.G., Oh, J.H., Cha, Y.J., 2009. Comprehensive Hand Repetitive Intensive Strengthening Training (CHRIST)-induced morphological changes in muscle size and associated motor improvement in a child with cerebral palsy: an experimenter-blind study. *NeuroRehabilitation* 24, 109–117.
- Levitt, S., 2010. *Treatment of Cerebral Palsy and Motor Delay*, 5th ed. Wiley-Blackwell, Chichester.
- Lu, T.W., O'Connor, J.J., 1999. Bone position estimation from skin marker co-ordinates using global optimisation with joint constraints. *J. Biomech.* 32, 129–134.
- MATLAB and Statistics Toolbox Release, 2012. The MathWorks, Inc., Natick, Massachusetts, United States.
- Naito, A., Shimizu, Y., Handa, Y., Ichie, M., Hoshimiya, N., 1991. Functional anatomical studies of the elbow movements. I. Electromyographic (EMG) analysis. *Okajimas Folia Anat. Jpn.* 68, 283–288.
- R. Development Core Team, 2013. *R: A Language and Environment for Statistical Computing*. R Foundation for Statistical Computing, Vienna, Austria.
- Roberts, T.J., Gabaldon, A.M., 2008. Interpreting muscle function from EMG: lessons learned from direct measurements of muscle force. *Integr. Comp. Biol.* 48, 312–320.
- Ross, S.A., Engsborg, J.R., 2007. Relationships between spasticity, strength, gait, and the GMFM-66 in persons with spastic diplegia cerebral palsy. *Arch. Phys. Med. Rehabil.* 88, 1114–1120.
- Sheehan, G., McGuire, J.R., 2009. Spastic hypertonia and movement disorders: pathophysiology, clinical presentation, and quantification. *PM&R* 1, 827–833.
- Sheehan, F.T., Seisler, A.R., Alter, K.E., 2008. Three-dimensional in vivo quantification of knee kinematics in cerebral palsy. *Clin. Orthop. Relat. Res.* 466, 450–458.
- Steenbergen, B., Thiel, E.v., Hulstijn, W., Meulenbroek, R.G.J., 2000. The coordination of reaching and grasping in spastic hemiparesis. *Hum. Mov. Sci.* 19, 75–105.

- Steenbergen, B., Gordon, A.M., 2006. Activity limitation in hemiplegic cerebral palsy: evidence for disorders in motor planning. *Dev. Med. Child Neurol.* 48, 780–783.
- Tedroff, K., Knutson, L.M., Soderberg, G.L., 2006. Synergistic muscle activation during maximum voluntary contractions in children with and without spastic cerebral palsy. *Dev. Med. Child Neurol.* 48, 789–796.
- Tichauer, E.R., Schulz, G., Davis, S.W., 1974. Clinical application of the biomechanical profile of pronation and supination. *Bull. N. Y. Acad. Med.* 50, 480–495.
- Unnithan, V.B., Dowling, J.J., Frost, G., Volpe Ayub, B., Bar-Or, O., 1996. Cocontraction and phasic activity during GAIT in children with cerebral palsy. *Electromyogr. Clin. Neurophysiol.* 36, 487–494.
- van Roon, D., Steenbergen, B., Meulenbroek, R.G., 2005. Trunk use and co-contraction in cerebral palsy as regulatory mechanisms for accuracy control. *Neuropsychologia* 43, 497–508.
- Ward, A.B., 2008. Spasticity treatment with botulinum toxins. *J. Neural Transm.* 115, 607–616.

4.1.2. DISCUSSION

Cette première étude a montré des résultats très intéressants pendant les mouvements d'extension/de supination du coude du groupe d'enfants avec une paralysie cérébrale :

- Une amplitude d'extension/de supination globalement restreinte.
- Des durées d'activation antagoniste globalement supérieures (de la part des fléchisseurs/des pronateurs).
- Des durées d'activation agoniste globalement supérieures (de la part du triceps/du biceps).
- Des indices de co-activation fléchisseur-extenseur/pronateur-supinateur globalement supérieurs.
- Des indices de co-activation fléchisseur-extenseur/pronateur-supinateur corrélés à l'amplitude d'extension/supination active.

Cette dernière relation n'existe pas chez les enfants à développement typique, bien qu'ils présentent des indices de co-activation fléchisseur-extenseur/pronateur-supinateur non nuls. Les questions suivantes se sont donc posées :

- A quel moment du mouvement interviennent la co-activation physiologique (retrouvée chez les enfants à DT) et la co-activation pathologique (retrouvée chez les enfants avec une PCUS) ?
- Comment évoluent ces co-activations avec la vitesse du mouvement ?

4.2. ARTICLE 2. PATHOLOGICAL AND PHYSIOLOGICAL MUSCLE CO-ACTIVATION DURING ACTIVE ELBOW EXTENSION IN CHILDREN WITH UNILATERAL CEREBRAL PALSY

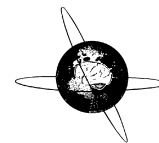
4.2.1. RESUME DE L'ARTICLE

L'objectif de l'étude présentée dans l'article 2 est d'aller plus loin dans la caractérisation des anomalies de commande musculaire des enfants avec une PCUS, notamment d'aborder les rôles et mécanismes de la co-activation musculaire fléchisseur/extenseur pendant le mouvement d'extension du coude.

Les enfants avec une PCUS et à DT étudiés dans cet article sont les mêmes que ceux de l'article 1. Une analyse de la co-activation biceps/triceps et brachioradialis/triceps est faite avec l'indice de Falconer et Winter, seulement pour le mouvement d'extension du coude, mais pour les 3 vitesses de mouvement 0.35Hz, 0.50Hz et 0.65Hz. Le mouvement d'extension est décomposé en phases d'accélération et de décélération. Des modèles linéaires mixtes sont utilisés pour étudier l'effet de la vitesse du mouvement sur la co-activation.

Les principaux résultats montrent que pendant la phase d'accélération de l'extension du coude, la co-activation fléchisseur/extenseur est plus importante chez les enfants avec une PCUS que chez les enfants à DT, et que celle-ci augmente avec la vitesse du mouvement chez les enfants avec une PCUS alors qu'elle ne varie pas avec la vitesse chez les enfants à DT. Pendant la phase de décélération, la co-activation biceps/triceps est élevée dans les deux groupes, et augmente avec la vitesse de la même manière. La co-activation brachioradialis/triceps est plus élevée chez les enfants avec une PCUS, mais augmente avec la vitesse de la même manière dans les deux groupes.

Cette étude met en évidence que les anomalies de co-activation musculaire chez les enfants avec une PCUS se retrouvent dans tout le cycle de mouvement, mais leur caractérisation est spécifique à la phase du mouvement et au muscle antagoniste (ici aux deux fléchisseurs biceps et brachioradialis).



Pathological and physiological muscle co-activation during active elbow extension in children with unilateral cerebral palsy



A. Sarcher^{a,e,*}, M. Raison^b, F. Leboeuf^{a,c}, B. Perrouin-Verbe^a, S. Brochard^{d,e}, R. Gross^{a,e}

^a Motion Analysis Laboratory, Physical Medicine and Rehabilitation, Saint Jacques Hospital, University Hospital of Nantes, Nantes, France

^b Rehabilitation Engineering Chair Applied to Pediatrics (RECAP), Sainte-Justine University Hospital and Ecole Polytechnique de Montréal, 5200 rue Bélanger Est, Montréal, Québec, Canada

^c College of Health and Social Care, University of Salford, Frederick Road Campus, Salford, United Kingdom

^d Physical Medicine and Rehabilitation Department, University Hospital of Brest, Brest, France

^e Laboratory of Medical Information Processing (LaTIM), INSERM UMR 1101, Brest, France

ARTICLE INFO

Article history:

Accepted 9 October 2016

Available online 29 October 2016

Keywords:

Unilateral spastic cerebral palsy

Muscle co-activation

Surface electromyography

Elbow extension

Antagonist muscle

HIGHLIGHTS

- Muscle co-activation in children with cerebral palsy was pathological and physiological.
- Pathological co-activation increased with elbow extension speed.
- Pathological co-activation was more pronounced in brachioradialis than biceps brachii.

ABSTRACT

Objective: To address the roles and mechanisms of co-activation in two flexor/extensor pairs during elbow extension in children with cerebral palsy (CP).

Methods: 13 Typically Developing (TD) and 13 children with unilateral spastic CP performed elbow extension/flexion at different speeds. Elbow angle and velocity were recorded using a 3D motion analysis system. The acceleration and deceleration phases of extension were analyzed. Co-activation of the brachioradialis/triceps and biceps/triceps pairs was computed for each phase from surface electromyographic signals. Statistical analysis involved linear mixed effects models and Spearman rank correlations.

Results: During the acceleration phase, there was strong co-activation in both muscle pairs in the children with CP, which increased with speed. Co-activation was weak in the TD children and it was not speed-dependent. During the deceleration phase, co-activation was strong and increased with speed in both groups; co-activation of brachioradialis/triceps was stronger in children with CP, and was negatively correlated with extension range and positively correlated with flexor spasticity.

Conclusions: Abnormal patterns of co-activation in children with CP were found throughout the entire movement. Co-activation was specific to the movement phase and to each flexor muscle.

Significance: Co-activation in children with CP is both physiological and pathological.

© 2016 International Federation of Clinical Neurophysiology. Published by Elsevier Ireland Ltd. All rights reserved.

1. Introduction

Cerebral palsy (CP) is a neurological pathology caused by a defect or lesion of the immature brain, which leads to disorders of movement and posture. CP is characterized by a combination of motor impairments, including spasticity, hyper-reflexia, muscle weakness, loss of selective motor control and excessive muscle co-activation (CA). These motor impairments can severely limit activities of daily living (O'Shea, 2008).

Abbreviations: AROM, active range of motion; CA, co-activation; CP, cerebral palsy; EAccP, extension acceleration phase; EDecP, extension deceleration phase; EF, extension/flexion; EMG, electromyography; IUL, involved upper limb; MACS, Manual Ability Classification System; MAS, Modified Ashworth Scale; PPV, Percentage to Peak Velocity; SUCP, Spastic Unilateral Cerebral Palsy; TD, Typically Developing.

* Corresponding author at: Motion Analysis Laboratory, Physical Medicine and Rehabilitation, Saint Jacques Hospital, University Hospital of Nantes, Nantes, France.

E-mail address: aurelie.sarcher@gmail.com (A. Sarcher).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.clinph.2016.10.086>

1388-2457/© 2016 International Federation of Clinical Neurophysiology. Published by Elsevier Ireland Ltd. All rights reserved.

Muscle CA is the simultaneous activation of an agonist muscle, which causes movement at a joint in a particular direction, and an antagonist muscle, which opposes the movement (Ikeda et al., 1998). Physiologically, muscle CA induces mechanical co-contraction of muscles, the role of which is to regulate joint stiffness (Bullock and Grossberg, 1991). Appropriate levels of co-contraction are required during sudden changes in the direction of joint motion, fine motor activities, and to stabilize loaded joints (Humphrey and Reed, 1983; Johansson and Westling, 1988; Valero-Cuevas, 2005). Any alteration in the capacity to regulate the level of co-contraction has a direct impact on movement.

It is well established that children with CP often have excessive CA of the muscles of both lower limbs (Leonard et al., 1991; Unnithan et al., 1996; Ikeda et al., 1998; Prosser et al., 2010; Gross et al., 2013, 2015) and both upper limbs (Feltham et al., 2010; Braendvik and Roeleveld, 2012; Sarcher et al., 2015; Xu et al., 2015). Specifically, active elbow extension of the involved upper limb (IUL) in children with spastic unilateral CP (SUCP) induces excessive CA (Van Thiel et al., 2000; Volman et al., 2002; Sarcher et al., 2015) because of excessive activation of the flexor muscles, which are spastic (Sarcher et al., 2015).

However, it is not yet clear whether the effect of this excessive CA is actually negative, i.e. if it restricts movement (henceforth termed pathological CA), or if it also serves to increase joint stability in patients who also have muscle weakness (henceforth termed physiological CA). Some studies have suggested that there is a relationship between excessive CA and reduced peak elbow velocity (Van Thiel et al., 2000; Rameckers et al., 2010), and between excessive CA and restricted elbow active range of motion (AROM) (Levin et al., 2000; Sarcher et al., 2015). However, there are discrepancies in the literature regarding the effect of reducing muscle hyperactivity, including CA, on motor capacity, by the use of intramuscular injections of botulinum toxin type A. Some studies have found improvements in motor capacity after botulinum toxin A injections in the upper limbs (Lee et al., 2013; Ferrari et al., 2014; Sakzewski et al., 2014; Lidman et al., 2015) while others have found little or no improvement due to the concomitant reduction in strength and loss of necessary, functional CA (Fehlings et al., 2000; Rameckers et al., 2007, 2009; Hoare et al., 2010; Olesch et al., 2010; Speth et al., 2015).

The discrepancies between the results of studies investigating the effect of chemodenervation on upper limb movements are likely related to two issues: On one hand, there is a lack of understanding of the CA mechanisms in the IUL of children with SUCP. Van Thiel et al. (2000) hypothesized that excessive CA in the IUL occurs particularly at the end of the extension movement, when the need for joint stability is the greatest. It is thus necessary to carry out separate analyses of CA during the acceleration and deceleration phases of the movement, in order to determine at which point of the movement the pathological CA occurs. To our knowledge, this has not yet been done. Moreover, movement speed has been shown to increase muscle activation and CA levels during gait, more significantly in the lower limb of children with CP than in the lower limb of Typically Developing (TD) children (Gross et al., 2013). Although some studies of upper limb movements have included the notion of speed (Van Thiel et al., 2000; Rameckers et al., 2010) by analyzing “fast” movements, presumably to induce higher levels of CA, to our knowledge the effect of movement speed on CA in the IUL of children with SUCP has never been quantified. A thorough analysis of the movement conditions under which CA in the IUL of children with SUCP differs from CA in the upper limbs of TD children may provide insights into the different roles of CA, both for diagnostic purposes and to optimize treatment effectiveness.

On the other hand, there is little evidence regarding which muscles should be targeted by chemodenervation treatments, such as botulinum type A injections. Indeed, it remains unclear whether

spastic muscle overactivity differs between different muscles that produce similar movements, and the extent to which it interferes with these movements. In order to determine the muscles which are the most affected, it is necessary to analyze the activation of individual elbow flexor muscles during elbow movement. This would enable the development of appropriate guidelines for treatment by botulinum toxin type A injection.

Therefore, the primary aim of this study was to highlight the different roles of CA in the IUL of children with SUCP. We studied the extent of flexor/extensor CA induced at different velocities of active elbow extension in the IUL of children with SUCP and in the upper limbs of TD children. We developed an approach based on methods that split the movement into the phases of acceleration and deceleration and hypothesized that CA would differ depending on the movement phase. We also expected to find increases in CA with increasing movement speed during active elbow extensions of the IUL.

The second aim was to compare the patterns of activation of the biceps and the brachioradialis muscles during active elbow extension movements.

2. Methods

2.1. Experimentation

2.1.1. Participants

Thirteen children with SUCP (seven males, mean age = 9.1 years, Standard Deviation (SD) = 2.0, range 6.2–12.5) took part in the experiment. Exclusion criteria for the SUCP participants were: botulinum toxin injections within the previous six months or previous surgery of the upper limbs, inability to fully understand or perform the tasks. Table 1 lists the demographic and clinical data for the children with SUCP (Bohannon and Smith, 1987; Eliasson et al., 2006).

Thirteen TD children (eight males, mean age = 9.5 years, SD = 1.9, range 6.3–12.9) were recruited as a control group. The exclusion criterion for the TD children was previous surgery of the upper limbs. The Research Ethics Board of Sainte-Justine Hospital approved the study and the children’s parents or guardians gave informed consent.

2.1.2. Experimental set-up

Kinematics: Upper limb kinematics were assessed using an optoelectronic motion analysis system equipped with twelve infra-

Table 1

Demographic and clinical data for the children with SUCP. The Modified Ashworth Scale (MAS) was used to evaluate spasticity [0: none, 4: severe] (Bohannon and Smith, 1987) and the Manual Ability Classification System (MACS) was used to evaluate upper limb function (1: quite good, 5: very impaired) (Eliasson et al., 2006). **Abbreviations:** F-female. IUL-involved upper limb. M-Male. MACS-Manual Ability Classification System. MAS-Modified Ashworth Scale. SUCP-Spastic Unilateral Cerebral Palsy.

Children with SUCP	Age (years)	Gender	MAS for the IUL Flexors	MACS score
1	8.3	F	2	2
2	6.8	M	0	1
3	7.5	M	1+	2
4	9.1	F	1	1
5	9.3	M	1+	2
6	11.3	M	1	1
7	8.9	M	1+	3
8	6.2	F	0	1
9	8.2	M	1+	3
10	10.8	F	1	2
11	12	F	0	2
12	7.8	F	1	2
13	12.5	M	1	2

red cameras (T40S, VICON, Oxford) operating at 100 Hz. The upper limb marker set from [Laitenberg et al. \(2015\)](#) was used in this study: twenty-nine retro-reflective markers were positioned on anatomical landmarks of the thorax, shoulder, arm, forearm, and hand of one side of the body.

Electromyography: Electromyographic signals of the triceps brachii longus (elbow extensor muscle), the biceps brachii brevis (flexor muscle) and the brachioradialis (flexor muscle) ([Basmajian, 1982](#)) were measured using a wireless surface EMG FreeEMG300 system (BTS, Milan, Italy) (see [Sarcher et al. \(2015\)](#) for electrode placement). Self-adhesive pairs of disposable Ag/AgCl surface electrodes with a recording diameter of 10 mm (Covidien, Mansfield, MA, USA) were placed according to the SENIAM (Surface Electromyography for Non-Invasive Assessment of Muscles) guidelines ([Hermens et al., 1999](#)).

2.1.3. Participant instructions and measurements

Markers were positioned on the dominant upper limbs of the TD children and on the IUL of the children with SUCP. The participants were seated on a bench with the height adjusted so that both feet were flat on the floor and the knees were bent to 90°. A baseline signal was recorded from the EMG electrodes while the participants were at rest. Consecutive cycles of active EF in the sagittal plane, with no elevation of the shoulder were then recorded at three different movement frequencies. The participants were instructed to cover their maximal EF AROM and to keep the shoulder, wrist and finger joints as still as possible during each trial. They were asked to keep their forearm in neutral pronation/supination as much as possible.

The children were instructed to time their maximal extension and maximal flexion with the “bleep” of an auditory metronome. The frequencies for a full EF cycle were 0.35 Hz, 0.50 Hz and 0.65 Hz, meaning that the children had to perform the extension movement in 1.43 s, 1 s and 0.77 s respectively. Standardization of the experimental conditions using externally paced movement allows comparison between the AROM and muscle activation between participants ([van Roon et al., 2005](#)). Moreover, it has been shown that the motor responses of adults with SUCP are improved by externally paced movements compared to internally paced movements ([Van Thiel et al., 2000](#)). AROM and movement smoothness of children with SUCP is improved by the execution of functional, relevant tasks compared to abstract movements ([van der Weel et al., 1991](#); [Wu et al., 2000](#); [Volman et al., 2002](#); [Steenbergen et al., 2004](#)). However, we chose this extension movement for three reasons: 1. It is a simple upper limb movement, which could be performed by all the children included. 2. It is a single degree of freedom movement, minimizing the risk of crosstalk from the forearm, particularly the wrist and finger muscles. 3. The movement is not demanding in terms of precision, thus the role of any physiological CA would simply be to slow down the arm, facilitating interpretation. [Van Roon et al. \(2005\)](#) showed that the need for accuracy increased the strength of CA in adolescents with CP.

It is well documented that the motor control of arm movements changes considerably around the age of 8 years ([Van Braeckel et al., 2007](#); [Wilson and Hyde, 2013](#)). This has been demonstrated for spatial and temporal accuracy ([Bard et al., 1990](#); [Yan et al., 2003](#)), intralimb coordination ([Thomas et al., 2000](#)), and variability ([King et al., 2009](#)). However, these studies analysed arm movements that required both visual and proprioceptive information to be processed, since they involved pointing or reaching and grasping objects. The motor control of linear movements such as elbow flexion/extension develops well before more complex movements such as the patterns of rotation needed in functional tasks like reaching or pointing. Moreover, elbow flexion/extension is a single-joint task that does not require fine motor skills or strength. Therefore there should be few differences in the motor control of

this movement between children aged 6 and 12.5 years. Moreover, the groups were age-matched so any variability in motor control due to age would be similar in both groups.

In order to help the children to achieve the desired frequencies, an occupational therapist stood next to them and mimed the movements. If necessary, prior to data collection, she also guided the movement. Two minutes of rest were allowed between each condition.

2.2. Data processing

Kinematic and EMG data were processed using custom MATLAB® (MathWorks®, Natick (MA), USA) routines and the open-source Biomechanical ToolKit library ([Barre and Armand, 2014](#)).

2.2.1. Kinematic and kinetic processing

The kinematics of the elbow, specifically the relative EF angles, were obtained using the upper limb model proposed by [Laitenberg et al. \(2015\)](#). This subject-specific upper limb model with twenty degrees of freedom includes a closed-loop forearm model which separates the radius and ulna ([Laitenberg et al., 2015](#)). The joint kinematics are obtained from the 3D positions of the markers, using an inverse kinematic process coupled with a global optimization procedure ([Lu and O'Connor, 1999](#)). EF velocity was then obtained by differentiating the relative EF angle.

2.2.2. EMG processing

EMG signals were band-pass filtered (10–450 Hz, Butterworth zero-lag 4th order), full-wave rectified, and smoothed with a low-pass filter (50 Hz, Butterworth zero-lag 2nd order) ([Hodges and Bui, 1996](#)). A 300 ms window with the smallest standard deviation (σ [V]) was located in each EMG signal recorded in the relaxed state (baseline) ([Tedroff et al., 2006](#)), and its mean value (μ [V]) was calculated. An activation threshold T_m [V] was then calculated for each of the three recorded muscles $m = 1 \dots 3$ using Eq. (1).

$$T_m = \mu_m + k\sigma_m, \quad (1)$$

The variable k was set to 3, following the recommendations of [Hodges and Bui \(1996\)](#).

Then, for all trials, the onset time of each muscle, t_{ONm} [s] was determined as the instant at which the processed EMG signal of muscle m exceeded its threshold T_m for at least the following 25 consecutive samples ([Hodges and Bui, 1996](#)). Offset times, t_{OFFm} [s], were similarly considered as the instant at which the signal dropped below the threshold T_m for at least the following 25 consecutive samples.

Finally, the T_m value of each muscle was subtracted from the smoothed EMG signals between t_{ONm} and t_{OFFm} ([Roberts and Gabaldón, 2008](#)). Outside of those bands, the value of the smoothed EMG signal was subtracted from itself in order to obtain a signal of zero ([Ghosh and Haggard, 2014](#)).

This was done to keep only the real activation periods of the smoothed EMG signals and to ignore the baseline noise which differed according to the recorded muscle and to the participant.

EMG processing steps are depicted in [Fig. 1](#).

2.2.3. Extension movement decomposition

Elbow extension was defined as movement between the instant of maximal flexion and the instant of maximal extension. Processed EMG, kinematic and kinetic signals were temporally normalized by the duration of the extension movement. The extension movement was then decomposed into its extension acceleration phase (EAccP), from the instant of maximal flexion to the instant of maximal extension velocity, and its extension

deceleration phase (EDecP), from the instant of maximal extension velocity to the instant of maximal extension (Fig. 2). The Percentage to Peak Velocity (PPV) [%] was defined as the percentage of the extension movement between the EAccP and the EDecP.

2.2.4. Co-activation index (CAI)

Children with spastic CP are unable to perform maximum voluntary contractions due to spasticity and weakness (Damiano et al., 2000). Therefore, the post processed EMG signals of each participant’s muscles were divided by their peak value, obtained from the entire EF cycle, not only during the extension movements, to include agonist activations of the flexor muscles (Burden, 2010; Gross et al., 2013). This was the only step in which the flexion movement was considered. The activation area of a muscle was defined as the area under the normalized values of its EMG signal.

Fig. 3 shows the normalized post-processed EMG signals for biceps, brachioradialis and triceps for the mean EF cycle at 0.35 Hz and 0.65 Hz of a TD child and an SUCP child (subject 13 in Table 1).

Co-activation index: as presented in Eq. (2), the co-activation index CAI [%] was based on Falconer and Winter (1985).

$$CAI = 2 \cdot \frac{\int(Ag, Antag)}{\int Ag + \int Antag} \cdot 100, \quad (2)$$

where $\int(Ag, Antag)$ represents the common activation area between agonist and antagonist muscles (coloured area in Fig. 3); $\int Ag$ and $\int Antag$ represent the activation areas of agonist and antagonist muscles respectively.

The CAI was calculated for both the EAccP and the EDecP, according to the following Eqs. (3) and (4), and so that Eq. (5) was verified.

$$CAI_{[EAccP]} = 2 \cdot \frac{\int_{EAccP}(Ag, Antag)}{\int_{EAccP+EDecP}(Ag) + \int_{EAccP+EDecP}(Antag)} \cdot 100, \quad (3)$$

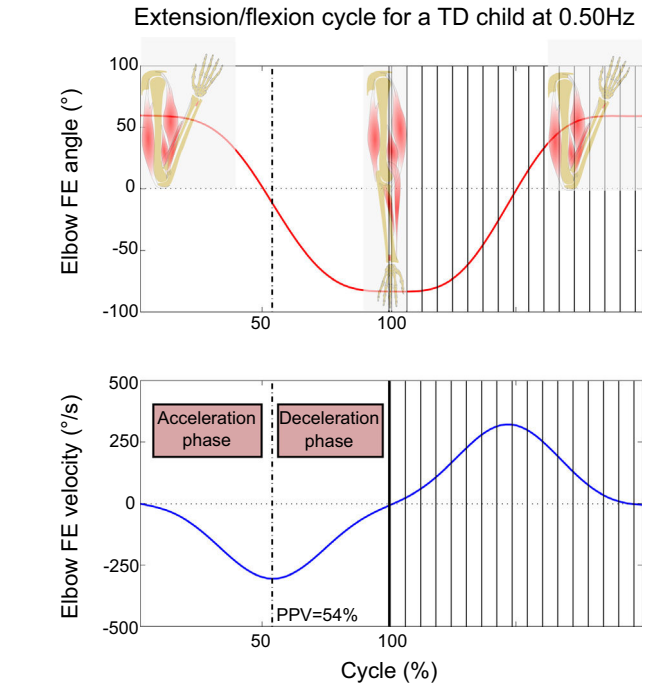


Fig. 2. Elbow EF angle (°) and velocity (°/s) temporally normalized as a function of extension movement time, for a TD child performing an EF trial at 0.50 Hz. Since only the extension movement was analyzed in this study, the flexion movement appears hatched in the figure. The dashed line indicates the instant of maximal extension velocity, or Percentage to Peak Velocity (PPV) which separates the extension acceleration and deceleration phases. Abbreviations: EF-extension/flexion. TD-Typically Developing.

$$CAI_{[EDecP]} = 2 \cdot \frac{\int_{EDecP}(Ag, Antag)}{\int_{EAccP+EDecP}(Ag) + \int_{EAccP+EDecP}(Antag)} \cdot 100, \quad (4)$$

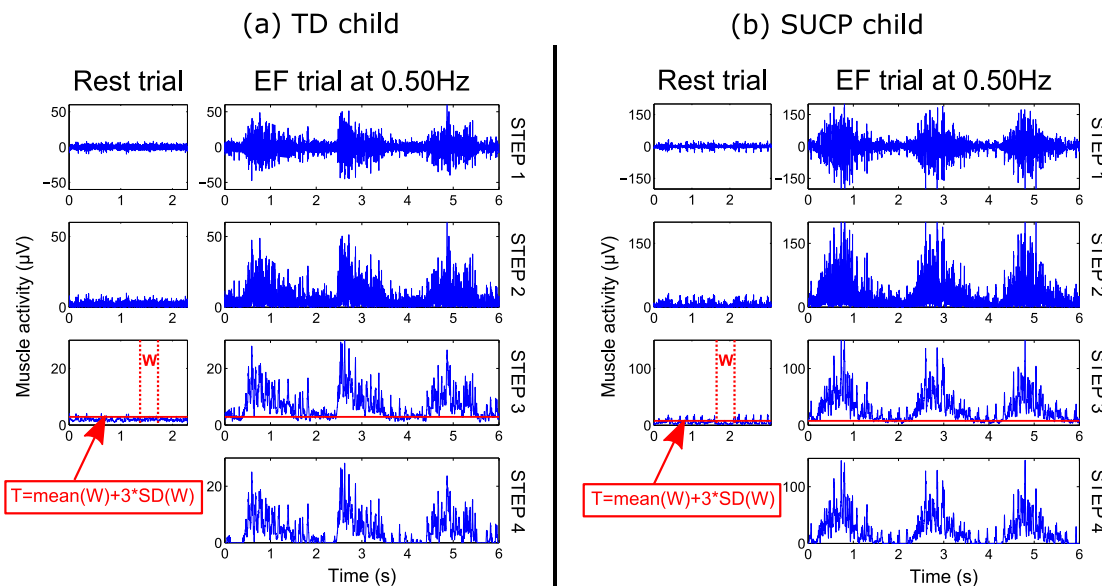


Fig. 1. EMG signals (µV) from the biceps brachii muscle as a function of time (s) shown for 4 different steps of post-processing for a) a TD child during the “rest” trial (left) and during an EF trial at 0.50 Hz (right) and b) a SUCP child (subject 13 in Table 1) during the “rest” trial (left) and during an EF trial at 0.50 Hz (right). Step 1: Band-pass filtered (10–450 Hz, Butterworth zero-lag 4th order) EMG signals. Step 2: Full wave rectified EMG signals. Step 3: EMG signals smoothed with a low-pass filter (50 Hz, Butterworth zero-lag 2nd order). A 300 ms window “W” with the smallest SD was located in the EMG signal of the “rest” trial (Tedroff et al., 2006), and its mean value was calculated. An activation threshold T was then calculated following the equation on the Figure (Hodges and Bui, 1996). Step 4: Smoothed EMG signal with the T value subtracted. The muscle was considered active only if its signal was positive for at least 25 ms. For intervals of less than 25 ms, the value of the smoothed EMG signal was subtracted from itself in order to obtain a signal of zero (Ghosh and Haggard, 2014). Abbreviations: EF-extension/flexion, EMG-electromyography, SD-Standard Deviation, SUCP-Spastic Unilateral Cerebral Palsy, TD-Typically Developing.

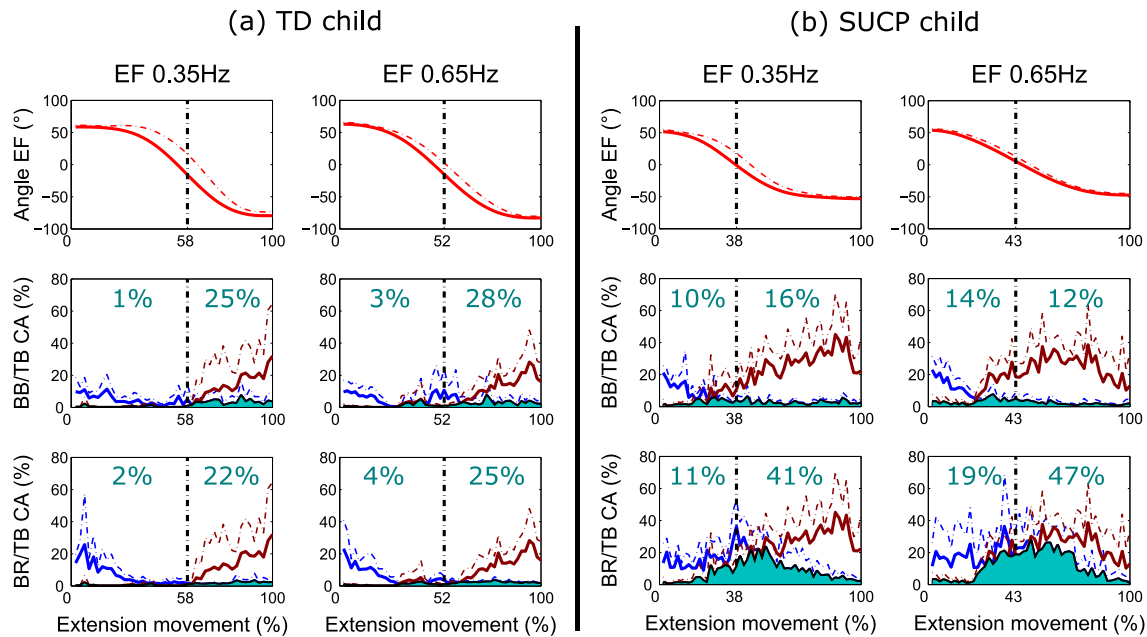


Fig. 3. From top to bottom, temporally normalized as a function of extension movement time: elbow EF angle ($^{\circ}$), normalized EMG signals of the biceps (BB) (blue line)/triceps (TB) (red line) pair, normalized EMG signals of the brachioradialis (BR) (blue line)/triceps (TB) (red line) pair (mean + standard deviation) for a) a TD child performing an EF trial at 0.35 Hz (left) and at 0.65 Hz (right) and b) a SUCP child (subject 13 in Table 1) performing an EF trial at 0.35 Hz (left) and at 0.65 Hz (right). The dotted line indicates the separation between the extension acceleration phase and the extension deceleration phase. For each trial, each antagonist muscle pair, and each movement phase (extension acceleration and extension deceleration), the co-activation index (%), based on the common activation area between the antagonist and the agonist muscles (coloured area) are indicated on the graph. *Abbreviations:* BB-biceps brachii. BR-brachioradialis. TB-triceps brachii. CA-co-activation. EF-extension/flexion. EMG-electromyography. SUCP-Spastic Unilateral Cerebral Palsy. TD-Typically Developing. (For interpretation of the references to colour in this figure legend, the reader is referred to the web version of this article.)

$$CAI_{[EAccP]} + CAI_{[EDecP]} = CAI_{[EAccP+EDecP]}, \quad (5)$$

Moreover, since two flexor muscles were recorded, the CAI was calculated for each antagonist pair. Therefore, the CAI was calculated during the extension movement when the action of the two flexors, the biceps brachii and the brachioradialis (antagonist muscles), can oppose the action of the triceps brachii (agonist muscle): 1. for the biceps/triceps brachii pair and 2. for the brachioradialis/triceps brachii pair. Since we considered the EAccP and EDecP, four CAI were calculated for each extension movement. The values of these four CAI for the mean EF cycle at 0.35 Hz and 0.65 Hz of a TD child and an SUCP child (subject 13 in Table 1), are indicated on Fig. 3 to make the link between the post-processed EMG signals and the CAI analysed in this study.

2.2.5. Statistical analysis

An unpaired Student's *t*-test was used to assess inter-group differences in age, height and weight.

Linear mixed effects models were used to test:

- The effect of the group (TD or SUCP) (independent variable) on elbow AROM during the entire extension movement, on PPV, on mean elbow velocity during the extension acceleration phase, and on the four different CAI (dependent variables) of the participant (random variable).
- The effect of movement frequency (independent variable) on the previously cited parameters (dependent variables) of the participant (random variable), for each group.
- The interaction effect between movement frequency and group (independent variables) on the previously cited parameters (dependent variables) of the participant (random variable).

The random variable linked all data obtained within one participant as described in Gross et al. (2013).

In the SUCP group, a Spearman Rank correlation was applied to analyse the correlations between the four different CAI and active elbow extension ROM, PPV, EAccP elbow velocity and the Modified Ashworth Scale (MAS) score for the elbow flexors.

R 2.14 software (R Development Core Team, 2011) was used for the statistical analyses. The 'nlme' package was used to implement the mixed linear models. Significance was set to $P < 0.05$.

3. Results

3.1. Between-group comparison of morphological parameters

There were no significant differences between groups for age, weight or height.

3.2. Kinematic and spatiotemporal data

Elbow AROM during extension was smaller in the SUCP group than in the TD group (data from the 3 movement frequencies pooled) ($P < 0.001$) (Table 2). There was no effect of movement frequency on elbow AROM during extension in any group ($P > 0.05$) (Table 2).

PPV was shorter in the SUCP group than in the TD group (data from the 3 movement frequencies pooled) ($P = 0.009$) (Table 2). For both SUCP and TD groups, the PPV became shorter with increasing movement frequency (respectively $P = 0.002$ and $P < 0.001$) (Table 2).

Mean elbow velocity during the acceleration phase was lower in the SUCP group than in the TD group (data from the 3 movement frequencies pooled) ($P = 0.004$) (Table 2). For both SUCP and TD groups, mean elbow velocity during the acceleration phase was higher with increasing movement frequency ($P < 0.001$), but this effect was smaller in the SUCP group ($P < 0.001$) (Table 2).

3.3. Co-activation index (CAI) analysis

3.3.1. General results

Biceps/triceps CAI and brachioradialis/triceps CAI during the acceleration phase were higher in the SUCP group than in the TD group (data from the 3 movement frequencies pooled) (respectively $P = 0.004$ and $P < 0.001$) (Table 2). Biceps/triceps CAI and brachioradialis/triceps CAI during the acceleration phase only increased with movement frequency in the SUCP group (respectively $P = 0.001$ and $P = 0.021$) (Table 2).

Fig. 4 shows the change in biceps/triceps CAI (Fig. 4a) and brachioradialis/triceps CAI (Fig. 4b) with movement frequency during the acceleration phase for both the TD and SUCP groups.

Brachioradialis/triceps CAI was higher in the SUCP group than in the TD group during the deceleration phase ($P < 0.001$), but not biceps/triceps CAI (data from the 3 movement frequencies pooled) (Table 2). CAI during the deceleration phase increased with movement frequency for both antagonist pairs ($P < 0.001$ for both muscle pairs and for both groups), with no difference between groups ($P > 0.05$ for the interaction group/movement frequency effect) (Table 2).

Fig. 5 shows changes in biceps/triceps CAI (Fig. 5a) and brachioradialis/triceps CAI (Fig. 5b) with movement frequency during the deceleration phase for both TD and SUCP groups.

3.3.2. Sub-groups according to the severity of impairment

Due to the heterogeneity of impairments in the children in the SUCP group, this group was divided into 2 sub-groups according to the Manual Ability Classification System scores (Eliasson et al., 2006): SUCP_1: children with a MACS score I ($n = 4$), and SUCP_2-3: children with a MACS score of II or III. See the Supplement for results.

Fig. 3 presents an example of data from one child with SUCP (subject 13, MACS score II) and one TD child. Similarly to the SUCP group results, SUCP subject 13 had increasing EAccP biceps/triceps

CAI (from 10% to 14%), EAccP brachioradialis/triceps CAI (from 11% to 19%), and EDecP brachioradialis/triceps CAI (from 41% to 47%) with increasing movement frequency. Moreover, these 3 CAI were larger than for the TD child. However, his EDecP biceps/triceps CAI was lower than the TD child and decreased with movement frequency (from 16% to 12%).

3.4. Relationship between CA and clinical and kinematic parameters

In the SUCP group, the Spearman Rank test showed significant moderate to strong correlations ($|r| > 0.5$) (Table 3):

- Between the brachioradialis/triceps CAI during the deceleration phase and the elbow AROM during extension ($r = -0.50$; $P < 0.001$).
- Between the brachioradialis/triceps CAI during the deceleration phase and the PPV ($r = -0.57$; $P < 0.001$).
- Between the brachioradialis/triceps CAI during the deceleration phase and the MAS score of the flexors ($r = 0.56$; $P < 0.001$).

4. Discussion

The objectives of this study were to highlight the different roles of CA during active elbow extensions of the IUL of children with SUCP and to determine whether elbow flexors were similarly affected by pathological CA. We found abnormal patterns of co-activation in children with SUCP that were specific to the movement phase and to the antagonist flexor muscle. Table 4 summarizes the differences between both populations.

4.1. CA in Typically Developing children

In the TD children, CA during the acceleration phase of the elbow extension movement was weak and was not speed-dependent. CA during the deceleration phase was stronger (150%

Table 2

Mean (SD) values for kinematic, spatiotemporal and CAI data, differences between groups, movement frequency effects and between-group and movement frequency interactions, tested with linear mixed effects models. Abbreviations: *-Significant. AROM-active range of motion. CAI-Co-activation index. EAccP-extension acceleration phase. EDecP-extension deceleration phase. PPV-Percentage to Peak Velocity. NS-non significant. SD-Standard deviation. SUCP-Spastic Unilateral Cerebral Palsy. TD-Typically Developing. Bold P -values indicate a significant difference.

Kinematic, spatiotemporal and CAI data (units)	Mean (SD)		Between groups: Parameter estimate (Std.Error) F-value (dof) (P-value)	Movement frequency effect: Parameter estimate (Std.Error) F-value (dof) (P-value)		Group/movement frequency interaction: Parameter estimate (Std.Error) F-value (dof) (P-value)
	SUCP	TD		SUCP	TD	
Kinematic and spatiotemporal data						
Elbow AROM during extension (°)	106.19 (22.82)	138.61 (11.85)	36.57 (7.87) F = 21.59 (1,24) (<0.001*)	1.64 (1.66) F = 0.98 (1,516) NS	3.42 (1.79) F = 3.66 (1,516) NS	1.77 (2.44) F = 0.53 (1,516) NS
PPV (%)	51.25 (8.07)	55.70 (6.78)	4.97 (1.73) F = 8.20 (1,24) (0.009*)	-4.29 (1.36) F = 9.89 (1,516) (0.002*)	-7.94 (1.46) F = 29.41 (1,516) (<0.001*)	-3.65 (2.00) F = 3.32 (1,516) NS
EAccP Elbow velocity (°/s)	124.02 (39.38)	149.83 (37.28)	30.46 (9.67) F = 9.91 (1,24) (0.004*)	88.51 (3.41) F = 672.25 (1,516) (<0.001*)	119.02 (3.67) F = 1053.66 (1,516) (<0.001*)	30.51 (5.01) F = 37.09 (1,516) (<0.001*)
<i>CAI data</i>						
EAccP Biceps/triceps CAI (%)	16.49 (11.01)	7.64 (7.11)	-9.37 (2.89) F = 10.50 (1,24) (0.004*)	4.38 (1.34) F = 10.69 (1,516) (0.001*)	-1.96 (1.44) F = 1.85 (1,516) NS	-6.34 (1.97) F = 10.38 (1,516) (0.001*)
EAccP Brachioradialis/triceps CAI (%)	17.49 (10.43)	7.56 (6.46)	-10.16 (2.69) F = 14.32 (1,24) (<0.001*)	2.91 (2.38) F = 5.36 (1,516) (0.021*)	-1.60 (1.35) F = 1.41 (1,516) NS	-4.51 (1.84) F = 5.99 (1,516) (0.015*)
EDecP Biceps/triceps CAI (%)	22.00 (12.40)	18.72 (11.03)	-3.81 (3.50) F = 1.19 (1,24) NS	7.89 (1.72) F = 20.95 (1,516) (<0.001*)	10.79 (1.85) F = 34.00 (1,516) (<0.001*)	2.90 (2.53) F = 1.32 (1,516) NS
EDecP Brachioradialis/triceps CAI (%)	30.04 (16.20)	15.32 (8.95)	-15.69 (4.15) F = 14.28 (1,24) (<0.001*)	9.64 (1.77) F = 29.56 (1,516) (<0.001*)	8.77 (1.91) F = 51.12 (1,516) (<0.001*)	-0.88 (2.60) F = 0.11 (1,516) NS

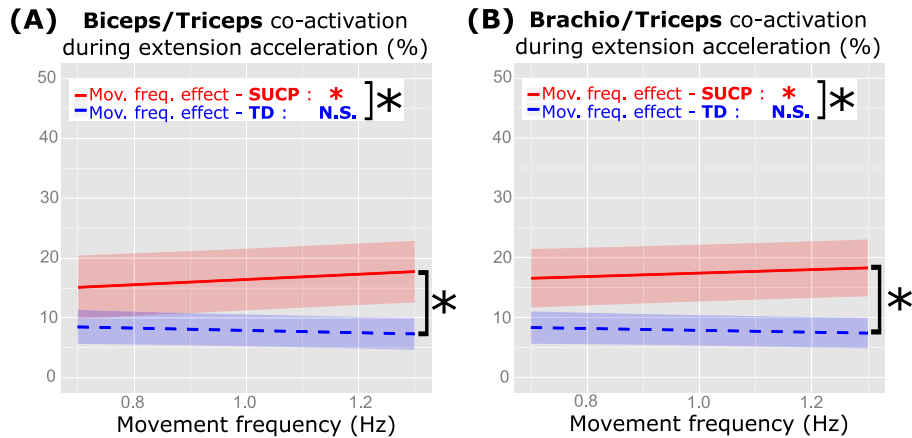


Fig. 4. Change in a. EAccP biceps/triceps CAI (%) and b. EAccP brachioradialis/triceps CAI (%), as a function of movement frequency (Hz) for both TD (blue dashed line) and SUCP (red solid line) groups. The standard deviation of the predictions for each linear mixed effects model is represented by a shaded area. The statistical significance of between-groups effects is directly indicated on the graphs. Movement frequency effects and group/movement frequency interactions are indicated in the white frame. Abbreviations: *—Significant. CAI—co-activation index. EAccP—extension acceleration phase. Mov. freq.—movement frequency. NS—non significant. SUCP—Spastic Unilateral Cerebral Palsy. TD—Typically Developing. (For interpretation of the references to colour in this figure legend, the reader is referred to the web version of this article.)

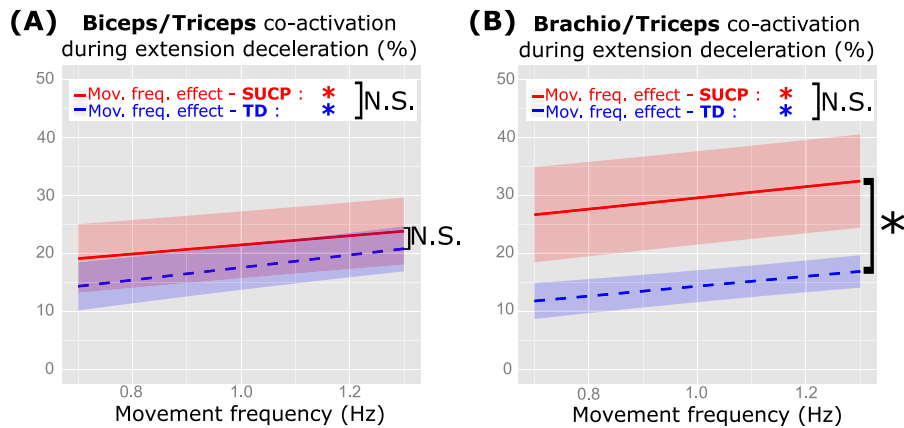


Fig. 5. Change in a. EDecP biceps/triceps CAI (%) and b. EDecP brachioradialis/triceps CAI (%), as a function of movement frequency (Hz) for both TD (blue dashed line) and SUCP (red solid line) groups. The standard deviation of the predictions for each linear mixed effects model is represented by a shaded area. The statistical significance of between-groups effects is directly indicated on the graphs. Movement frequency effects and group/movement frequency interactions are indicated in the white frame. Abbreviations: *—Significant. CAI—co-activation index. EDecP—extension deceleration phase. Mov. freq.—movement frequency. NS—non significant. SUCP—Spastic Unilateral Cerebral Palsy. TD—Typically Developing. (For interpretation of the references to colour in this figure legend, the reader is referred to the web version of this article.)

Table 3

Spearman Rank correlations in the Spastic Unilateral Cerebral Palsy (SUCP) group for kinematic, spatiotemporal and CAI data. For each variable, upper line = Spearman test rho value; lower line = P-value. Abbreviations: *—Significant. AROM—active range of motion. CAI—co-activation index. EAccP—extension acceleration phase. EDecP—extension deceleration phase. IUL—involved upper limb. MAS—Modified Ashworth Scale. PPV—Percentage to Peak Velocity. NS—non significant. SUCP—Spastic Unilateral Cerebral Palsy. Bold P-values indicate a significant difference.

	EAccP Biceps/triceps CAI	EAccP Brachioradialis/triceps CAI	EDecP Biceps/triceps CAI	EDecP Brachioradialis/triceps CAI
Elbow AROM during extension	−0.12 NS	−0.03 NS	−0.13 (0.033*)	−0.50 (<0.001*)
PPV	−0.12 NS	−0.03 NS	−0.30 (<0.001*)	−0.57 (<0.001*)
EAccP Elbow Velocity	0.00 NS	0.07 NS	0.00 NS	−0.18 (0.003*)
MAS for the IUL flexors	0.32 (<0.001*)	0.22 (<0.001*)	0.34 (<0.001*)	0.56 (<0.001*)

of CA during the acceleration phase), and increased with movement speed. These results are in accordance with previous studies which suggest that the role of CA is to slow down and stabilize the joint at the end of the movement (Humphrey and Reed, 1983; Johansson and Westling, 1988; Valero-Cuevas, 2005). We hypothesize that the purpose of CA in this case may also be to prepare the arm for a sudden change of direction, since the tasks involved cyclical EF movements (Rouard and Clarys, 1995). In contrast, CA must be weak at the beginning of the movement to allow the agonist muscle to initiate the movement. It is important to highlight that for the TD children, the level of CA was similar for both muscle pairs.

4.2. CA in children with Spastic Unilateral Cerebral Palsy

The patterns of CA in the children with SUCP were pathological from the beginning to the end of the movement, compared with the TD children. The patterns were specific to the movement phase and to the flexor/extensor muscle pair. During the acceleration phase, CA differed in both muscle pairs of the children with SUCP compared with the TD children in two aspects: first the level, since CA was stronger in the children with SUCP than in the TD children, and secondly in speed-dependence, since CA increased with speed in the children with SUCP whereas it did not change with speed in the TD children. During the deceleration phase, only CA of the bra-

Table 4

Summary of the differences in CA between the TD and the SUCP groups. In the “SUCP group” column, conclusions regarding pathological CA are indicated in bold type.

		Coactivation	
		TD group CA (Physiological CA)	SUCP group CA (Both physiological and pathological CA)
Extension acceleration <i>biceps brachii</i>	Level	Weak (8%)	Strong (16%)
	Speed dependency	↔	↑
	Role	None	Limits movement, increases with speed
Extension acceleration <i>brachioradialis</i>	Level	Weak (8%)	Strong (17%)
	Speed dependency	↔	↑
	Role	None	Limits movement, increases with speed
Extension deceleration <i>biceps brachii</i>	Level	Strong (19%)	Strong (22%)
	Speed dependency	↑	↑
	Role	Slows down and stabilizes joint	Slows down and stabilizes joint
Extension deceleration <i>brachioradialis</i>	Level	Strong (15%)	Strong (30%)
	Speed dependency	↑	↑
	Role	Slows down and stabilizes joint	-Slows down and stabilizes joint -Limits movement, correlated (negatively) with elbow AROM

Abbreviations: ↔ -Not speed dependent, ↑ -Increases with speed, CA-co-activation, SUCP-Spastic Unilateral Cerebral Palsy, TD-Typically Developing.

chioradialis/triceps pair differed between groups, it was stronger in the SUCP group.

These abnormal patterns are suggestive of pathological CA. Firstly, the regulation of CA was impaired throughout the entire extension movement. Excessive CA in one or several flexor/extensor muscle pairs likely restricts movement. This is supported by the fact that movement speed and range of motion were reduced and the acceleration phase was shorter in the SUCP group. Secondly, the excessive CA was speed-dependent in both flexors, from the instant of movement initiation.

However, physiological patterns of CA were also found in the SUCP group (i.e. similar patterns to the TD children). CA was speed-dependent in both muscle pairs during the deceleration phase, and the level of biceps/triceps CA during the deceleration phase was similar in both groups. This suggests that CA in children with SUCP is regulated by both intact physiological mechanisms which stabilize the joint, and pathological mechanisms resulting from the cerebral lesions.

Unlike in the TD group, the behavior of each flexor muscle differed in the SUCP group. The level of brachioradialis/triceps CA during the deceleration phase was about twice that of the TD children, whereas the level of biceps/triceps CA during the deceleration phase was similar to that of the TD children. This suggests that the regulation of CA differs between agonist muscles, which may thus be more or less affected by motor impairments. Electromyographic evaluations of voluntary upper limb movements provide an insight into the nature of the movement disorder and are therefore useful for diagnosis as well as to guide treatment. It has been suggested that co-contraction is primarily triggered by supraspinal drive, and therefore that it increases with the intensity of the motor task (Gracies et al., 2010). This is fully in accordance with our results that showed a speed-dependence of co-activation. In order to better understand the mechanisms of co-activation, neurophysiological investigations of segmental (medullary) and long loop reflexes should be performed, and confronted with investigations of the descending motor drive from the pyramidal tract.

We made the assumption that the pathological CA during the acceleration phase affected the movement kinematics of the children with SUCP. However, CA of the brachioradialis/triceps and biceps/triceps pairs was not correlated with PPV or mean elbow velocity during this phase. It is well known that movement speed is reduced in children with SUCP, however this restriction is difficult to quantify as their AROM is also restricted. In our study, the children with SUCP successfully performed EF movements at higher movement frequencies, with no loss of their extension AROM. We suggest that this was partly due to the fact that the

movement was gravity-assisted, thus the children could take advantage of the inertial forces which increased with movement velocity. Since pathological CA increased with movement frequency during the acceleration phase, we assume that for higher movement frequencies, at some point the force produced by flexors would overcome the inertial forces, resulting in a decrease in AROM. This is in accordance with Rameckers et al. (2010) who showed that reducing antagonist elbow flexor activity helped children with SUCP to perform fast alternating shift tasks with an increase in elbow velocity.

The excessive CA of brachioradialis/triceps during the deceleration phase in the SUCP group was most correlated (negatively) with elbow AROM during extension and with PPV, suggesting a relationship between the level of brachioradialis/triceps CA during the deceleration phase and motor impairment. This was confirmed by the positive correlation between brachioradialis/triceps CA during the deceleration phase and flexor spasticity (MAS).

4.3. Limitations of the study

The study may be insufficiently statistically-powered because of the small number of subjects included. Non-significant results should therefore be interpreted with caution. Moreover, the distribution of spasticity in the children with SUCP was variable, leading to heterogeneous results. However, this also made the sample representative of children with unilateral spastic cerebral palsy.

4.4. Clinical significance

Impaired regulation of CA was found throughout the entire extension movement in the children with SUCP. CA was pathological for both biceps and brachioradialis during the acceleration phase, but only for brachioradialis during the deceleration phase. These results suggest that the elbow flexors are differently affected by spastic muscle overactivity. However, the results varied between the children because they had each had SUCP of differing severity. Indeed, the results presented in the Supplement show that the CA of brachioradialis and biceps was similarly high in the children with the most severe SUCP (MACS score II and III). On the other hand, it seemed quite obvious looking at subject 13, who had a MACS score of II (Fig. 3), that his brachioradialis was more affected by muscle overactivity than his biceps. We thus suggest that individual analyses of voluntary upper limb movements, including EMG of individual elbow flexor muscles, might be carried out (Van Thiel et al., 2000) in order to determine the specific mechanisms of movement limitations in each child and to provide an appropriate treatment plan.

This could highlight more appropriate muscles than the biceps brachii as targets to treatment. Currently, the biceps brachii is the most common muscle to be injected with botulinum toxin type-A (Gracies, 2005; Nalysnyk et al., 2013), mostly for practical reasons since the muscle is superficial and easy to inject (Ismail et al., 2015). Moreover, maintaining some or all of the biceps muscle activation, when justified, would preserve its powerful supination action, especially as children with SUCP frequently have limited supination AROM (de Bruin et al., 2013; Ismail et al., 2015; Sarcher et al., 2015).

5. Conclusion

This study provided an insight into co-activation during active elbow extension of the involved upper limb of children with Spastic Unilateral Cerebral Palsy. Both pathological and physiological co-activation was found. Excessive, speed-dependent co-activation was found during the acceleration phase of extension, for both brachioradialis/triceps and biceps/triceps muscle pairs, and excessive brachioradialis/triceps co-activation was found during the deceleration phase. Moreover, the brachioradialis/triceps co-activation during the deceleration phase was negatively correlated with active range of extension. Our methodology could be used to evaluate the effectiveness of treatments (for example constraint-induced movement therapy) through pre- and post-treatment evaluations of voluntary upper limb movements with quantification of changes in kinematics and muscle co-activation.

Acknowledgments

This work was partially supported by the Méditis (NSERC/CREATE, subvention number 371297-2010) training program and scholarships in biomedical technologies. We thank Nathalie Trudelle, head of the Cerebral Palsy program at Marie Enfant Rehabilitation Centre – Ste Justine UHC, for supporting this study. We also thank Karine Trudel and Audrey Parent for their help with data collection, and Johanna Robertson for her thorough and precise English proofreading. We are grateful to the children and their parents for their collaboration.

Conflict of interest statement: None of the authors have potential conflicts of interest to be disclosed.

Appendix A. Supplementary data

Supplementary data associated with this article can be found, in the online version, at <http://dx.doi.org/10.1016/j.clinph.2016.10.086>.

References

Bard C, Hay L, Fleury M. Timing and accuracy of visually directed movements in children: control of direction and amplitude components. *J Exp Child Psychol* 1990;50:102–18.

Barre A, Armand S. Biomechanical Toolkit: open-source framework to visualize and process biomechanical data. *Comput Methods Programs Biomed* 2014;114:80–7.

Basmajian JV. Primary Anatomy. 8th ed. Baltimore: Williams and Wilkins; 1982.

Bohannon RW, Smith MB. Interrater reliability of a modified Ashworth scale of muscle spasticity. *Phys Ther* 1987;67:206–7.

Braendvik SM, Roelleveld K. The role of co-activation in strength and force modulation in the elbow of children with unilateral cerebral palsy. *J Electromyogr Kinesiol* 2012;22:137–44.

de Bruin M, Veeger HEJ, Kreulen M, Smeulders MJC, Bus SA. Biceps brachii can add to performance of tasks requiring supination in cerebral palsy patients. *J Electromyogr Kinesiol* 2013;23:516–22.

Bullock D, Grossberg S. Adaptive neural networks for control of movement trajectories invariant under speed and force rescaling. *Hum Mov Sci* 1991;10:3–53.

Burden A. How should we normalize electromyograms obtained from healthy participants? What we have learned from over 25 years of research. *J Electromyogr Kinesiol* 2010;20:1023–35.

Damiano DL, Martellotta TL, Sullivan DJ, Granata KP, Abel MF. Muscle force production and functional performance in spastic cerebral palsy: relationship of cocontraction. *Arch Phys Med Rehabil* 2000;81:895–900.

Eliasson A-C, Krumlinde-Sundholm L, Rösblad B, Beckung E, Arner M, Ohrvall A-M, et al. The Manual Ability Classification System (MACS) for children with cerebral palsy: scale development and evidence of validity and reliability. *Dev Med Child Neurol* 2006;48:549–54.

Falconer K, Winter DA. Quantitative assessment of co-contraction at the ankle joint in walking. *Electromyogr Clin Neurophysiol* 1985;25:135–49.

Fehlings D, Rang M, Glazier J, Steele C. An evaluation of botulinum-A toxin injections to improve upper extremity function in children with hemiplegic cerebral palsy. *J Pediatr* 2000;137:331–7.

Feltham MG, Ledebt A, Deconinck FJA, Savelsbergh GJP. Assessment of neuromuscular activation of the upper limbs in children with spastic hemiparetic cerebral palsy during a dynamical task. *J Electromyogr Kinesiol* 2010;20:448–56.

Ferrari A, Maoret AR, Muzzini S, Alboresi S, Lombardi F, Sgandurra G, et al. A randomized trial of upper limb botulinum toxin versus placebo injection, combined with physiotherapy, in children with hemiplegia. *Res Dev Disabil* 2014;35:2505–13.

Ghosh A, Haggard P. The spinal reflex cannot be perceptually separated from voluntary movements. *J Physiol* 2014;592:141–52.

Gracies J-M. Pathophysiology of spastic paresis. II: Emergence of muscle overactivity. *Muscle Nerve* 2005;31:552–71.

Gracies J-M, Bayle N, Vinti M, Alkandari S, Vu P, Loche CM, et al. Five-step clinical assessment in spastic paresis. *Eur J Phys Rehabil Med* 2010;46:411–21.

Gross R, Leboeuf F, Hardouin JB, Lempereur M, Perrouin-Verbe B, Remy-Neris O, et al. The influence of gait speed on co-activation in unilateral spastic cerebral palsy children. *Clin Biomech* 2013;28:312–7.

Gross R, Leboeuf F, Hardouin JB, Perrouin-Verbe B, Brochard S, Rémy-Néris O. Does muscle coactivation influence joint excursions during gait in children with and without hemiplegic cerebral palsy? Relationship between muscle coactivation and joint kinematics. *Clin Biomech* 2015;30:1088–93.

Hermens HJ, Freriks B, Merletti R, Stegeman D, Blok J, Rau G, et al. European recommendations for surface electromyography, results of SENIAM project. 8th ed. Enschede: Roessingh Research and Development; 1999.

Hoare BJ, Wallen MA, Imms C, Villanueva E, Rawicki HB, Carey L. Botulinum toxin A as an adjunct to treatment in the management of the upper limb in children with spastic cerebral palsy (UPDATE). *Cochrane Database Syst Rev* 2010(1): CD003469.

Hodges PW, Bui BH. A comparison of computer-based methods for the determination of onset of muscle contraction using electromyography. *Electroencephalogr Clin Neurophysiol* 1996;101:511–9.

Humphrey DR, Reed DJ. Separate cortical systems for control of joint movement and joint stiffness: reciprocal activation and coactivation of antagonist muscles. *Adv Neurol* 1983;39:347–72.

Ikeda AJ, Abel MF, Granata KP, Damiano DL. Quantification of cocontraction in spastic cerebral palsy. *Electromyogr Clin Neurophysiol* 1998;38:497–504.

Ismail F, Phadke CP, Boulias C. Biceps brachii botulinum toxin injections: to be or not to be. *Can J Neurol Sci* 2015;42:482.

Johansson RS, Westling G. Coordinated isometric muscle commands adequately and erroneously programmed for the weight during lifting task with precision grip. *Exp Brain Res* 1988;71:59–71.

King BR, Kagerer FA, Contreras-Vidal JL, Clark JE. Evidence for multisensory spatial-to-motor transformations in aiming movements of children. *J Neurophysiol* 2009;101:315–22.

Laitenberg M, Raison M, Périé D, Begon M. Refinement of the upper limb joint kinematics and dynamics using a subject-specific closed-loop forearm model. *Multibody Syst Dyn* 2015;33:413–38.

Lee JS, Lee KB, Lee YR, Choi YN, Park CW, Park SD, et al. Botulinum toxin treatment on upper limb function in school age children with bilateral spastic cerebral palsy: one year follow-up. *Ann Rehabil Med* 2013;37:328–35.

Leonard CT, Hirschfeld H, Forssberg H. The development of independent walking in children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 1991;33:567–77.

Levin MF, Selles RW, Verheul MH, Meijer OG. Deficits in the coordination of agonist and antagonist muscles in stroke patients: implications for normal motor control. *Brain Res* 2000;853:352–69.

Lidman G, Nachemson A, Peny-Dahlstrand M, Himmelmann K. Botulinum toxin A injections and occupational therapy in children with unilateral spastic cerebral palsy: a randomized controlled trial. *Dev Med Child Neurol* 2015;57:754–61.

Lu T-W, O'Connor JJ. Bone position estimation from skin marker co-ordinates using global optimisation with joint constraints. *J Biomech* 1999;32:129–34.

Nalysnyk L, Papapetropoulos S, Rotella P, Simeone JC, Alter KE, Esquenazi A. On a botulinum toxin A muscle injection patterns in adult spasticity: a systematic literature review. *BMC Neurol* 2013;13:118.

O'Shea TM. Diagnosis, treatment, and prevention of cerebral palsy. *Clin Obstet Gynecol* 2008;51:816–28.

Olesch CA, Greaves S, Imms C, Reid SM, Graham HK. Repeat botulinum toxin-A injections in the upper limb of children with hemiplegia: a randomized controlled trial. *Dev Med Child Neurol* 2010;52:79–86.

Prosser LA, Lee SCK, VanSant AF, Barbe MF, Lauer RT. Trunk and hip muscle activation patterns are different during walking in young children with and without cerebral palsy. *Phys Ther* 2010;90:986–97.

- Rameckers EAA, Duysens J, Speth LAWM, Vles HJS, Smits-Engelsman BCM. Effect of addition of botulinum toxin-A to standardized therapy for dynamic manual skills measured with kinematic aiming tasks in children with spastic hemiplegia. *J Rehabil Med* 2010;42:332–8.
- Rameckers EAA, Speth LAWM, Duysens J, Vles JSH, Smits-Engelsman BCM. Kinematic aiming task: measuring functional changes in hand and arm movements after botulinum toxin-A injections in children with spastic hemiplegia. *Am J Phys Med Rehabil* 2007;86:538–47.
- Rameckers EAA, Speth LAWM, Duysens J, Vles JSH, Smits-Engelsman BCM. Botulinum toxin-a in children with congenital spastic hemiplegia does not improve upper extremity motor-related function over rehabilitation alone: a randomized controlled trial. *Neurorehabil Neural Repair* 2009;23:218–25.
- Roberts TJ, Gabaldón AM. Interpreting muscle function from EMG: lessons learned from direct measurements of muscle force. *Integr Comp Biol* 2008;48:312–20.
- van Roon D, Steenbergen B, Meulenbroek RGJ. Trunk use and co-contraction in cerebral palsy as regulatory mechanisms for accuracy control. *Neuropsychologia* 2005;43:497–508.
- Rouard AH, Clarys JP. Cocontraction in the elbow and shoulder muscles during rapid cyclic movements in an aquatic environment. *J Electromyogr Kinesiol* 1995;5:177–83.
- Sakzewski L, Ziviani J, Boyd RN. Efficacy of upper limb therapies for unilateral cerebral palsy: a meta-analysis. *Pediatrics* 2014;133:e175–204.
- Sarcher A, Raison M, Ballaz L, Lemay M, Leboeuf F, Trudel K, et al. Impact of muscle activation on ranges of motion during active elbow movement in children with spastic hemiplegic cerebral palsy. *Clin Biomech* 2015;30:86–94.
- Speth L, Janssen-Potten Y, Rameckers E, Defesche A, Winkens B, Becher J, et al. Effects of botulinum toxin A and/or bimanual task-oriented therapy on upper extremity activities in unilateral Cerebral Palsy: a clinical trial. *BMC Neurol* 2015;15:143.
- Steenbergen B, Meulenbroek RGJ, Rosenbaum DA. Constraints on grip selection in hemiparetic cerebral palsy: effects of lesional side, end-point accuracy, and context. *Brain Res Cogn Brain Res* 2004;19:145–59.
- Team RDC. R: A language and environment for statistical computing. Vienna: R Foundation for Statistical Computing; 2011.
- Tedroff K, Knutson LM, Soderberg GL. Synergistic muscle activation during maximum voluntary contractions in children with and without spastic cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 2006;48:789–96.
- Thomas JR, Yan JH, Stelmach GE. Movement substructures change as a function of practice in children and adults. *J Exp Child Psychol* 2000;75:228–44.
- Van Braeckel K, Butcher PR, Geuze RH, Stremmelaar EF, Bouma A. Movement adaptations in 7- to 10-year-old typically developing children: evidence for a transition in feedback-based motor control. *Hum Mov Sci* 2007;26:927–42.
- Van Thiel E, Meulenbroek RG, Hulstijn W, Steenbergen B. Kinematics of fast hemiparetic aiming movements toward stationary and moving targets. *Exp Brain Res* 2000;132:230–42.
- Unnithan VB, Dowling JJ, Frost G, Volpe Ayub B, Bar-Or O. Cocontraction and phasic activity during GAIT in children with cerebral palsy. *Electromyogr Clin Neurophysiol* 1996;36:487–94.
- Valero-Cuevas FJ. An integrative approach to the biomechanical function and neuromuscular control of the fingers. *J Biomech* 2005;38:673–84.
- Volman MJM, Wijnroks A, Vermeer A. Effect of task context on reaching performance in children with spastic hemiparesis. *Clin Rehabil* 2002;16:684–92.
- van der Weel FR, van der Meer AL, Lee DN. Effect of task on movement control in cerebral palsy: implications for assessment and therapy. *Dev Med Child Neurol* 1991;33:419–26.
- Wilson PH, Hyde C. The development of rapid online control in children aged 6–12 years: reaching performance. *Hum Mov Sci* 2013;32:1138–50.
- Wu C, Trombly CA, Lin K, Tickle-Degnen L. A kinematic study of contextual effects on reaching performance in persons with and without stroke: influences of object availability. *Arch Phys Med Rehabil* 2000;81:95–101.
- Xu K, Mai J, He L, Yan X, Chen Y. Surface electromyography of wrist flexors and extensors in children with hemiplegic cerebral palsy. *PM R* 2015;7:270–5.
- Yan JH, Thomas KT, Stelmach GE, Thomas JR. Developmental differences in children's ballistic aiming movements of the arm. *Percept Mot Skills* 2003;96:589–98.

4.2.2. DISCUSSION

Les résultats apportés par cet article sont :

- La co-activation physiologique intervient au moment de la décélération et augmente avec la vitesse du mouvement. On suppose donc que cette co-activation permet de stabiliser l'articulation en fin de mouvement d'extension.
- La co-activation pathologique spastique intervient :
 - Au moment de l'accélération et augmente avec la vitesse du mouvement.
 - Au moment de la décélération pour le couple brachioradialis-triceps.

Ces co-activations pathologiques limitent donc le mouvement actif, comme mis en évidence à l'aide de la première étude.

4.3. DISCUSSION GENERALE DE L'OBJECTIF 1.

Ces études ont ainsi montré que l'analyse des signaux EMG de surface au membre supérieur lors de mouvements actifs du coude chez les enfants avec une PCUS apporte des informations cliniquement pertinentes sur la présence de co-activations pathologiques, notamment grâce à l'indice global de Falconer et Winter. De plus, des différences de comportement ont été mises en évidence entre les muscles agonistes, par exemple entre les fléchisseurs ou entre les pronateurs, qui justifient de mesurer leur activation musculaire pour chacun des enfants afin d'optimiser le choix thérapeutique.

Les limites de ces études portent sur les points suivants :

- Le groupe de 13 enfants avec une PCUS est très hétérogène, ce qui est intéressant pour une étude de faisabilité, mais qui peut expliquer pourquoi certaines données statistiques sont à la limite de la significativité.
- L'indice de Falconer et Winter est sorti comme un indice pertinent pour calculer la co-activation et détecter les anomalies d'activation musculaire. Cependant, l'article 1 qui utilise d'autres paramètres extraits de l'EMG montre des différences d'activation à la fois des muscles antagonistes et des muscles agonistes. Ainsi, il est possible que des informations sur l'activation musculaire agoniste et/ou antagoniste soient perdues en utilisant seulement un indice de co-activation. Or, extraire plusieurs paramètres des signaux EMG entraîne une analyse et caractérisation plus complexe des anomalies d'activation musculaire.
- De plus, l'article 2 montre que la caractérisation des anomalies d'activation musculaire est spécifique à la phase du mouvement. L'aspect temporel du signal est donc primordial, mais décomposer le mouvement en plusieurs phases augmente de nouveau le nombre de variables à analyser et complexifie la caractérisation des anomalies d'activation musculaire.

A la suite de ces études, la principale conclusion est qu'une méthode de détection consistant à extraire un ou plusieurs paramètres des signaux EMG ne suffit pas pour caractériser au mieux les anomalies de commande musculaire chez les enfants avec une PCUS. Pour la suite des études, il a donc été décidé d'utiliser une méthode de détection consistant à directement analyser les enveloppes linéaires des signaux EMG, conservant ainsi l'aspect temporel du signal de chaque muscle.

5. OBJECTIF 2.1 : REPRODUCTIBILITE DE LA MESURE DE L'ACTIVATION MUSCULAIRE DU MEMBRE SUPERIEUR CHEZ L'ENFANT PC ET L'ENFANT A DEVELOPPEMENT TYPIQUE

Le chapitre précédent a montré que la mesure EMG permet bien de détecter des anomalies de commande musculaire chez un groupe d'enfants avec une PCUS. Pour bien caractériser ces anomalies, une méthode de détection consistant à directement analyser les enveloppes linéaires des signaux EMG est à privilégier.

L'intérêt d'une telle technique est de pouvoir étudier l'activation musculaire de chaque enfant PC afin d'aider au diagnostic des muscles présentant des anomalies d'activation et d'adapter les traitements proposés en fonction de ces informations. Ainsi, il est nécessaire de vérifier, pour la mesure EMG du membre supérieur chez l'enfant à développement typique et l'enfant avec une PCUS :

- La reproductibilité de la mesure.
- La détectabilité de la mesure.
- La sensibilité au changement de la mesure.

L'article 3 propose de quantifier la variabilité des enveloppes linéaires des signaux EMG des enfants avec une PCUS et des enfants à DT, et de développer une méthode de détection de différence directement à partir de ces enveloppes linéaires.

Une introduction générale de cet article est présentée expliquant brièvement le cheminement scientifique, les objectifs, la méthode et le résumé des résultats. L'article est ensuite présenté sous sa forme publiée. A la suite de cet article, une discussion est réalisée sur ses limites.

5.1. ARTICLE 3. PATTERNS OF UPPER LIMB MUSCLE ACTIVATION IN CHILDREN WITH UNILATERAL SPASTIC CEREBRAL PALSY: VARIABILITY AND DETECTION OF DEVIATIONS

5.1.1. RESUME DE L'ARTICLE

L'étude présentée dans l'article 3 a deux objectifs : 1) Quantifier la variabilité des enveloppes linéaires des signaux EMG chez les enfants avec une PCUS et chez les enfants à DT, tout en comparant différentes techniques de normalisation du signal EMG. 2) Développer une méthode de détection a) d'anomalies de commande musculaire d'un enfant avec une PCUS par rapport à un groupe d'enfants à DT et b) des différences d'activation musculaire avant et après un traitement de la co-activation musculaire.

Pour cet article, les enfants avec une PCUS et à DT étudiés ne sont pas les mêmes que ceux étudiés dans les articles 1 et 2. 12 enfants à DT et 6 enfants avec une PCUS ont réalisé deux sessions d'analyse de leur activation musculaire. Les enveloppes linéaires des signaux EMG sont analysées pour les mouvements de flexion/extension et de pronosupination du coude à 0.50Hz. La méthode du maximum de vraisemblance « Likelihood » est utilisée pour estimer la variabilité inter-essai, inter-session et inter-sujet des enveloppes linéaires des signaux EMG, pour chaque groupe d'enfants et pour chaque instant du cycle de mouvement, et ce, pour trois types de normalisation EMG. Les anomalies d'activation musculaire par rapport à un groupe d'enfants à DT et les différences d'activation musculaire avant et après un traitement de la co-activation musculaire ont été caractérisées lors d'une étude de cas pour un enfant avec une PCUS.

Les principaux résultats montrent que :

- La méthode de normalisation EMG la plus fiable pour notre protocole est celle qui utilise le pic moyen obtenu lors d'essais dynamiques.
- Les variabilités inter-essai et inter-session des enveloppes linéaires des signaux EMG sont équivalentes, et ce pour les deux groupes.
- Chacune des variabilités inter-essai et inter-session est similaire entre le groupe d'enfants avec une PCUS et le groupe d'enfants à DT.
- L'enfant avec une PCUS étudié présente des niveaux d'activation de certains muscles plus élevés que ceux du groupe d'enfants à DT.
- L'enfant avec une PCUS étudié présente une diminution d'activation musculaire du muscle traité par injection de toxine botulique.

Cette étude inclut le développement d'une méthode de détection a) des anomalies de commande musculaire d'un enfant avec une PCUS en comparaison avec une référence d'enfants à DT et b) des

évolutions d'activation musculaire d'un enfant avec une PCUS avant et après un traitement. Cette méthode permet une caractérisation spécifique à chaque muscle, et détaillée sur tous les instants du cycle de mouvement. Malgré la variabilité des enveloppes linéaires des signaux EMG, les anomalies et évolutions d'activation musculaire d'un enfant avec une PCUS peuvent être détectées et caractérisées.



Patterns of upper limb muscle activation in children with unilateral spastic cerebral palsy: Variability and detection of deviations

Aurélie Sarcher^{a,b,*}, Sylvain Brochard^{b,c}, François Hug^d, Guy Letellier^e, Maxime Raison^f,
Brigitte Perrouin-Verbe^a, Morgan Sangeux^g, Raphaël Gross^{a,d}

^a Motion Analysis Laboratory, Physical Medicine and Rehabilitation, University Hospital of Nantes, Nantes, France

^b Laboratory of Medical Information Processing (LaTIM), INSERM UMR 1101, Brest, France

^c Physical Medicine and Rehabilitation, University Hospital of Brest, Brest, France

^d Laboratory of Movement – Interactions – Performance (MIP), EA 4334, University of Nantes, Nantes, France

^e Pediatric rehabilitation center ESEAN, Nantes, France

^f Rehabilitation Engineering Chair Applied to Pediatrics (RECAP), Sainte-Justine University Hospital and Ecole Polytechnique de Montréal, Montréal, QC, Canada

^g Royal Children's Hospital, Murdoch Children's Research Institute, University of Melbourne, Melbourne, Australia

ARTICLE INFO

Keywords:

Cerebral palsy
Spastic co-contraction
Surface electromyography
Upper limb

ABSTRACT

Background: The aim of this study was two-fold: (1) to quantify the variability of upper limb electromyographic patterns during elbow movements in typically developing children and children with unilateral spastic cerebral palsy, and to compare different amplitude normalization methods; (2) to develop a method using this variability to detect (a) deviations in the patterns of a child with unilateral spastic cerebral palsy from the average patterns of typically developing children, and (b) changes after treatment to reduce muscle activation.

Methods: Twelve typically developing children ([6.7–15.9yo]; mean 11.0 SD 3.0yo) and six children with unilateral spastic cerebral palsy ([7.9–17.4yo]; mean 12.4 SD 4.0yo) attended two sessions during which they performed elbow extension-flexion and pronation-supination movements. Surface electromyography of the biceps, triceps, brachioradialis, pronator teres, pronator quadratus, and brachialis muscles was recorded. The Likelihood method was used to estimate the inter-trial, inter-session, and inter-subject variability of the electromyography patterns for each time point in the movement cycle. Deviations in muscle patterns from the patterns of typically developing children and changes following treatment were evaluated in a case study of a child with cerebral palsy.

Findings: Normalization of electromyographic amplitude by the mean peak yielded the lowest variability. The variability data were then used in the case study. This method detected higher levels of activation in specific muscles compared with typically developing children, and a reduction in muscle activation after botulinum toxin A injections.

Interpretation: Upper limb surface electromyography pattern analysis can be used for clinical applications in children with cerebral palsy.

1. Introduction

Children with Unilateral Spastic Cerebral Palsy (USCP) frequently have impaired motor control of the upper limb (Steenbergen and Gordon, 2006). In particular, elbow extension (Steenbergen et al., 2000) and supination (Kreulen et al., 2007) may be limited because of spastic contractions of the flexor and pronator muscles respectively (de Bruin et al., 2013; Sarcher et al., 2017, 2015). A lack of active elbow

extension and/or supination restricts autonomy in activities of daily living. A common treatment to reduce excessive muscle activation caused by spasticity or involuntary contractions (Levitt, 2010; Novak et al., 2013) and improve upper limb function is intramuscular botulinum toxin A injections (BTI). To improve supination, both pronator muscles (pronator teres and pronator quadratus) are often treated because, until now, no method existed to clinically determine which of the two muscles is excessively activated during voluntary supination.

* Corresponding author at: Laboratoire d'analyse du mouvement, Hôpital Saint Jacques, 85 Rue Saint Jacques, 44093 Nantes Cedex 1, France.

E-mail addresses: aurelie.sarcher@chu-nantes.fr (A. Sarcher), sylvain.brochard@chu-brest.fr (S. Brochard), francois.hug@univ-nantes.fr (F. Hug), g.letellier@esean.fr (G. Letellier), maxime.raison@polymtl.ca (M. Raison), brigitte.perrouinverbe@chu-nantes.fr (B. Perrouin-Verbe), morgan.sangeux@rch.org.au (M. Sangeux), raphael.gross@chu-nantes.fr (R. Gross).

Analysis of patterns of muscle activation during upper limb movements using surface electromyography (EMG) can help to identify muscles that are excessively activated in patients with motor control disorders, and then determine appropriate treatments. The dynamic EMG patterns of an individual with a neurological disorder can be compared to the average patterns of a healthy reference group to determine if they are within normal limits or not. In patients with neurological disorders, the timing (Buurke et al., 2004; Detrembleur et al., 1997; Knuppe et al., 2013; Prosser et al., 2010; Rose et al., 1999, 1994; Sarcher et al., 2015) and magnitude (Meyns et al., 2016; Prosser et al., 2010; Sarcher et al., 2015; Unnithan et al., 1996) of muscle activation are often altered. Co-activations (concomitant activation of the agonist and antagonist muscle) are frequent in individuals with spastic cerebral palsy (Gracies, 2005), and can restrict active movement. Pathological extra-segmental activations (also called synkinesis, mass movements, or overflow) (Gracies, 2005) produce involuntary movements. Analysis of dynamic EMG patterns can help to distinguish between these different types of pathological activation. It can also be useful to evaluate the effect of treatment (Buurke et al., 2004; Grunt et al., 2010).

Several sources of variability may affect dynamic EMG patterns and should be considered during their interpretation. These sources include 1) the natural variability that occurs between consecutive cycles of a movement (inter-trial); 2) the variability that occurs between measurement sessions (inter-session) due to the extrinsic variability of the measurement process (e.g., electrode placement, skin condition) and the natural variability of the disorder over time or with the time of day; 3) variability between subjects (inter-subject) to achieve the same movement: this variability must be considered when using the EMG patterns of several subjects that are averaged to provide a reference, and 4) variability between assessors (inter-assessor variability), which is not explored in this study.

It is not possible to evaluate all the sources of variability for individual patients since this would imply carrying out several measurement sessions. One solution, therefore, is to determine the average variability of the dynamic EMG patterns of a sample of typically developing (TD) children and a sample of children with USCP and to use this data as a reference for the interpretation of dynamic EMG patterns in children with USCP (Schwartz et al., 2004). This has already been done for lower limb muscles during gait in children (Granata et al., 2005; Tirosh et al., 2013), however the different sources of variability for upper limb movements have not yet been quantified in TD children or children with USCP.

This study had two aims:

- (1) To quantify the different sources of variability of upper limb surface electromyographic (EMG) patterns during elbow movements in TD children and children with USCP. In addition to providing the data necessary for the comparison of EMG patterns, we also wished to clarify two issues: a) whether inter-session variability is larger than inter-trial variability, and b) whether upper limb EMG pattern variability differs between children with USCP and TD children. We also compared three methods of EMG amplitude normalization to determine which was less variable with regards to our aims.
- (2) To determine whether differences in EMG patterns can be detected a) between the EMG patterns of a child with USCP and the average EMG patterns of a group of TD children and b) between EMG patterns of a child with USCP before and after a treatment to reduce muscle activation (botulinum toxin A injections). This part of the study was based on a case study of one child with USCP.

Between group comparisons of upper limb EMG patterns were not carried out in this study since other studies have already addressed this subject: differences in the amplitude and timing of upper limb EMG patterns between populations with and without USCP have previously been demonstrated (de Bruin et al., 2013; Sarcher et al., 2017, 2015).

2. Methods

2.1. Experimental protocol

Convenience samples of 12 TD children (aged from 6.7 to 15.9 years, mean 11.0 years, SD 3.0) and 6 children with USCP (aged from 7.9 to 17.4 years, mean 12.4 years, SD 4.0) were included. The upper limb Physician Rating Scale scores of the children with USCP ranged from 11/24 to 22/24. Care was taken to include a wide range of ages in both groups and different levels of upper limb disability in the group with USCP. Participants were volunteers recruited from the patient database of the motion analysis laboratory. Each child participated in two measurement sessions between one day and one month apart, all conducted by the same clinical scientist who is highly experienced in the acquisition of EMG data in children. The fact that only one assessor collected the data ensured there was no inter-assessor error in this study; however inter-assessor error must be considered if several assessors are involved in data collection.

A case study to evaluate the pertinence of individual analysis of EMG patterns was also carried out on one of the children with USCP (Child 1; 13 years old; upper limb Physician Rating Scale 12/24) who was treated with BTI.

Our local ethics committee Comité de Protection des Personnes Ouest IV (France) approved the study (IdRCB No 2016-A01314-47). Written informed consent was obtained from both parents of each child, and informed assent was obtained from all children. Data were processed in accordance with the requirements of the French National Commission for Data Protection and Liberties (CNIL).

During each session, the children performed five cycles of elbow extension/flexion (EF) and five cycles of elbow pronation/supination (PS) at 0.5 Hz. They were asked to carry out maximal elbow extension and flexion, or pronation and supination movements, in synchrony with the beeps of a metronome. A fixed movement frequency was chosen because movement speed has previously been found to have an effect on EMG variability in children during gait (Shuman et al., 2016; Tirosh et al., 2013). Children with USCP performed the movements with their affected arms and the arm used by the TD children was determined by a randomization process. Surface EMG of maximum isometric voluntary contractions (MIVC) against manual resistance for elbow flexion, extension, pronation and supination were also recorded. Surface EMG signals of six muscles: biceps brachii, triceps brachii, brachioradialis, pronator teres, pronator quadratus, and brachialis were recorded using disposable bipolar electrodes (DUO F3010 – rectangular shape 21 × 41 mm; recording diameter 10 mm; Ag-AgCl, lithium chloride gel; unit distance 22 mm; LTT FIAB Vicchio, Firenze, Italy) and sampled at 1000 Hz with a Cometa ZeroWire system (Milan, Italy). The skin was prepared according to established guidelines (Hermens et al., 2000). To determine the placement of the electrodes, each muscle was palpated (Basmajian, 1982) during isometric voluntary contractions against manual resistance of:

- elbow flexion with the elbow in supination for the biceps brachii (Hermens et al., 2000)
- elbow flexion with the elbow in neutral pronation-supination for the brachioradialis (Staudenmann and Taube, 2015)
- elbow flexion with the elbow in pronation for the brachialis on the lateral side of the arm (Staudenmann and Taube, 2015)
- elbow extension for the triceps brachii (Hermens et al., 2000)
- elbow pronation for the pronator teres (Malanga and Campagnolo, 1994; Remaley et al., 2015).

Surface EMG electrodes were placed on the most prominent bulge of each muscle belly (Fig. 1). For the pronator quadratus, surface EMG electrodes were placed on the anterior side of the wrist, perpendicular to the forearm (Basmajian, 1982; Malanga and Campagnolo, 1994) (Fig. 1).

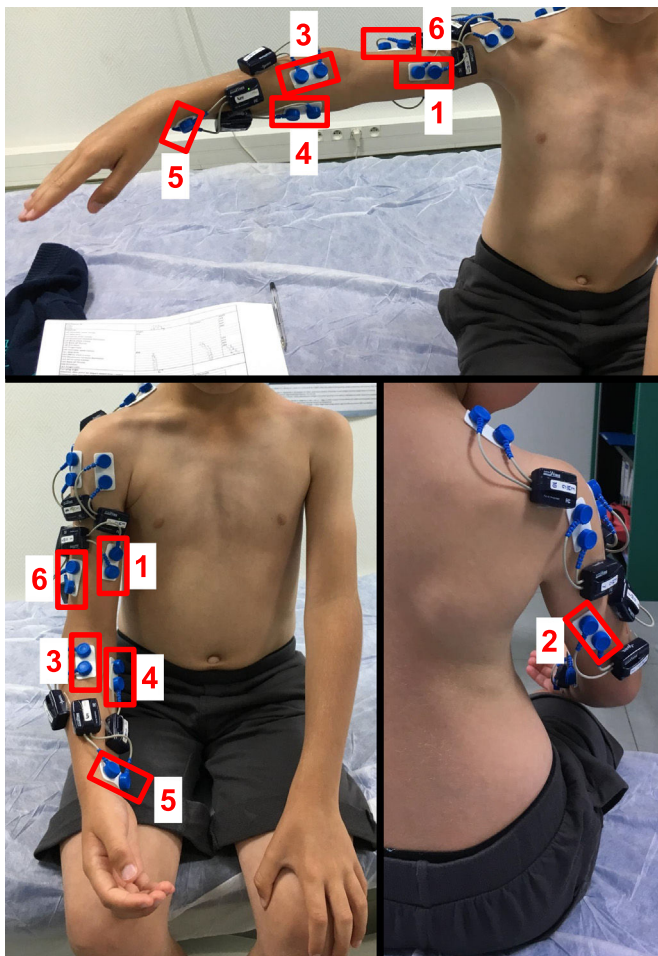


Fig. 1. A typically developing child equipped with surface electromyographic electrodes placed on the biceps brachii (1), the triceps brachii (2), the brachioradialis (3), the pronator teres (4), the pronator quadratus (5), and the brachialis (6).

Post processing of the EMG was performed using custom MATLAB (Mathworks, Natick (MA), USA) routines and the open-source Biomechanical ToolKit library (Barre and Armand, 2014).

The EMG signals were band-pass filtered (10–450 Hz, Butterworth zero-lag 4th order), full-wave rectified, and smoothed with a low-pass filter (50 Hz, Butterworth zero-lag 2nd order) according to previously-published protocols (Sarcher et al., 2017, 2015). EMG patterns were interpolated linearly to 100 points, which represented a whole movement cycle, i.e., for EF, extension occurred from 0 to 50% of the cycle and flexion from 51 to 100%. For PS, pronation occurred from 0 to 50% and supination from 51 to 100%.

It is normal procedure to normalize the EMG signal amplitude so that datasets acquired with different hardware can be compared, however no optimal normalization method has yet been determined (Burden and Bartlett, 1999; Hug, 2011). This is an important issue since the method used affects the subsequent calculation of inter-subject variability. We chose to use the averaged EMG patterns of the TD children as the reference to determine deviations in the patterns of the children with USCP, defined as pathological muscle activation. For this purpose, therefore, differences between the TD children were not of interest, and it was important for inter-subject variability within the TD group to be as small as possible. We chose to study three different methods of EMG amplitude normalization in order to identify the method that resulted in the lowest total inter-subject variability in the TD group. The three different methods applied to each muscle were: 1) normalization by the peak value measured over the averaged EF and

the averaged PS movements (average of the 5 EF cycles and average of the 5 PS cycles); 2) normalization by the peak value in all movement trials (5 EF trials and 5 PS trials); and 3) normalization by the peak value using a 200 ms plateau of the MIVC against manual resistance. Non-normalized EMG patterns were also included in the analysis.

2.2. Variability of the EMG patterns

R 3.2.2 software (R Core Team, 2015) was used for the statistical analyses, using the file “EstVcomp.R” provided as supplementary material in (Chia and Sangeux, 2017), and the “nlme” package for the linear mixed models.

The sources of variability of the upper limb surface EMG patterns were quantified using the framework determined by Schwartz et al. (2004) and the statistical analysis of Chia and Sangeux (2017). We assumed the following linear mixed model would represent our data:

$$\Phi_{ijk} = \mu + Sub_i + Sess_{ij} + Trial_{ijk}$$

where μ denotes the overall mean, and the remaining terms denote the respective random subject, session and trial effects, each following an independent normal distribution with zero mean and variance σ_{source}^2 for their respective source. The residual maximum likelihood method estimates all unknown parameters directly by maximizing the likelihood function implied by the linear mixed model (Brown and Prescott, 2014; Chia and Sangeux, 2017; Patterson and Thompson, 1971).

For the EMG patterns, with and without amplitude normalization, Inter-trial $\sigma_{Inter-trial}^{2 USCP/TD}$, Inter-session $\sigma_{Inter-session}^{2 USCP/TD}$, and Inter-subject $\sigma_{Inter-subject}^{2 USCP/TD}$ variance components were estimated for every point in the movement cycle and averaged over the movement cycle. A mixed model was used to analyze the differences between groups for inter-session and inter-trial mean standard deviations, with a random effect ‘muscle X during movement Y’.

The ratio of the inter-session to inter-trial variability, $r_{Session} = \frac{\sigma_{Inter-session}^{2 USCP/TD}}{\sigma_{Inter-trial}^{2 USCP/TD}}$, with N the number of cycles, and the ratio of the

inter-subject to inter-trial variability, $r_{Subject} = \frac{\sigma_{Inter-subject}^{2 USCP/TD}}{\sigma_{Inter-trial}^{2 USCP/TD}}$, were also reported because they provided valuable information on the main sources of variability in the EMG patterns.

The total relative inter-subject variability in the TD group, $r_{Subject_Total} = \sum_{muscle} \sum_{EF,PS} \frac{\sigma_{Inter-subject}^{2 TD}}{\sigma_{Inter-trial}^{2 TD}}$, was calculated for each normalization method. The amplitude normalization method, which provided the smallest relative inter-subject variability in the TD group, was retained in order to compare the EMG patterns.

The total relative inter-subject variability in the TD group, $r_{Subject_Total} = \sum_{muscle} \sum_{EF,PS} \frac{\sigma_{Inter-subject}^{2 TD}}{\sigma_{Inter-trial}^{2 TD}}$, was calculated for each normalization method. The amplitude normalization method, which provided the smallest relative inter-subject variability in the TD group, was retained in order to compare the EMG patterns.

2.3. Comparison of EMG patterns: case study – child 1

This part of the study was based on a case study of Child 1. Child 1 had a significant impairment of active supination, which was clinically suspected to be due to excessive activation of the pronator muscles. EMG pattern analysis was carried out to determine which of the two pronator muscles (pronator teres and the pronator quadrates) was excessively activated during supination and botulinum toxin injection (BTI) was planned. The initial EMG pattern analysis demonstrated excessive activation of the pronator teres muscle, therefore the treatment involved injection of 50 units of onabotulinum toxin-A (Botox®) in two sites of this muscle under electrical stimulation guidance. A second EMG pattern analysis was carried out one month after the BTI.

The aim of this study was to determine whether upper limb surface EMG pattern analysis could detect a) differences in muscle activation between Child 1 and a group of TD children, and b) differences in the EMG pattern before and one month after BTI in Child 1. Evaluation of the functional outcome of the BTI was not the aim of this case study,

therefore is not described in detail. However, it is important to note that the BTI was considered to be effective since one-month later there was no spasticity of the pronator muscles and active supination had increased considerably.

Inter-group differences in EMG patterns were not evaluated as the aim was not to highlight general differences between children with USCP and TD children, but to evaluate the pertinence of individualized EMG pattern analysis for children with USCP, based on this case study.

The variability of the EMG patterns was calculated for each child, muscle and movement, at each time point of the movement cycle as a combination of the inter-trial and inter-session variance of the corre-

$$\text{sponding group: } \sqrt{\frac{\sigma_{USCP/TD}^2 \sigma_{Inter-session}^2 + \frac{\sigma_{USCP/TD}^2 \sigma_{Inter-trial}^2}{5}}{2}}$$

For each muscle and movement, the variability of the EMG patterns for a group (TD or USCP) was calculated at each time point of the movement cycle as a combination of the inter-trial, inter-session, and inter-subject variance of the corresponding group:

$$\sqrt{\frac{\sigma_{USCP/TD}^2 \sigma_{Inter-subject}^2 + \sigma_{USCP/TD}^2 \sigma_{Inter-session}^2 + \frac{\sigma_{USCP/TD}^2 \sigma_{Inter-trial}^2}{5}}{2}} \quad (\text{Chia and Sangeux, 2017}).$$

Standard statistical techniques were used to detect significant differences between EMG patterns (Schwartz et al., 2004).

Case A₁: For the comparison of the EMG patterns during session 1 (S1) (before BTI) of Child 1 and the EMG patterns of the TD group, the test statistic used was:

$$z_{A_1}(t) = \frac{\Phi^{USCP1_{S1}}(t) - \Phi^{TD_{group}}(t)}{\sqrt{\frac{\sigma_{USCP}^2 \sigma_{Inter-session}^2 + \frac{\sigma_{USCP}^2 \sigma_{Inter-trial}^2}{5}}{2} + \frac{\sigma_{TD}^2 \sigma_{Inter-subject}^2 + \sigma_{TD}^2 \sigma_{Inter-session}^2 + \frac{\sigma_{TD}^2 \sigma_{Inter-trial}^2}{5}}{2}}}$$

Case A₂: For the comparison of the EMG patterns during session 2 (S2) (post BTI) of Child 1 and the EMG patterns of the TD group, the test statistic used was:

$$z_{A_2}(t) = \frac{\Phi^{USCP1_{S2}}(t) - \Phi^{TD_{group}}(t)}{\sqrt{\frac{\sigma_{USCP}^2 \sigma_{Inter-session}^2 + \frac{\sigma_{USCP}^2 \sigma_{Inter-trial}^2}{5}}{2} + \frac{\sigma_{TD}^2 \sigma_{Inter-subject}^2 + \sigma_{TD}^2 \sigma_{Inter-session}^2 + \frac{\sigma_{TD}^2 \sigma_{Inter-trial}^2}{5}}{2}}}$$

Case B: For the comparison of the EMG patterns during sessions 1 and 2 (pre-post BTI) of Child 1, the test statistic used was:

$$z_B(t) = \frac{\Phi^{USCP1_{S1}}(t) - \Phi^{USCP1_{S2}}(t)}{\sqrt{\sigma_{USCP}^2 \sigma_{Inter-session}^2 + \frac{\sigma_{USCP}^2 \sigma_{Inter-trial}^2}{5}}}$$

The terms $\Phi^{USCP1_{S1}}(t)$ and $\Phi^{USCP1_{S2}}(t)$ denote the mean EMG pattern for sessions 1 and 2 of Child 1 respectively. The term $\Phi^{TD_{group}}(t)$ denotes the mean EMG pattern for the TD children.

The null hypothesis was that the population means were equivalent, so $z(t) = \text{zero}$. Similarly to (Schwartz et al., 2004), we used a probability of type I error of 5%, meaning that population means were defined as different if the p-value was less than 0.05. p-Values are reported graphically for each time point of the movement cycle. Type II errors are not reported in this study.

3. Results

3.1. EMG pattern variability

Tables 1A–1D shows the inter-trial, inter-session, and inter-subject mean standard deviations for both groups during EF and PS for: 1) EMG pattern amplitude normalized by the peak value of the averaged movement trials (Table 1A); 2) EMG pattern amplitude normalized by the peak value of all movement trials (Table 1B); 3) EMG pattern amplitude normalized by the peak value maintained for at least 200 ms of

Table 1A

Mean standard deviation (%) (square root of the average inter-session, inter-trial and inter-subject variance components), and ratios r_{Session} of the inter-session to inter-trial variability (no unit), r_{Subject} of the inter-subject to inter-trial variability (no unit), for the normalized post processed EMG waveforms of the typically developing (TD) group and the group with Unilateral Spastic Cerebral Palsy (USCP), with normalization by the peak value measured over the averaged movement trials.

		Flexion/extension		Pronation/supination	
		TD	USCP	TD	USCP
$\sigma_{Inter-session}$	Biceps	10.8	11.1	10.0	8.7
	Triceps	12.8	13.1	3.3	12.2
	Brachioradialis	10.9	8.8	3.9	8.4
	Pronator teres	9.1	6.6	10.8	11.6
	Pronator quadratus	8.1	12.0	8.6	10.8
	Brachialis	12.8	10.8	6.4	7.7
$\frac{\sigma_{Inter-trial}}{\sqrt{N}}$	Biceps	11.7	9.3	8.4	6.4
	Triceps	16.7	13.4	3.0	6.1
	Brachioradialis	12.9	10.9	2.7	4.2
	Pronator teres	12.1	10.6	12.9	8.5
	Pronator quadratus	6.8	11.4	13.8	8.9
	Brachialis	9.7	9.5	4.4	5.6
$\sigma_{Inter-subject}$	Biceps	8.5	8.3	6.4	2.4
	Triceps	11.8	15.2	2.3	4.8
	Brachioradialis	8.1	11.4	1.9	4.6
	Pronator teres	8.7	13.9	10.0	12.8
	Pronator quadratus	3.5	13.4	12.6	16.7
	Brachialis	7.9	7.4	6.2	7.3
$r_{\text{Session}} = \frac{\sigma_{Inter-session}}{\sigma_{Inter-trial} \sqrt{N}}$	Biceps	0.9	1.2	1.2	1.4
	Triceps	0.8	1.0	1.1	2.0
	Brachioradialis	0.8	0.8	1.4	2.0
	Pronator teres	0.8	0.6	0.8	1.4
	Pronator quadratus	1.2	1.1	0.6	1.2
	Brachialis	1.3	1.1	1.4	1.4
$r_{\text{Subject}} = \frac{\sigma_{Inter-subject}}{\sigma_{Inter-trial} \sqrt{N}}$	Biceps	0.7	0.9	0.8	0.4
	Triceps	0.7	1.1	0.8	0.8
	Brachioradialis	0.6	1.0	0.7	1.1
	Pronator teres	0.7	1.3	0.8	1.5
	Pronator quadratus	0.5	1.2	0.9	1.9
	Brachialis	0.8	0.8	1.4	1.3

the MIVC against manual resistance (Table 1C); iv) non-normalized EMG patterns (Table 1D).

- i) For the amplitude normalization by the peak value of the averaged movement trials, no between-group differences were found for either the inter-session ($F = 1.54$; $p = 0.24$) or the inter-trial mean standard deviations ($F = 1.01$; $p = 0.34$). Ratios of the inter-session to inter-trial variability, $r_{\text{Session}} = \frac{\sigma_{USCP/TD} \sigma_{Inter-session}}{\sigma_{USCP/TD} \sigma_{Inter-trial} \sqrt{N}}$, were between 0.6 and 1.4 for the TD children, and between 0.6 and 2 for the children with USCP.
- ii) For the amplitude normalization by the peak value of all movement trials, no between-group differences were found for either the inter-session ($F = 0.34$; $p = 0.57$) or the inter-trial mean standard deviations ($F = 0.06$; $p = 0.81$). Ratios of the inter-session to inter-trial variability $r_{\text{Session}} = \frac{\sigma_{USCP/TD} \sigma_{Inter-session}}{\sigma_{USCP/TD} \sigma_{Inter-trial} \sqrt{N}}$ were between 0.9 and 1.8 for the TD children and between 0.8 and 1.7 for the children with USCP.
- iii) For the amplitude normalization by the peak value maintained for at least 200 ms of the MIVC against manual resistance, no statistical between-group differences were found for either the inter-session ($F = 0.32$; $p = 0.59$) or the inter-trial mean standard deviations ($F = 0.47$; $p = 0.51$). Ratios of the inter-session to inter-trial variability $r_{\text{Session}} = \frac{\sigma_{USCP/TD} \sigma_{Inter-session}}{\sigma_{USCP/TD} \sigma_{Inter-trial} \sqrt{N}}$ were between 0.8 and 1.8 for the TD children and between 0.7 and 1.8 for the children with USCP.

Table 1B

Mean standard deviation (%) (square root of the average inter-session, inter-trial and inter-subject variance components), and ratios r_{Session} of the inter-session to inter-trial variability (no unit), r_{Subject} of the inter-subject to inter-trial variability (no unit), for the normalized post processed EMG waveforms of the typically developing (TD) group and the group with Unilateral Spastic Cerebral Palsy (USCP), with normalization by the peak value measured in all movement trials.

		Flexion/extension		Pronation/supination	
		TD	USCP	TD	USCP
$\sigma_{\text{Inter-session}}$	Biceps	4.4	5.7	2.4	2.9
	Triceps	4.2	4.8	1.0	1.9
	Brachioradialis	4.8	3.5	1.3	2.6
	Pronator teres	5.1	3.2	3.2	3.7
	Pronator quadratus	2.4	4.8	4.6	3.7
$\frac{\sigma_{\text{Inter-trial}}}{\sqrt{N}}$	Brachialis	5.8	5.6	3.2	2.5
	Biceps	3.8	4.0	2.6	2.4
	Triceps	4.6	3.8	1.1	1.5
	Brachioradialis	3.9	4.0	0.8	1.5
	Pronator teres	3.9	3.9	3.5	2.9
$\sigma_{\text{Inter-subject}}$	Pronator quadratus	2.1	2.8	4.4	3.4
	Brachialis	3.9	4.2	1.8	2.5
	Biceps	3.9	3.7	2.8	0.9
	Triceps	3.8	5.6	1	1.6
	Brachioradialis	2.4	4.8	0.4	1.7
$r_{\text{Session}} = \frac{\sigma_{\text{Inter-session}}}{\frac{\sigma_{\text{Inter-trial}}}{\sqrt{N}}}$	Pronator teres	3.5	6.1	4.5	3.9
	Pronator quadratus	1.2	2.0	4.6	8.6
	Brachialis	2.8	2.6	1.7	4.1
	Biceps	1.1	1.4	0.9	1.2
	Triceps	0.9	1.3	0.9	1.2
$r_{\text{Subject}} = \frac{\sigma_{\text{Inter-subject}}}{\frac{\sigma_{\text{Inter-trial}}}{\sqrt{N}}}$	Brachioradialis	1.2	0.9	1.6	1.7
	Pronator teres	1.3	0.8	0.9	1.3
	Pronator quadratus	1.1	1.7	1.0	1.1
	Brachialis	1.5	1.3	1.8	1.0
	Biceps	1.0	0.9	1.1	0.4
	Triceps	0.8	1.5	0.9	1.1
	Brachioradialis	0.6	1.2	0.5	1.1
	Pronator teres	0.9	1.6	1.3	1.4
	Pronator quadratus	0.6	0.7	1.0	2.5
	Brachialis	0.7	0.6	1.0	1.7

iv) For the non-normalized EMG patterns, no between-group differences were found for either the inter-session ($F = 1.75$; $p = 0.21$) or the inter-trial mean standard deviations ($F = 0.47$; $p = 0.51$). Ratios of the inter-session to inter-trial variability, $r_{\text{Session}} = \frac{\sigma_{\text{USCP/TD}}^{\text{Inter-session}}}{\frac{\sigma_{\text{USCP/TD}}^{\text{Inter-trial}}}{\sqrt{N}}}$, were between 0.7 and 1.8 for the TD children and between 0.6 and 3.3 for the children with USCP.

The normalization method with the lowest inter-subject variance over inter-trial variance ratio in the TD group

$(r_{\text{Subject_Total}} = \sum_{\text{muscle}} \sum_{\text{EF,PS}} \frac{\sigma_{\text{Inter-subject}}^{\text{TD}}}{\frac{\sigma_{\text{Inter-trial}}^{\text{TD}}}{\sqrt{N}}})$ was the normalization by the peak value in the averaged movement trials ($r_{\text{Subject_Total}} = 9.4$); followed by normalization by the peak value in all movement trials ($r_{\text{Subject_Total}} = 10.4$); then normalization by the peak value during MIVC ($r_{\text{Subject_Total}} = 11.8$); and finally no normalization ($r_{\text{Subject_Total}} = 13.2$). Therefore, amplitude normalization by the peak value in the averaged movement trials was retained for the comparison of EMG patterns.

3.2. Comparison of EMG patterns

The following EMG patterns were compared:

Case A_1: Point-by-point evaluation of deviations between the activation of the pronator teres (Fig. 2) and the pronator quadratus (Fig. 3) muscles for both EF and PS movements during S1 of Child 1 and the TD group was carried out. During EF, there was no deviation of the

Table 1C

Mean standard deviation (%) (square root of the average inter-session, inter-trial and inter-subject variance components), and ratios r_{Session} of the inter-session to inter-trial variability (no unit), r_{Subject} of the inter-subject to inter-trial variability (no unit), for the normalized post processed EMG waveforms of the typically developing (TD) group and the group with Unilateral Spastic Cerebral Palsy (USCP), with normalization by the peak value maintained for at least 200 ms of the Maximal Isometric Voluntary Contractions against manual resistance.

		Flexion/extension		Pronation/supination	
		TD	USCP	TD	USCP
$\sigma_{\text{Inter-session}}$	Biceps	3.8	3.8	1.0	1.7
	Triceps	2.7	0.8	0.4	0.6
	Brachioradialis	3.9	3.6	0.5	0.5
	Pronator teres	2.7	2.6	1.7	1.9
	Pronator quadratus	1.1	2.6	3.0	1.1
$\frac{\sigma_{\text{Inter-trial}}}{\sqrt{N}}$	Brachialis	5.1	3.1	1.2	2.5
	Biceps	2.1	2.1	1.3	1.4
	Triceps	2.0	1.0	0.4	0.4
	Brachioradialis	2.5	2.1	0.4	0.6
	Pronator teres	2.1	2.0	1.7	1.6
$\sigma_{\text{Inter-subject}}$	Pronator quadratus	1.1	2.1	2.7	1.6
	Brachialis	2.8	2.0	0.9	1.6
	Biceps	2.1	2.6	1.8	0.9
	Triceps	1.9	2.0	0.4	0.6
	Brachioradialis	2.0	2.2	0.3	1
$r_{\text{Session}} = \frac{\sigma_{\text{Inter-session}}}{\frac{\sigma_{\text{Inter-trial}}}{\sqrt{N}}}$	Pronator teres	1.7	3.7	1.7	2.6
	Pronator quadratus	0.8	3.2	3.6	2.6
	Brachialis	2.5	1.9	1.1	3.0
	Biceps	1.8	1.8	0.8	1.2
	Triceps	1.3	0.8	1.1	1.5
$r_{\text{Subject}} = \frac{\sigma_{\text{Inter-subject}}}{\frac{\sigma_{\text{Inter-trial}}}{\sqrt{N}}}$	Brachioradialis	1.5	1.7	1.2	0.8
	Pronator teres	1.3	1.3	1.0	1.2
	Pronator quadratus	1.0	1.2	1.1	0.7
	Brachialis	1.8	1.5	1.3	1.6
	Biceps	1.0	1.2	1.4	0.6
	Triceps	0.9	1.9	1.1	1.5
	Brachioradialis	0.8	1.1	0.7	1.6
	Pronator teres	0.8	1.8	1.0	1.7
	Pronator quadratus	0.7	1.5	1.3	1.7
	Brachialis	0.9	0.9	1.2	1.9

pronator teres activation, and pronator teres activation was significantly higher during supination (70–100% of the PS cycle) (Fig. 2). During PS, activation of the pronator quadratus was significantly lower mid-cycle (55–70% of the PS cycle) and activation of the pronator quadratus was significantly higher during extension (0–50% of the EF cycle) (Fig. 3).

Case B: The point-by-point assessment of deviations between S1 and S2 of Child 1 with USCP was performed for the pronator teres (Fig. 4) and the pronator quadratus muscles (Fig. 5) for both EF and PS movements. There was no difference in the activation of the pronator teres during EF, but during supination, pronator teres activation was significantly reduced (70–100% of the PS cycle) (Fig. 4). No major difference was detected for pronator quadratus activation during EF or PS (Fig. 5).

Case A_2: Point-by-point assessment of deviations between S2 of child 1 with USCP and the TD group was only carried out for the pronator teres for both EF and PS movements (Fig. 6). The results showed that there was no deviation of pronator teres activation during EF and pronator teres activation was significantly lower during pronation (30–60% of the PS cycle) (Fig. 6).

4. Discussion

We quantified the inter-trial, inter-session, and inter-subject variability of upper limb surface EMG patterns during elbow extension/flexion and pronation/supination movements in convenience samples

Table 1D

Mean standard deviation (%) (square root of the average inter-session, inter-trial and inter-subject variance components), and ratios r_{Session} of the inter-session to inter-trial variability (no unit), r_{Subject} of the inter-subject to inter-trial variability (no unit), for non-normalized post processed EMG waveforms of the typically developing (TD) group and the group with Unilateral Spastic Cerebral Palsy (USCP).

		Flexion/extension		Pronation/supination	
		TD	USCP	TD	USCP
$\sigma_{\text{Inter-session}}$	Biceps	3.7	4.8	1.4	1
	Triceps	1.9	0.5	0.3	0.4
	Brachioradialis	4.2	3.1	0.6	1.5
	Pronator teres	1.7	7.3	0.9	3.2
	Pronator quadratus	0.4	1.3	0.8	4.2
	Brachialis	4.1	1.6	1.0	2.2
$\frac{\sigma_{\text{Inter-trial}}}{\sqrt{N}}$	Biceps	2.9	2.2	1.9	1.3
	Triceps	1.5	0.8	0.3	0.3
	Brachioradialis	3.0	2.0	0.5	0.5
	Pronator teres	1.4	2.2	1.3	1.4
	Pronator quadratus	0.4	1.4	0.9	1.3
	Brachialis	2.3	1.0	0.8	1.1
$\sigma_{\text{Inter-subject}}$	Biceps	3.0	4.3	2.9	2.2
	Triceps	1.3	1.9	0.4	0.6
	Brachioradialis	3.2	3.1	0.4	0.4
	Pronator teres	1.4	2.2	1.5	1.6
	Pronator quadratus	0.2	1.1	1.5	1.3
	Brachialis	2.7	1.2	0.8	2.0
$r_{\text{Session}} = \frac{\sigma_{\text{Inter-session}}}{\frac{\sigma_{\text{Inter-trial}}}{\sqrt{N}}}$	Biceps	1.3	2.1	0.7	0.8
	Triceps	1.3	0.6	1.1	1.3
	Brachioradialis	1.4	1.5	1.2	2.8
	Pronator teres	1.2	3.3	0.7	2.2
	Pronator quadratus	1.0	0.9	0.9	3.1
	Brachialis	1.8	1.6	1.2	2.0
$r_{\text{Subject}} = \frac{\sigma_{\text{Inter-subject}}}{\frac{\sigma_{\text{Inter-trial}}}{\sqrt{N}}}$	Biceps	1.0	1.9	1.5	1.7
	Triceps	0.9	2.2	1.5	1.9
	Brachioradialis	1.1	1.5	0.8	0.7
	Pronator teres	1.0	1.0	1.1	1.1
	Pronator quadratus	0.5	0.8	1.6	1.0
	Brachialis	1.2	1.2	1.0	1.9

of TD children and children with USCP.

Secondly, using this data, we compared the EMG patterns of a child with USCP before and after BTI with those of the TD group. The method successfully detected deviations of upper limb muscle activation in the child with USCP in comparison with the TD reference patterns, as well as changes following the BTI.

4.1. Variability of the EMG patterns

Interestingly, in both the TD and USCP groups, irrespective of the EMG amplitude normalization method, the ratios of inter-session to inter-trial variability were quite low (maximum of 2), meaning that the

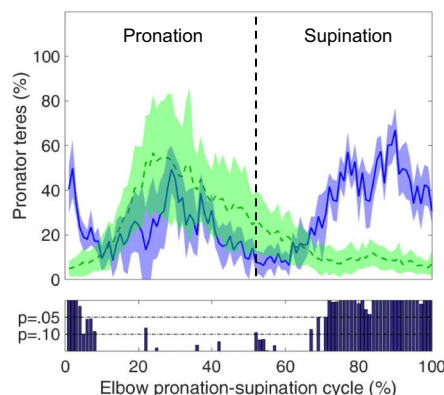
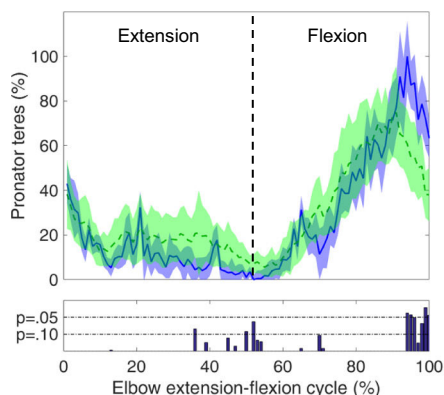


Fig. 2. Mean pronator teres EMG pattern (%) of the TD group (green dotted line) with the total standard deviation calculated using the inter-trial, inter-session, and inter-subject variability (green shaded area), and of session 1 of Child 1 (pre BTI) (solid blue line) with the total standard deviation calculated using the inter-trial and inter-session variability (blue shaded area) during elbow extension-flexion (left), and pronation-supination (right). The statistical significance (p-value) of the deviation is reported for each percent of the movement cycle along the bottom of the graph. (For interpretation of the references to colour in this figure legend, the reader is referred to the web version of this article.)

inter-session variability was essentially equivalent to the inter-trial variability. These results are in accordance with those of Granata et al. (2005), who found similar inter-trial and inter-session variability in the lower limb EMG patterns of TD children during gait. Therefore, for a given subject, the upper limb EMG pattern variability calculated using the inter-trial variability was equivalent to the EMG pattern variability calculated using both the inter-trial and inter-session variabilities since the variability of the EMG patterns for an individual was calculated as:

$\sqrt{\frac{\sigma_{\text{USCP/TD}}^2 \sigma_{\text{Inter-session}}^2 + \frac{\sigma_{\text{USCP/TD}}^2 \sigma_{\text{Inter-trial}}^2}{5}}{2}}$. This demonstrated that the placement of the electrodes was consistent and that the cyclical EF and PS movements synchronized with the metronome were reliable over two separate sessions. When the EMG amplitude was not normalized, the inter-session variability to inter-trial variability ratios were higher. Since this also resulted in higher inter-subject to inter-trial variability ratios in the TD group, we recommend normalizing the amplitudes of the EMG signals.

Irrespective of the method used to normalize the EMG amplitude, variability was not higher in the USCP group than in TD group, even for non-normalized EMG patterns. These results are in agreement with those of Shuman et al. (2016), who found similar inter-trial and inter-session variability of lower limb muscle synergies in TD children and in children with CP during gait.

Normalization of EMG amplitude by the peak values during the averaged movement trials was the most appropriate method for our purposes since it yielded the lowest inter-subject/inter-trial variability ratio in the TD group, and thus had the highest capacity to detect pathological activations in children with USCP compared with the TD reference group.

4.2. Comparison of the EMG patterns

Determination of the most appropriate normalization method to reduce variability allowed the subsequent analysis of the EMG patterns of an individual child with USCP, and comparison with reference to the patterns of TD children as well as before and after BTI.

The analysis showed some similarities and some differences relative to the TD reference group, depending on the muscles and on the movements. Specifically, pronator teres activation was normal during EF, whereas during PS, its activation was higher than that of the TD group during most of the supination movement. This suggested the limitation of active supination was due to co-activation of the pronator teres. In contrast, activation of the pronator quadratus was higher than that of the TD reference group during the extension movement, but normal during PS. The higher activation of the pronator quadratus during the elbow extension movement was likely related to the elbow extension/pronation synergy exhibited during spontaneous movements. Therefore, the EMG pattern analysis identified that the main cause of the lack of active supination was co-activation of the pronator teres muscle, thus appropriate treatment could be determined. This

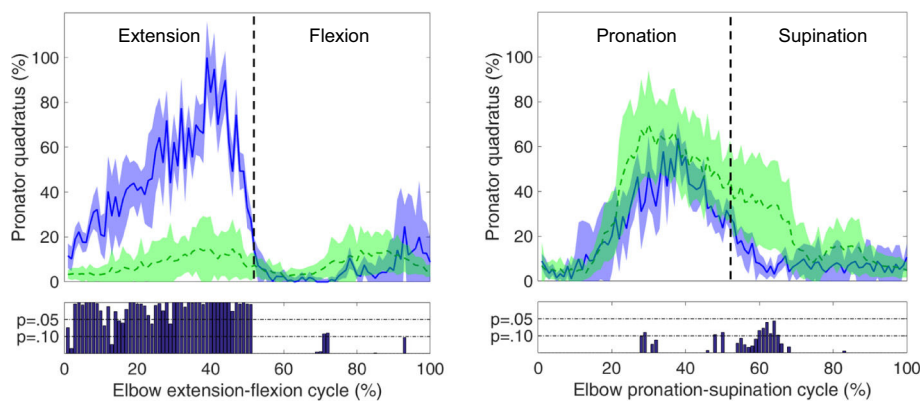


Fig. 3. Mean pronator quadratus EMG pattern (%) of the TD group (green dotted line) with the total standard deviation calculated using the inter-trial, inter-session, and inter-subject variability (green shaded area), and of session 1 of Child 1 (pre BTI) (blue full line) with the total standard deviation calculated using the inter-trial and inter-session variability (blue shaded area) during elbow extension-flexion (left) and pronation-supination (right). The statistical significance (p-value) of the deviation is reported for each percent of the movement cycle along the bottom of the graph. (For interpretation of the references to colour in this figure legend, the reader is referred to the web version of this article.)

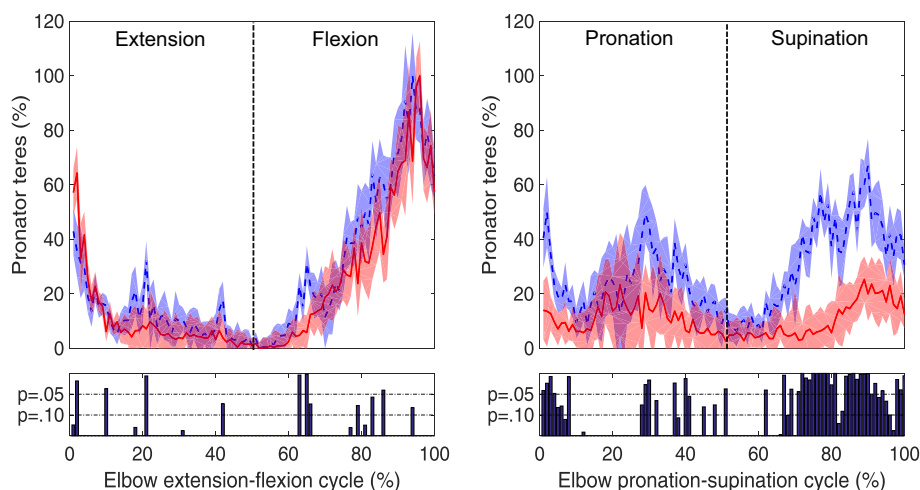


Fig. 4. Mean pronator teres EMG pattern (%) during session 1 of Child 1 (pre BTI) (blue dotted line) with its respective total standard deviation calculated with the inter-trial and inter-session variability (blue shaded area) and during session 2 of Child 1 one month after BTI of the pronator teres muscle (solid red line) with the total standard deviation calculated using the inter-trial and inter-session variability (red shaded area) during elbow extension-flexion (left) and pronation-supination (right). The statistical significance (p-value) of the deviation is reported for each percent of the movement cycle along the bottom of the graph. (For interpretation of the references to colour in this figure legend, the reader is referred to the web version of this article.)

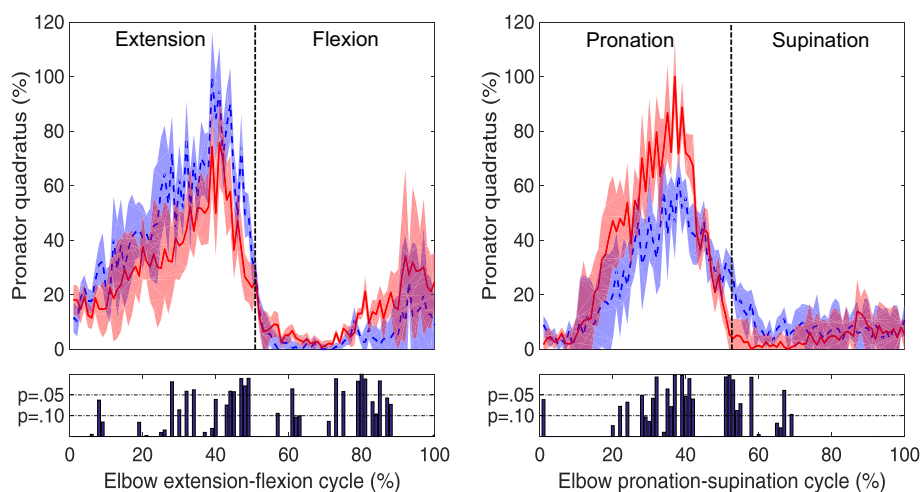


Fig. 5. Mean pronator quadratus EMG pattern (%) during session 1 of Child 1 (blue dotted line) with the total standard deviation calculated using the inter-trial and inter-session variability (blue shaded area) and during session 2 of Child 1 one month after BTI in the pronator teres muscle (solid red line) with its respective total standard deviation calculated with the inter-trial and inter-session variability (red shaded area), during elbow extension-flexion (left), and pronation-supination (right). The statistical significance (p-value) of the deviation is reported for each percent of the movement cycle along the bottom of the graph. (For interpretation of the references to colour in this figure legend, the reader is referred to the web version of this article.)

highlights the benefits of using EMG pattern analysis to plan treatment. Comparison of EMG patterns before and after BTI in Child 1 with USCP showed a considerable reduction in pronator teres activation during supination, indicating that the BTI had been effective.

Therefore, upper limb surface EMG patterns allowed us to identify the differences in muscle activation during the EF and PS movements, despite the various sources of variability.

This study had some limitations. The sample of 12 participants was too small to study the effect of age on variability. Kinematic variability (Sangeux et al., 2016) and lower limb EMG variability (Tirosh et al., 2013) during gait have been shown to decrease with age in TD children,

so it is likely that age could also impact the variability of upper limb EMG patterns. Future studies should therefore evaluate variability in subgroups based on age in order to produce reference data for specific age groups. Another limitation is that the study design did not allow the estimation of either inter-assessor variability or the product of inter-assessor and inter-session variability interaction. Inter-assessor variability should be evaluated before comparing the EMG signals collected by different assessors. Also, the use of surface EMG comports the risk of electromyographic cross-talk between muscles, especially in the small forearms of children. However, the cross-talk of nearby muscles, such as the wrist, hand, and finger muscles, was limited by the choice of one-

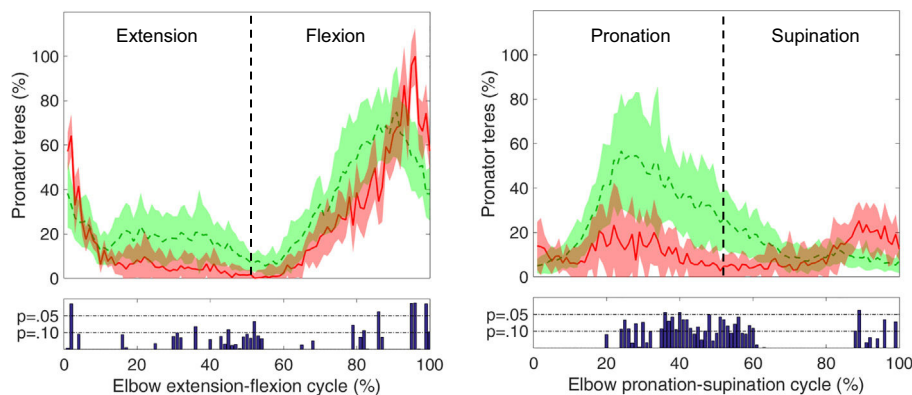


Fig. 6. Mean pronator teres EMG signals (%) of the TD group (green dotted line) with the total standard deviation calculated using the inter-trial, inter-session, and inter-subject variability (green shaded area) and of session 2 of Child 1 one month after BTI (red full line) with the total standard deviation calculated using the inter-trial and inter-session variability (red shaded area) during elbow extension-flexion (left) and pronation-supination (right). The statistical significance (p-value) of the deviation is reported for each percent of the movement cycle along the bottom of the graph. (For interpretation of the references to colour in this figure legend, the reader is referred to the web version of this article.)

degree-of-freedom elbow movements. Moreover, it has been shown that electrode placement strongly impacts surface EMG patterns (Campanini et al., 2007; Hermens et al., 2000; Hug, 2011), therefore the electrodes were placed over the center of the muscle belly as recommended by (Hug, 2011). Care was also taken to ensure that the EMG electrodes did not move during the entire movement since the level of activation is not uniform over a whole muscle (Hug, 2011). Finally, the method presented here represents the inter-trial, inter-session, and inter-subject variability of EMG patterns, along with a statistical method to detect deviations in patterns from a reference group and changes following treatment. We believe that this method should be used in association with an expert reading of the EMG patterns to determine if any deviations are clinically relevant. Future research should focus on determining a rigorous quantitative criterion, for example a minimum duration of the deviation, to detect clinically relevant deviations.

5. Conclusions

Inter-session and inter-trial variability of upper limb EMG patterns during elbow movements were similar between TD children and children with USCP. Normalization of the EMG signal by the peak value during averaged movement trials produced the lowest inter-subject variability in the TD group. This allowed deviations and changes in muscle activation to be detected by the method, as demonstrated by a case study in a child with USCP whose patterns were compared with the TD group, as well as before and after treatment to reduce excessive muscle activation. This study therefore demonstrated that, despite innate variability, upper limb surface EMG pattern analysis could be used to detect clinically-relevant differences in muscle activation.

Acknowledgements

We are grateful to the children and their parents for their collaboration. We thank Johanna Robertson for her thorough and precise English proofreading. This work was supported by a grant from the Fondation Paralysie Cérébrale and ENVOLUDIA.

Declarations of interest

None.

References

- Barre, A., Armand, S., 2014. Biomechanical ToolKit: open-source framework to visualize and process biomechanical data. *Comput. Methods Prog. Biomed.* 114, 80–87. <https://doi.org/10.1016/j.cmpb.2014.01.012>.
- Basmajian, J.V., 1982. *Primary Anatomy*, eighth ed. Williams and Wilkins, Baltimore.
- Brown, H., Prescott, R., 2014. *Applied Mixed Models in Medicine*. John Wiley & Sons, Ltd, Chichester, UK. <https://doi.org/10.1002/9781118778210>.
- Burden, A., Bartlett, R., 1999. Normalisation of EMG amplitude: an evaluation and comparison of old and new methods. *Med. Eng. Phys.* 21, 247–257.
- Buurke, J., Hermens, H., Roetenberg, D., Harlaar, J., Rosenbaum, D., Kleissen, R., 2004.

- Influence of hamstring lengthening on muscle activation timing. *Gait Posture* 20, 48–53. [https://doi.org/10.1016/S0966-6362\(03\)00092-4](https://doi.org/10.1016/S0966-6362(03)00092-4).
- Campanini, I., Merlo, A., Degola, P., Merletti, R., Vezzosi, G., Farina, D., 2007. Effect of electrode location on EMG signal envelope in leg muscles during gait. *J. Electromyogr. Kinesiol.* 17, 515–526. <https://doi.org/10.1016/j.jelekin.2006.06.001>.
- Chia, K., Sangeux, M., 2017. Quantifying sources of variability in gait analysis. *Gait Posture* 56, 68–75. <https://doi.org/10.1016/j.gaitpost.2017.04.040>.
- de Bruin, M., Veeger, H.E.J., Kreulen, M., Smeulders, M.J.C., Bus, S.A., 2013. Biceps brachii can add to performance of tasks requiring supination in cerebral palsy patients. *J. Electromyogr. Kinesiol.* 23, 516–522. <https://doi.org/10.1016/j.jelekin.2012.10.013>.
- Detrembleur, C., Willems, P., Plaghki, L., 1997. Does walking speed influence the time pattern of muscle activation in normal children? *Dev. Med. Child Neurol.* 39, 803–807.
- Gracies, J.-M., 2005. Pathophysiology of spastic paresis. II: emergence of muscle over-activity. *Muscle Nerve* 31, 552–571. <https://doi.org/10.1002/mus.20285>.
- Granata, K.P., Padua, D.A., Abel, M.F., 2005. Repeatability of surface EMG during gait in children. *Gait Posture* 22, 346–350. <https://doi.org/10.1016/j.gaitpost.2004.11.014>.
- Grunt, S., Henneman, W.J.P., Bakker, M.J., Harlaar, J., van der Ouwkerk, W.J.R., van Schie, P., Reeuwijk, A., Becher, J.G., Vermeulen, R.J., 2010. Effect of selective dorsal rhizotomy on gait in children with bilateral spastic paresis: kinematic and EMG-pattern changes. *Neuropediatrics* 41, 209–216. <https://doi.org/10.1055/s-0030-1267983>.
- Hermens, H.J., Freriks, B., Disselhorst-Klug, C., Rau, G., 2000. Development of recommendations for SEMG sensors and sensor placement procedures. *J. Electromyogr. Kinesiol.* 10, 361–374.
- Hug, F., 2011. Can muscle coordination be precisely studied by surface electromyography? *J. Electromyogr. Kinesiol.* 21, 1–12. <https://doi.org/10.1016/j.jelekin.2010.08.009>.
- Knappe, A.E., Bishop, N.A., Clark, A.J., Alderink, G.J., Barr, K.M., Miller, A.L., 2013. Prolonged swing phase rectus femoris activity is not associated with stiff-knee gait in children with cerebral palsy: a retrospective study of 407 limbs. *Gait Posture* 37, 345–348. <https://doi.org/10.1016/j.gaitpost.2012.07.034>.
- Kreulen, M., Smeulders, M.J.C., Veeger, H.E.J., Hage, J.J., 2007. Movement patterns of the upper extremity and trunk associated with impaired forearm rotation in patients with hemiplegic cerebral palsy compared to healthy controls. *Gait Posture* 25, 485–492. <https://doi.org/10.1016/j.gaitpost.2006.05.015>.
- Levitt, S., 2010. *Treatment of Cerebral Palsy and Motor Delay*, fifth ed. Wiley-Blackwell, Chichester, UK. <https://doi.org/10.1017/CBO9781107415324.004>.
- Malanga, G.A., Campagnolo, D.I., 1994. Clarification of the pronator reflex. *Am. J. Phys. Med. Rehabil.* 73, 338–340.
- Meyns, P., Van Gestel, L., Bar-On, L., Goudriaan, M., Wambacq, H., Aertbeliën, E., Bruyninckx, H., Molenaers, G., De Cock, P., Ortibus, E., Desloovere, K., 2016. Children with spastic cerebral palsy experience difficulties adjusting their gait pattern to weight added to the waist, while typically developing children do not. *Front. Hum. Neurosci.* 10 (657). <https://doi.org/10.3389/fnhum.2016.00657>.
- Novak, I., McIntyre, S., Morgan, C., Campbell, L., Dark, L., Morton, N., Stumbles, E., Wilson, S.-A., Goldsmith, S., 2013. A systematic review of interventions for children with cerebral palsy: state of the evidence. *Dev. Med. Child Neurol.* 55, 885–910. <https://doi.org/10.1111/dmcn.12246>.
- Patterson, H.D., Thompson, R., 1971. Recovery of inter-block information when block sizes are unequal. *Biometrika* 58, 545. <https://doi.org/10.2307/2334389>.
- Prosser, L.A., Lee, S.C.K., Vansant, A.F., Barbe, M.F., Lauer, R.T., 2010. Trunk and hip muscle activation patterns are different during walking in young children with and without cerebral palsy. *Phys. Ther.* 90, 986–997. <https://doi.org/10.2522/ptj.20090161>.
- R Core Team, 2015. R: A language and environment for statistical computing. In: R Foundation for Statistical Computing, Vienna, Austria, URL. <https://www.R-project.org/>.
- Remaley, D., Fincham, B., McCullough, B., Davis, K., Nofsinger, C., Armstrong, C., Stausmire, J.M., 2015. Surface electromyography of the forearm musculature during the windmill softball pitch. *Orthop. J. Sport. Med.* 3, 1–8. <https://doi.org/10.1177/2325967114566796>.
- Rose, J., Haskell, W.L., Gamble, J.G., Hamilton, R.L., Brown, D.A., Rinsky, L., 1994.

- Muscle pathology and clinical measures of disability in children with cerebral palsy. *J. Orthop. Res.* 12, 758–768. <https://doi.org/10.1002/jor.1100120603>.
- Rose, J., Martin, J.G., Torburn, L., Rinsky, L.A., Gamble, J.G., 1999. Electromyographic differentiation of diplegic cerebral palsy from idiopathic toe walking: involuntary coactivation of the quadriceps and gastrocnemius. *J. Pediatr. Orthop.* 19, 677–682.
- Sangeux, M., Passmore, E., Graham, H.K., Tirosh, O., 2016. The gait standard deviation, a single measure of kinematic variability. *Gait Posture* 46, 194–200. <https://doi.org/10.1016/j.gaitpost.2016.03.015>.
- Sarcher, A., Raison, M., Ballaz, L., Lemay, M., Leboeuf, F., Trudel, K., Mathieu, P.A., 2015. Impact of muscle activation on ranges of motion during active elbow movement in children with spastic hemiplegic cerebral palsy. *Clin. Biomech. (Bristol, Avon)* 30, 86–94. <https://doi.org/10.1016/j.clinbiomech.2014.10.009>.
- Sarcher, A., Raison, M., Leboeuf, F., Perrouin-Verbe, B., Brochard, S., Gross, R., 2017. Pathological and physiological muscle co-activation during active elbow extension in children with unilateral cerebral palsy. *Clin. Neurophysiol.* 128, 4–13. <https://doi.org/10.1016/j.clinph.2016.10.086>.
- Schwartz, M.H., Trost, J.P., Werve, R.A., 2004. Measurement and management of errors in quantitative gait data. *Gait Posture* 20, 196–203. <https://doi.org/10.1016/j.gaitpost.2003.09.011>.
- Shuman, B., Goudriaan, M., Bar-On, L., Schwartz, M.H., Desloovere, K., Steele, K.M., 2016. Repeatability of muscle synergies within and between days for typically developing children and children with cerebral palsy. *Gait Posture* 45, 127–132. <https://doi.org/10.1016/J.GAITPOST.2016.01.011>.
- Staudenmann, D., Taube, W., 2015. Brachialis muscle activity can be assessed with surface electromyography. *J. Electromyogr. Kinesiol.* 25, 199–204. <https://doi.org/10.1016/j.jelekin.2014.11.003>.
- Steenbergen, B., Gordon, A.M., 2006. Activity limitation in hemiplegic cerebral palsy: evidence for disorders in motor planning. *Dev. Med. Child Neurol.* 48, 780. <https://doi.org/10.1017/S0012162206001666>.
- Steenbergen, B., van Thiel, E., Hulstijn, W., Meulenbroek, R.G.J., 2000. The coordination of reaching and grasping in spastic hemiparesis. *Hum. Mov. Sci.* 19, 75–105. [https://doi.org/10.1016/S0167-9457\(00\)00006-3](https://doi.org/10.1016/S0167-9457(00)00006-3).
- Tirosh, O., Sangeux, M., Wong, M., Thomason, P., Graham, H.K., 2013. Walking speed effects on the lower limb electromyographic variability of healthy children aged 7–16 years. *J. Electromyogr. Kinesiol.* 23, 1451–1459. <https://doi.org/10.1016/J.JELEKIN.2013.06.002>.
- Unnithan, V.B., Dowling, J.J., Frost, G., Volpe Ayub, B., Bar-Or, O., 1996. Cocontraction and phasic activity during GAIT in children with cerebral palsy. *Electromyogr. Clin. Neurophysiol.* 36, 487–494.

5.1.2. DISCUSSION

Cette étude montre que pour le protocole présenté ici, la méthode de normalisation EMG par le pic moyen du muscle lors d'essais dynamiques est la plus appropriée :

- Elle offre la meilleure reproductibilité inter session pour les enfants avec une PCUS.
- Elle offre une plus petite variabilité inter sujet pour les enfants à DT.

De plus, les enfants avec une PCUS n'ont pas une variabilité d'activation musculaire inter essai et inter session plus importante que les enfants à DT.

La méthode de calcul de variabilité est intéressante puisqu'elle est applicable pour chaque mouvement, chaque fréquence de mouvement, chaque muscle/angle de cinématique, chaque méthode de traitement du signal.

Dans cette étude, la variabilité inter examinateur n'a pas été évaluée puisqu'un seul examinateur a réalisé l'ensemble des collectes de données (Aurélié Sarcher). Cette variabilité est nécessaire à évaluer si plusieurs examinateurs sont concernés.

La limite de cette méthode est qu'elle ne prend pas en compte la variabilité inter essai/inter session de l'enfant étudié mais d'un groupe d'enfants au profil similaire. Ici, la variabilité a été étudiée pour 12 enfants à DT et 6 enfants avec une PCUS. Ces échantillons sont trop faibles pour pouvoir quantifier l'effet de l'âge sur la variabilité des signaux EMG. Or, il a été montré que la variabilité de la cinématique [105] et de l'EMG des membres inférieurs [63] pendant la marche diminue avec l'âge. Il est donc probable que l'âge ait également un impact sur la variabilité des signaux EMG du membre supérieur. Des études futures devraient donc évaluer la variabilité des signaux EMG pour des sous-groupes d'âge afin d'avoir des données de référence plus précises.

La méthode développée dans cette étude comprend une méthode statistique de détection des différences qui doit encore être utilisée en association avec une interprétation « experte » des signaux EMG pour déterminer si les différences observées sont « cliniquement » pertinentes. Afin de pouvoir utiliser cette méthode dans un contexte clinique, les futurs travaux doivent déterminer un critère de détection rigoureux, par exemple une durée minimale de déviation pour laquelle la déviation serait jugée cliniquement pertinente.

6. OBJECTIF 2.2 : DETECTABILITE DE LA MESURE DE L'ACTIVATION MUSCULAIRE DU MEMBRE SUPERIEUR CHEZ L'ENFANT PC ET L'ENFANT A DEVELOPPEMENT TYPIQUE

Le chapitre précédent a montré que la méthode de détection consistant à directement utiliser les enveloppes linéaires des signaux EMG permet de détecter des anomalies d'activation musculaire au membre supérieur de l'enfant avec une PCUS de manière fiable.

Le contexte clinique choisi pour utiliser cette méthode et mettre en application la détection d'anomalies d'activation musculaire est le suivant :

Les enfants PC présentent souvent un déficit de supination lié à une co-contraction spastique d'un ou des deux pronateurs. Jusqu'à maintenant, il n'existe pas d'outil quantitatif et spécifique à chaque enfant pour déterminer quel(s) pronateur(s) il faut traiter.

L'article 4 propose d'appliquer la méthodologie développée dans le chapitre précédent pour détecter les anomalies d'activation musculaire du/des pronateur(s) en cause pour chaque enfant dans un groupe de 25 enfants avec une PCUS.

Une introduction générale de cet article est présentée expliquant brièvement le cheminement scientifique, les objectifs, la méthode et le résumé des résultats. L'article est ensuite présenté sous sa forme publiée. A la suite de cet article, une discussion est réalisée sur ses limites.

6.1. ARTICLE 4. DETECTION OF OVERACTIVITY IN THE PRONATOR MUSCLES DURING ACTIVE SUPINATION IN CHILDREN WITH UNILATERAL SPASTIC CEREBRAL PALSY

6.1.1. RESUME DE L'ARTICLE

L'objectif de cet article est de quantifier la combinaison de pronateur(s) hyperactif(s) pendant la supination pour 25 enfants avec une PCUS présentant un déficit de supination active.

Les 25 enfants avec une PCUS de cette étude incluent les enfants des articles 1, 2 et 3. Les 12 enfants à DT de cette étude sont ceux de l'article 3. La méthode utilisée est la même que celle développée dans l'article 3. Seuls les muscles rond et carré pronateurs sont étudiés, et l'analyse se concentre sur leur activation pendant le mouvement de supination. Les activations musculaires de chaque enfant avec une PCUS sont comparées à celles du groupe de référence d'enfants à DT. Un critère de détection rigoureux est utilisé pour caractériser l'hyperactivité musculaire.

Les principaux résultats sont que parmi les 25 enfants avec une PCUS, 9/25 ont un seul pronateur hyperactif, soit le rond pronateur (7/25), soit le carré pronateur (2/25). 10 enfants sur 25 ont les deux pronateurs hyperactifs. 6 enfants sur 25 n'ont aucun pronateur hyperactif. L'hyperactivité des pronateurs des enfants avec une PCUS est liée à la sévérité de leur déficit de supination.

Cet article montre que la combinaison de pronateur(s) hyperactif(s) est spécifique à chaque enfant avec une PCUS, et peut seulement être caractérisée en utilisant de l'EMG pendant des mouvements de supination active. Cette quantification est nécessaire pour optimiser le traitement de chaque enfant PC présentant un déficit de supination.

Cet article a été soumis le 7 septembre 2018 dans *Annals of Physical and Rehabilitation Medicine*.

Detection of overactivity in the pronator muscles during active supination in children with unilateral spastic cerebral palsy

SARCHER, Aurélie^{1,2}, BROCHARD, Sylvain^{2,3}, PERROUIN-VERBE, Brigitte¹, RAISON, Maxime⁴, LETELLIER, Guy⁵, LEBOEUF, Fabien^{1,6}, GROSS, Raphaël^{1,7}

¹ Motion Analysis Laboratory, Physical Medicine and Rehabilitation, University Hospital of Nantes, Nantes, France

² Laboratory of Medical Information Processing (LaTIM), INSERM UMR 1101, Brest, France

³ Physical Medicine and Rehabilitation, University Hospital of Brest, Brest, France

⁴ Rehabilitation Engineering Chair Applied to Pediatrics (RECAP), Sainte-Justine University Hospital and Ecole Polytechnique de Montréal, Montréal, QC, Canada

⁵ Pediatric rehabilitation center ESEAN, Nantes, France

⁶ College of Health and Social Care, University of Salford, Salford, United Kingdom

⁷ Laboratory of Movement – Interactions - Performance (MIP), EA 4334, University of Nantes, Nantes, France

Text: 3348/3500 words

Abstract: 300/300 words

References: 35/40

Figures/tables: 4 figures 1 table = 5 figures/tables.

Abstract

Introduction

Active elbow supination is frequently limited in children with unilateral spastic cerebral palsy. This limitation can be due to a combination of paresis of the supinators and excessive activation of the pronators, resulting in spastic coactivation. The presence and degree of severity of these symptoms depend on each child and each muscle. The most common treatment for spastic coactivation is injection of neuromuscular blocking agents. However, as this treatment may also increase paresis, it is essential to determine for each patient which (if any) pronator is overactive, to target the injections and provide the optimal treatment to improve motor function. The aim of this study was to identify the pronator muscles with an excessive activation during active supination in children with unilateral spastic cerebral palsy.

Methods

Twenty-five children with unilateral spastic cerebral palsy (mean age 10.6 years SD 3.0) and 12 typically developing children (mean age 11.0 years, SD 3.0) performed pronation-supination movements at 0.50Hz. The movements were recorded by a 3D motion capture system with surface electromyography of the pronator teres and pronator quadratus muscles. A pronator muscle was defined as overactive if its activation during supination was statistically higher than the mean muscle activation of the typically developing group.

Results

Of the 25 children with unilateral spastic cerebral palsy, 9 had only one overactive pronator (pronator teres n=7 and pronator quadratus n= 2). Ten children had overactivity of both pronators and 6 had no pronator overactivity.

Discussion

Pronator muscle(s) with an excessive activation during active supination varied between children. The presence of spastic coactivation was related to the severity of the supination deficit but not to the clinical grading of spasticity. Using electromyography to identify which pronator is overactive could increase the accuracy of treatment of muscle overactivity in order to improve motor function without worsening paresis.

Keywords: cerebral palsy; children; co-activation; electromyography; forearm supination; pronators

1. Introduction

Children with unilateral spastic cerebral palsy (USCP) usually have spastic paresis, impairing motor control of both the upper and lower limb on one side of their body [1]. Gracies (2005) classified the motor symptoms related to spastic paresis into three categories: muscle paresis, muscle contracture and muscle overactivity [2]. The term 'muscle overactivity' encompasses several symptoms: spastic coactivation, extrasegmental pathological coactivation (synkinesis; overflow; chorea; athetosis), spasticity and spastic dystonia [2].

The presence and degree of severity of these symptoms depend on each child and each muscle. According to Gracies, three of these symptoms mainly participate in limiting active movement in children with USCP: paresis of the agonist muscles (i.e. a lack of recruitment of the agonist muscles during active movement); contracture of the antagonist muscles (i.e. permanent shortening of the muscles which mechanically blocks the movement); and spastic coactivation of the antagonist muscles [2].

Coactivation is the simultaneous activation of both agonist and antagonist muscles during an active movement [3]. It normally occurs to regulate joint stiffness; in healthy subjects, involuntary muscle coactivation occurs during fine motor activities [4]–[7] while voluntary coactivation stabilizes loaded joints [8]. Spastic coactivation refers to the excessive activation of an antagonist muscle during an active movement, which often limits the movement and reduces functional ability [2], [3], [9].

Clinically, the presence of spastic coactivation is difficult to determine. Clinical evaluations frequently include a rating of spasticity using the Modified Ashworth Scale (MAS) [10] or the Modified Tardieu Scale [11], however spasticity is a short excessive response to a passive stretch that does not limit active movement [2], in contrast with spastic coactivation. Injection of neuromuscular blocking agents is the treatment of choice in order to reduce all forms of muscle overactivity [1], [2], [12]. However, this treatment can increase paresis in the injected muscles [13]. Therefore, it should be performed with caution, only in muscles in which spastic coactivation – which is detrimental to active motion – has been confirmed, and not only based on spasticity found during the clinical examination.

One accurate, objective method to determine the presence of spastic coactivation during active movements is EMG analysis. This has mainly been used in the lower limbs of children with USCP [3], [14]–[16] and seldomly in the upper limbs [17]–[20], despite the fact that limitations of upper limb active movements are common in children with USCP [1], [21]. In particular, children with USCP frequently have difficulties supinating their forearm [20], [22]. The movement of supination is regulated by two agonist

muscles (the biceps brachii and the supinator muscle) and two antagonist muscles (the pronator teres and the pronator quadratus). Therefore, the presence of spastic coactivation during supination would be characterized as an excessive activation of one or both pronators.

The overall aim of this study was to detect overactivity in the pronator muscles during active forearm supination in children with unilateral spastic cerebral palsy. The first objective was to establish whether surface EMG analysis could accurately identify excessive activation in the pronator muscles during supination movements in children with USCP. The second objective was to determine if there was a specific profile (assessed by clinical examination) of children who had excessive activation of neither, one or both pronator muscles. We hypothesized that that there would not be a specific profile, and that EMG would be the only way to characterize the presence of spastic coactivation.

2. Methods

2.1.1 Participants

A convenience sample of 32 children with USCP (16 males, age = 10.7 (\pm 3.0) years old, range [6.2-17.4]) and a control sample of 12 typically developing (TD) children (7 males, age = 11.0 (\pm 3.0) years old, range: [6.7-15.9]) were included in this study. The children with USCP were recruited from the Motion Analysis Laboratory patient database and had various degrees of upper limb disability. Children with USCP were excluded if they had an active range of supination of less than 20% of the lower limit of the 95% confidence interval for the mean range of supination of TD children. The mean range of supination in TD children is about 140° with a standard deviation of 10° according to de Bruin et al. and Sarcher et al. [18], [20], thus the lower limit of the 95% confidence interval is $140 - 1.96 * 10 = 120^\circ$. Therefore children with an active range of supination $< 24^\circ$ were excluded. The other exclusion criteria were: a loss of passive supination $> 10^\circ$ (indicating contracture of one or both pronator muscles); botulinum toxin injections within the previous six months; a previous tendon transfer in the affected upper limb or an inability to either understand or perform the experimental tasks. Of the originally identified $n=32$ with USCP, 7 were excluded from the study as they had an active range of supination $< 24^\circ$. The data from 25 children were therefore analysed (10 males, mean age = 10.6 years, SD = 3.0, range 6.2-17.4).

The Manual Ability Classification System (MACS) [23] was used to grade manual ability [1: quite good, 5: very impaired]. All 25 children with USCP had a MACS level of 1 ($n=11$) or 2 ($n=14$). The Modified Ashworth Scale (MAS) [10] was used to rate the spasticity of the pronators [0: none, 4: severe]. The 25 children with USCP had a MAS level between 0 and 3.

Table 1 lists the demographic and clinical data for the USCP group.

1 Table 1: Demographic and clinical data for the children with USCP. The Manual Ability Classification System
 2 (MACS) was used to grade manual ability [1: quite good, 5: very impaired] (Eliasson et al., 2006) and the
 3 Modified Ashworth Scale (MAS) was used to rate the spasticity of the pronators [0: none, 4: severe] (Bohannon
 4 et al., 1987). Spastic coactivation was defined as absent (0) or present (1) for each pronator based on EMG
 5 activation. Children with USCP were divided into three groups according to the number of pronators with
 6 excessive activation: 0 (group A), 1 (group B), or 2 (group C). Abbreviations: AROM-Active Range Of Motion.
 7 F-Female. M-Male. MACS-Manual Ability Classification System. MAS-Modified Ashworth Scale. PT-Pronator
 8 Teres. PQ-Pronator Quadratus. SD-Standard Deviation. USCP-Unilateral Spastic Cerebral Palsy.
 9

Children with USCP	Age (years)	Sex	MACS	MAS	Spastic coactivation	Spastic coactivation	Group	Supination AROM (°)
				Pronators	PT	PQ		Mean (SD)
1	10.6	F	1	1	0	0	A	101 (7)
2	11.0	F	1	1+	1	1	C	73 (10)
3	9.1	F	1	0	1	1	C	93 (4)
4	16.5	F	2	Missing	1	1	C	33 (2)
5	10.9	M	2	Missing	1	1	C	26 (11)
6	16.5	F	2	2	1	0	B	82 (2)
7	17.4	M	1	0	1	0	B	115 (3)
8	6.8	M	1	0	1	0	B	105 (3)
9	7.5	M	2	1+	1	1	C	50 (5)
10	9.1	F	1	1	0	0	A	83 (8)
11	9.2	M	2	1+	1	1	C	43 (3)
12	11.4	M	1	1	0	1	B	74 (5)
13	6.2	F	1	0	0	0	A	148 (2)
14	10.8	F	2	1	1	1	C	96 (13)
15	12.0	F	2	1	0	1	B	114 (6)
16	7.7	F	2	1+	1	1	C	64 (7)
17	8.4	M	2	2	1	1	C	26 (5)
18	10.6	M	1	0	1	0	B	93 (7)
19	8.6	F	1	0	0	0	A	84 (5)
20	8.0	M	1	0	0	0	A	122 (3)
21	10.0	F	2	Missing	1	0	B	63 (4)
22	13.4	F	2	Missing	1	0	B	45 (4)
23	13.0	F	2	1+	1	1	C	40 (5)
24	11.3	M	2	3	1	0	B	25 (1)
25	7.9	F	2	1+	0	0	A	47 (5)

10
 11
 12

Our local ethics committee Comité de Protection des Personnes Ouest IV (France) approved the study (IdRCB N°2016-A01314-47). Written informed consent was obtained from both parents of each child, and informed assent was obtained from all children. Data were processed in accordance with the requirements of the French National Commission for Data Protection and Liberties (CNIL).

2.1.2 Experimental set-up

In the USCP group, only patients' affected sides were analysed. In the TD group, the side to be analysed was randomly chosen (the dominant side was analysed for n=4 and the non-dominant side for n=8 individuals).

Kinematic parameters: Participants were equipped with 29 reflective markers on their hand, forearm, upper arm, shoulder and thorax, according to the upper limb model developed by Laitenberger et al. [24]. Displacement of the markers was recorded using a 3D motion capture system (VICON, Oxford Metrics, Oxford, UK) at a sampling frequency of 100Hz.

Electromyography: Activity of the pronator teres and pronator quadratus muscles was recorded using self-adhesive pairs of disposable bipolar Ag/AgCl surface EMG electrodes (recording diameter of 10mm). EMG signals were recorded with two different wireless surface EMG systems due to a change of equipment mid-study: a FreeEMG300 system (BTS, Milan, Italy) was used for n=9 USCP subjects and a Cometa ZeroWire system (Cometa, Milan, Italy) was used for n=16 USCP and the n=12 TD subjects. In all cases, the sampling frequency was 1000Hz and the systems were synchronized with the motion capture system.

To determine the placement of the electrodes, the pronator teres muscle was palpated during isometric voluntary contractions against manual resistance of forearm pronation [25], [26], and the surface EMG electrode was placed on the most prominent bulge of the muscle. For the pronator quadratus muscle, the surface EMG electrode was placed on the anterior side of the wrist, perpendicular to the forearm, about one finger proximal to the wrist joint [25], [27].

2.1.3 Procedure

Participants were seated on a height-adjustable bench. A baseline EMG signal was recorded for several seconds while the participant was still and relaxed (at rest). An EMG expert confirmed the reliability of the baseline signal before the participant was asked to perform at least 5 consecutive cycles of movements: extension-flexion (EF) in the sagittal plane (without shoulder elevation) and forearm pronation-supination (PS). The participants were asked to perform active movements to the end of their Active Range Of Motion (AROM) and to keep the other joints as still as possible during each trial. The movement velocity was regulated by an auditory metronome at a fixed frequency of 0.50Hz. This was necessary to ensure similar conditions between participants since spastic coactivation increases with movement velocity in all children, both with and without USCP [15], [17].

2.2 Data processing

Data processing was performed using custom MATLAB (Mathworks, Natick (MA), USA) routines and the open-source Biomechanical ToolKit library [28].

Kinematic parameters: Joint kinematics were obtained using a refined subject-specific model of the upper limb [24], and an inverse kinematic process combined with a global optimization [29]. Supination AROM was extracted from the PS angles.

EMG processing: EMG signals were band-pass filtered (10-450Hz, Butterworth zero-lag 4th order), full-wave rectified and smoothed with a low-pass filter (50Hz, Butterworth zero-lag 2nd order). An activation threshold was used as recommended by Hodges and Bui [30] and according to previously-published protocols [17], [18]. EMG signals were linearly interpolated to 100 points in order to represent the full movement cycle. For PS, the first half of the movement was supination, the second half was pronation.

EMG signals were amplitude-normalized with the peak value measured over the averaged movement trials (i.e. the averaged EF trial and the averaged PS trial) as recommended by Sarcher et al. [31].

2.3 Detection of overactivity

The methodology used to detect deviations in the EMG signals between the USCP and TD groups was based on that of Schwarz [32], modified by Chia and Sangeux [33], and applied to the EMG signals of the upper limb in Sarcher et al. [31]. This method consists of calculating the variability of the EMG data for the TD group, including inter-trial, inter-session, and inter-subject variability, and for each child with USCP, including inter-trial and inter-session variability [31]. These variabilities are calculated for each time point of the movement cycle, allowing direct comparison of EMG activation for each time point of the movement cycle using the test statistic presented in Schwartz et al. [32].

32 of the 50 recorded pronator muscles (n=25 pronator teres and n=25 pronator quadratus) were found to have statistically higher ($p < 0.05$) activation than the mean activation of the TD group for at least 1% of the supination movement. The 50 EMG signals were then all inspected visually by an expert to confirm the statistical findings. The analysis of the signals by the expert showed that the statistical differences found for only one or two consecutive percentages of the movement were mostly due to signal artefacts crossing the threshold of statistical significance.

Therefore, for each child of the USCP group, a pronator muscle was characterized as excessively active if its activation (including variability) during supination was statistically higher than the mean TD group's activation (including variability) for at least 3% of the movement (consecutive).

The USCP participants were subdivided into 3 groups, according to the number of overactive pronator(s) recorded: those in group A had no overactive pronators, group B had 1 and group C had both.

One-way ANOVA was used to detect differences in active range of supination (AROM) (°) between the four groups (three USCP groups and the TD group).

Kruskall-Wallis tests were used to detect differences in the level of the MACS and in the level of spasticity evaluated by the MAS between the three USCP groups.

When necessary, a post-hoc analysis was conducted using a Tukey adjustment. Statistical analyses were performed using the software R 3.2.2 [34] and the significance was set at $p < 0.05$.

3 Results

The results are summarized in Table 1.

3.1 Accuracy of the forearm surface EMG in the identification of pronator overactivity

Of the $n=25$ USCP participants, 6 had no pronator muscle overactivity during active forearm supination and were classed as Group A (Figure 1). Nine had only one overactive pronator, either the pronator teres ($n=7/25$) (Figure 2) or the pronator quadratus ($n=2$) (Figure 3) and were classed as Group B, and the remaining 10 had overactivity of both forearm pronators (Figure 4) and were classed as Group C. Of the $n=12$ TD children, none had any overactivity of the pronator muscles.

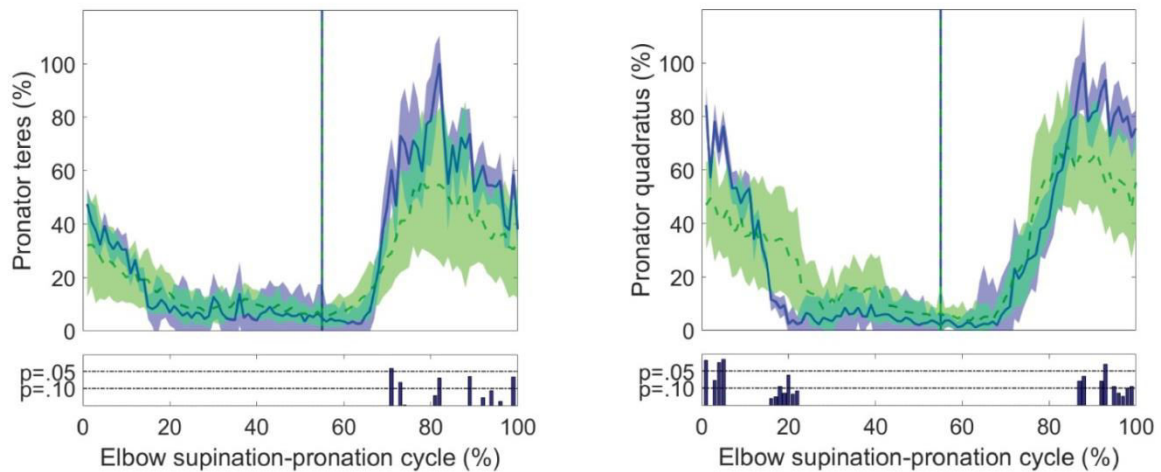


Figure 1: Mean normalized EMG signal (%) of the pronator teres (left) and the pronator quadratus (right) of the TD group (green dotted line) with its total standard deviation calculated with the inter-trial, inter-session, and inter-subject variability (green shaded area). The EMG signal of child 13 with USCP (blue full line) is shown with its respective total standard deviation calculated with the inter-trial and inter-session variability (blue shaded area) during elbow supination (0-50%) -pronation (50-100%). The statistical significance (p-value) of the deviation is reported for each percentage of the elbow supination- pronation cycle along the bottom of the graph. The vertical lines represent the beginning of the pronation movement for the TD group (green dotted line) and for child 13 with USCP (blue full line). Child 13 with USCP is part of group A, since neither her pronator teres nor her pronator quadratus has an activation statistically higher than the averaged TD group's activation (with its variability) for at least consecutive 3% of the movement during supination.

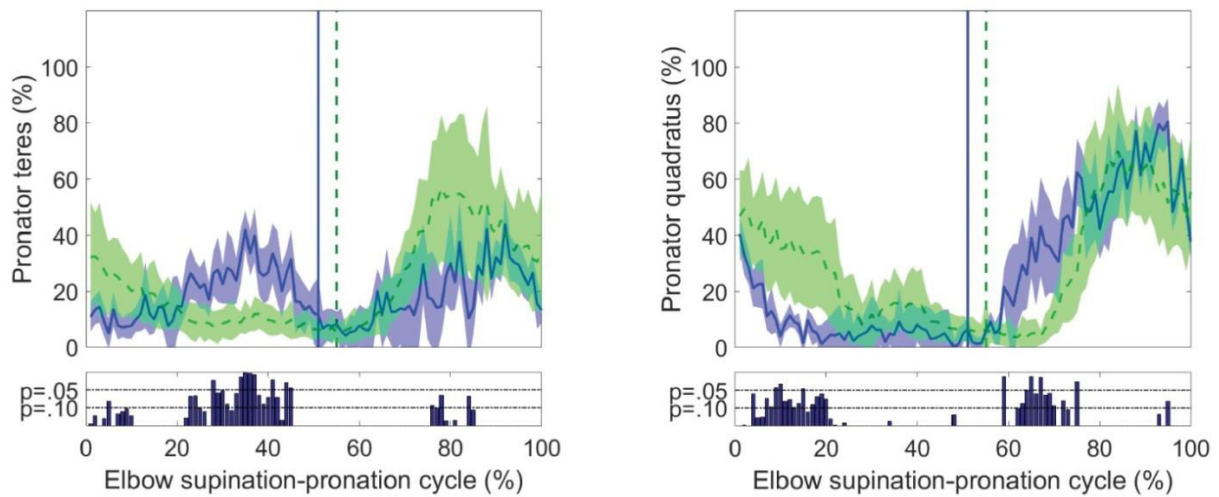


Figure 2: Mean normalized EMG signal (%) of the pronator teres (left) and the pronator quadratus (right) of the TD group (green dotted line) with its total standard deviation calculated with the inter-trial, inter-session, and inter-subject variability (green shaded area). The EMG signal of child 6 with USCP (blue full line) is shown with its respective total standard deviation calculated with the inter-trial and inter-session variability (blue shaded area) during elbow supination (0-50%) -pronation (50-100%). The statistical significance (p-value) of the deviation is reported for each percent of the elbow supination- pronation cycle along the bottom of the graph. The vertical lines represent the beginning of the pronation movement for the TD group (green dotted line) and for child 6 with USCP (blue full line). Child 6 with USCP is part of group B, since only her pronator teres has an activation statistically higher than the averaged TD group's activation (with its variability) for at least consecutive 3% of the movement during supination.

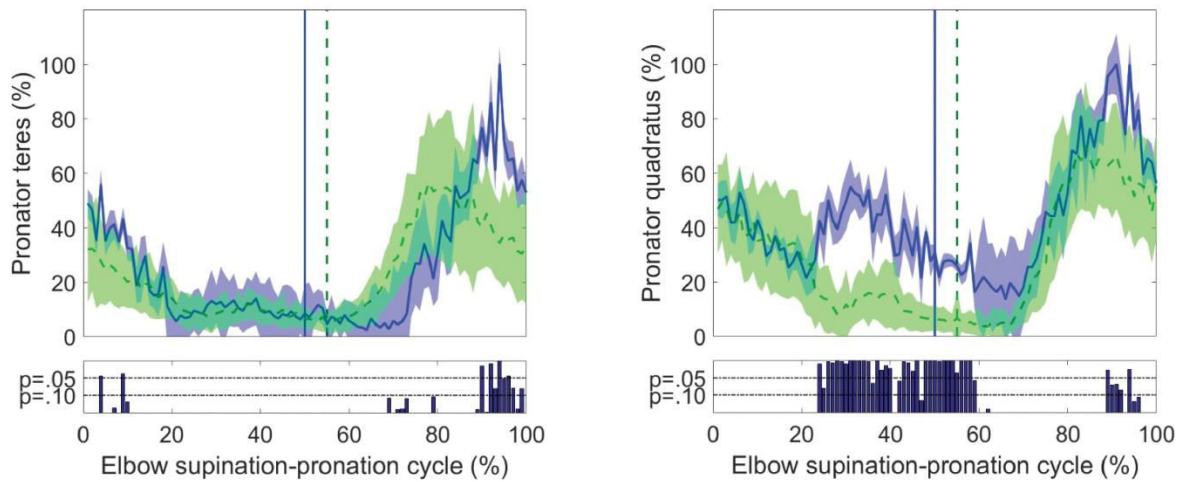


Figure 3: Mean normalized EMG signal (%) of the pronator teres (left) and the pronator quadratus (right) of the TD group (green dotted line) with its total standard deviation calculated with the inter-trial, inter-session, and inter-subject variability (green shaded area). The EMG signal of child 15 with USCP (blue full line) is shown with its respective total standard deviation calculated with the inter-trial and inter-session variability (blue shaded area) during elbow supination (0-50%) -pronation (50-100%). The statistical significance (p-value) of the deviation is reported for each percent of the elbow supination- pronation cycle along the bottom of the graph. The vertical lines represent the beginning of the pronation movement for the TD group (green dotted line) and for child 15 with USCP (blue full line). Child 15 with USCP is part of group B, since only her pronator quadratus has an activation statistically higher than the averaged TD group's activation (with its variability) for at least consecutive 3% of the movement during supination.

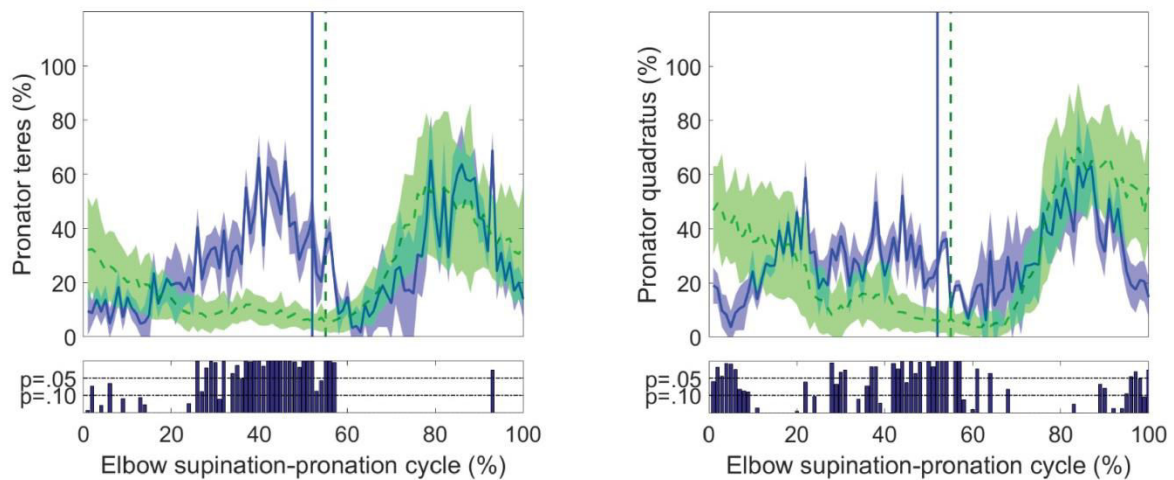


Figure 4: Mean normalized EMG signal (%) of the pronator teres (left) and the pronator quadratus (right) of the TD group (green dotted line) with its total standard deviation calculated with the inter-trial, inter-session, and inter-subject variability (green shaded area). The EMG signal for child 3 with USCP (blue full line) is shown with its respective total standard deviation calculated with the inter-trial and inter-session variability (blue shaded area) during elbow supination (0-50%) -pronation (50-100%). The statistical significance (p-value) of the deviation is reported for each percent of the elbow supination- pronation cycle along the bottom of the graph. The vertical lines represent the beginning of the pronation movement for the TD group (green dotted line) and for child 3 with USCP (blue full line). Child 3 with USCP is part of group C, since both her pronator teres and her pronator quadratus have an activation statistically higher than the averaged TD group's activation (with its variability) for at least consecutive 3% of the movement during supination.

3.2 *Detection of a specific profile for children with pronator overactivity*

3.2.1 *Relationship between pronator overactivity and upper limb impairment and function*

Differences in supination AROM were found between all four groups (three USCP groups A, B, C, and the TD group) ($F=22.3$; $p<0.001$). Post-hoc tests highlighted differences between group A (mean AROM= 98° SD=35) and the TD group (mean AROM= 140° SD=11) ($p=0.01$); between group B (mean AROM= 80° SD=31) and the TD group ($p<0.001$); between group C (mean AROM= 54° SD=26) and the TD group ($p<0.001$); between group A and group C ($p=0.01$); no difference was found between group A and group B, or between group B and group C (respectively $p=0.54$ and $p=0.16$).

Statistical results for differences in MACS levels in the three USCP groups were at the threshold of statistical significance (Chi-sq=5.9; p=0.05). Post-hoc tests highlighted differences between group A (mean MACS=1.2 SD=0.4) and group C (mean MACS=1.8 SD=0.4) (p=0.04), but not between group A and group B (mean MACS=1.6 SD=0.5) (p=0.31) nor between group B and group C (p=0.55).

In group A, 5 children (83%) had a MACS level of I and 1 had a MACS level of II. In group B, 4 children (44%) had a MACS level of I and 5 a MACS level of II. In group C, 2 children (20%) had a MACS level of I and 8 had a MACS level of II.

3.2.2 Relationship between pronator overactivity and spasticity

No differences in the level of spasticity evaluated by the MAS were found between groups A, B, and C (Chi-sq=3.53; p=0.17). Four individuals without spasticity of the pronator muscles according to the modified Ashworth scale were found to have excessive activation of one or both pronators on EMG analysis. Conversely, three patients with pronator spasticity evaluated between 1 and 1 + on the MAS were found to have no spastic coactivation on EMG.

4 Discussion

The aim of this study was to detect overactive pronator muscle(s) during active elbow supination in children with USCP. Excessive pronator activation was a prevalent feature of the USCP group: 19 out of the 25 children studied had excessive activation of one or both pronator muscles. As expected, EMG analysis showed that no child in the TD group had excessive activation of any pronator muscle. Therefore, the method presented here to detect spastic overactivity using dynamic surface EMG appears to be relevant.

The presence of spastic coactivation was related to the severity of the impairment of both active supination (at the impairment level) and global upper limb function evaluated with the MACS (at the activity level). This is a major finding of this study, providing evidence that spastic coactivation plays a role in the impairment of active upper limb function in children with USCP. Based on these findings, the injection of neuromuscular blocking agents could be considered as an appropriate treatment in the case of limited active supination with associated excessive spastic coactivation of the pronators. This conclusion is supported by similar findings in a study into the safety and efficacy of neuromuscular blocking agent injections in the upper limb of adults with hemiparesis [12].

However, although spastic coactivation is commonly involved in the impairment of active supination, it is not the only mechanism. While the results of this study showed that there was a relationship between

spastic coactivation of the pronators and the severity of the impairment of active supination, some of the participants with severely impaired active supination had no pronator overactivity whilst others, who had one or two overactive pronator muscles, only had mildly limited active supination. This emphasizes the fact that USCP affects each child differently: in some spastic coactivation may be a greater problem while in others it is the paresis which is more limiting. Dynamic EMG analysis is therefore essential to accurately determine the origin of limited active supination and provide appropriate treatment for these children.

The results of this study showed a lack of relationship between spasticity evaluated with the Modified Ashworth Scale and spastic coactivation seen on EMG analysis. These data therefore do not support use of the MAS to make clinical decisions regarding the injection of neuromuscular blocking agents since this assessment does not accurately determine the existence of troublesome spastic coactivation.

Moreover, the number of overactive pronator muscles (either one, both or neither) that were involved in the movement limitations was variable among the children. Fifteen of the 25 children with USCP had either no pronator overactivity or overactivity of only one pronator muscle. Besides, there was no statistical difference in active ROM, MACS level, or spasticity (MAS) between group A (no spastic coactivation of the pronators) and group B (one overactive pronator), or between group B and group C (both pronators overactive). Hence, none of these assessments can be used to characterize spastic coactivation of the pronators. This is in accordance with the statement by Gracies that spastic coactivation is not quantifiable at the bedside [2]. This finding is important as it provides arguments against the clinical practice of injecting both pronators with neuromuscular blocking agents to ameliorate supination. Instead, based on our findings, we suggest that the decision to inject a neuromuscular blocking agent should always be preceded by EMG analysis of active supination movements in order to precisely determine which muscles are overactive and which are not. The need to evaluate coactivation during active movements before injections of neuromuscular blocking agents in the upper limb of adults with hemiparesis was also highlighted in [12].

This study was conducted in a motion analysis laboratory, a complex structure rarely found in rehabilitation centres outside university hospitals. However, this protocol can also be conducted using a simple and portable surface EMG/video system, available in most rehabilitation centres.

One limitation of this study is the choice of the EMG amplitude normalization method. EMG amplitude was normalized by the maximal amplitude recorded during dynamic trials. If the amplitude is relatively low during both these movements (due to the degree of paresis) then the degree of muscle activation may be overestimated (relative to the activation recorded in the control group) thus overestimating spastic

coactivation. This limitation is unavoidable, however, as there is currently no better method for EMG amplitude normalization [31], [35].

Another limitation of this study is that the use of surface EMG may result in presence of electromyographic crosstalk between muscles, especially in the small forearms of children. However, even though the pronator quadratus is a deep muscle, it is isolated in the forearm so no other muscle activity can interfere with its signal. The pronator teres is a muscle located at the surface of the forearm and is surrounded by wrist and finger flexor muscles. However, crosstalk from these muscles should be limited since they were not involved in the studied movements.

Finally, another limitation of this study is the technical impossibility to measure the degree of paresis of the supinator muscles. There is a need for a reliable method to measure muscle paresis in children with USCP to be developed in order to refine the identification of the mechanisms behind active supination limitation.

Conclusion

The aim of this study was to detect the overactivity of the pronator muscles during active forearm supination in children with unilateral spastic cerebral palsy. We showed that surface EMG analysis of the pronators can accurately identify excessive activation during supination movements. Pronator muscle overactivity is related to the severity of the impairment of active supination and global upper limb function; however, it is not the only cause for impairment. None of the common assessments of impairment and function accurately characterize spastic coactivation of the pronators. The presence of overactivity in neither, one, or both pronators is variable in children with USCP and can only be reliably detected using electromyography during active supination movements. Accurate identification of overactivity will lead to more successful treatment with improvement of motor function.

Future studies should assess the effectiveness of the treatment of spastic coactivation of the pronators, with injections of neuromuscular blocking agents, determined following dynamic EMG analysis.

Acknowledgements

We are grateful to the children and their parents for their collaboration. We thank Johanna Robertson and Jennifer Dandrea-Palethorpe for their thorough and precise English proofreading. This work was supported by a grant from the Fondation Paralysie Cérébrale and Envoludia.

Conflicts of interest: None

References

- [1] S. Levitt, *Treatment of Cerebral Palsy and Motor Delay*, 5th ed. Chichester, UK: Wiley-Blackwell, 2010.
- [2] J.-M. Gracies, "Pathophysiology of spastic paresis. II: Emergence of muscle overactivity.," *Muscle Nerve*, vol. 31, no. 5, pp. 552–71, May 2005.
- [3] V. B. Unnithan, J. J. Dowling, G. Frost, B. Volpe Ayub, and O. Bar-Or, "Cocontraction and phasic activity during GAIT in children with cerebral palsy.," *Electromyogr. Clin. Neurophysiol.*, vol. 36, no. 8, pp. 487–94, Dec. 1996.
- [4] P. Aagaard, E. B. Simonsen, J. L. Andersen, S. P. Magnusson, F. Bojsen-Møller, and P. Dyhre-Poulsen, "Antagonist muscle coactivation during isokinetic knee extension.," *Scand. J. Med. Sci. Sports*, vol. 10, no. 2, pp. 58–67, Apr. 2000.
- [5] M. F. Levin and M. Dimov, "Spatial zones for muscle coactivation and the control of postural stability.," *Brain Res.*, vol. 757, no. 1, pp. 43–59, May 1997.
- [6] A. M. Smith, "The coactivation of antagonist muscles.," *Can. J. Physiol. Pharmacol.*, vol. 59, no. 7, pp. 733–47, Jul. 1981.
- [7] P. L. Gribble, L. I. Mullin, N. Cothros, and A. Mattar, "Role of Cocontraction in Arm Movement Accuracy," *J. Neurophysiol.*, vol. 89, no. 5, pp. 2396–2405, May 2003.
- [8] J. Nielsen, M. Nagaoka, Y. Kagamihara, N. Kakuda, and R. Tanaka, "Discharge of muscle afferents during voluntary co-contraction of antagonistic ankle muscles in man.," *Neurosci. Lett.*, vol. 170, no. 2, pp. 277–80, Apr. 1994.
- [9] A. J. Ikeda, M. F. Abel, K. P. Granata, and D. L. Damiano, "Quantification of cocontraction in spastic cerebral palsy.," *Electromyogr. Clin. Neurophysiol.*, vol. 38, no. 8, pp. 497–504, Dec. 1998.
- [10] R. W. Bohannon and M. B. Smith, "Interrater reliability of a modified Ashworth scale of muscle spasticity.," *Phys. Ther.*, vol. 67, no. 2, pp. 206–7, Feb. 1987.
- [11] R. N. Boyd and H. K. Graham, "Objective measurement of clinical findings in the use of botulinum toxin type A for the management of children with cerebral palsy," *Eur. J. Neurol.*, vol. 6, pp. s23–s35, Nov. 1999.
- [12] J.-M. Gracies et al., "Safety and efficacy of abobotulinumtoxinA for hemiparesis in adults with upper limb spasticity after stroke or traumatic brain injury: a double-blind randomised controlled trial," *Lancet Neurol.*, vol. 14, no. 10, pp. 992–1001, Oct. 2015.
- [13] E. A. A. Rameckers, L. A. W. M. Speth, J. Duysens, J. S. H. Vles, and B. C. M. Smits-Engelsman, "Botulinum toxin-a in children with congenital spastic hemiplegia does not improve upper extremity motor-related function over rehabilitation alone: a randomized controlled trial.," *Neurorehabil. Neural Repair*, vol. 23, no. 3, pp. 218–25, Jan. 2009.
- [14] R. Gross, F. Leboeuf, J. B. Hardouin, B. Perrouin-Verbe, S. Brochard, and O. Rémy-Néris, "Does muscle coactivation influence joint excursions during gait in children with and without hemiplegic cerebral

palsy? Relationship between muscle coactivation and joint kinematics.," Clin. Biomech. (Bristol, Avon), Sep. 2015.

[15] R. Gross et al., "The influence of gait speed on co-activation in unilateral spastic cerebral palsy children," Clin. Biomech., vol. 28, no. 3, pp. 312–317, Mar. 2013.

[16] D. L. Damiano, T. L. Martellotta, D. J. Sullivan, K. P. Granata, and M. F. Abel, "Muscle force production and functional performance in spastic cerebral palsy: relationship of cocontraction.," Arch. Phys. Med. Rehabil., vol. 81, no. 7, pp. 895–900, Jul. 2000.

[17] A. Sarcher, M. Raison, F. Leboeuf, B. Perrouin-Verbe, S. Brochard, and R. Gross, "Pathological and physiological muscle co-activation during active elbow extension in children with unilateral cerebral palsy," Clin. Neurophysiol., vol. 128, no. 1, pp. 4–13, 2017.

[18] A. Sarcher et al., "Impact of muscle activation on ranges of motion during active elbow movement in children with spastic hemiplegic cerebral palsy.," Clin. Biomech. (Bristol, Avon), vol. 30, no. 1, pp. 86–94, Jan. 2015.

[19] N. Malfait and T. D. Sanger, "Does dystonia always include co-contraction? A study of unconstrained reaching in children with primary and secondary dystonia," Exp. Brain Res., vol. 176, no. 2, pp. 206–216, Jan. 2007.

[20] M. de Bruin, H. E. J. Veeger, M. Kreulen, M. J. C. Smeulders, and S. A. Bus, "Biceps brachii can add to performance of tasks requiring supination in cerebral palsy patients.," J. Electromyogr. Kinesiol., vol. 23, no. 2, pp. 516–22, Apr. 2013.

[21] B. Steenbergen and A. M. Gordon, "Activity limitation in hemiplegic cerebral palsy: evidence for disorders in motor planning," Dev. Med. Child Neurol., vol. 48, no. 09, p. 780, Sep. 2006.

[22] M. Kreulen, M. J. C. Smeulders, H. E. J. Veeger, and J. J. Hage, "Movement patterns of the upper extremity and trunk associated with impaired forearm rotation in patients with hemiplegic cerebral palsy compared to healthy controls," Gait Posture, vol. 25, no. 3, pp. 485–492, Mar. 2007.

[23] A.-C. Eliasson et al., "The Manual Ability Classification System (MACS) for children with cerebral palsy: scale development and evidence of validity and reliability.," Dev. Med. Child Neurol., vol. 48, no. 7, pp. 549–54, Jul. 2006.

[24] M. Laitenberger, M. Raison, D. Périé, and M. Begon, "Refinement of the upper limb joint kinematics and dynamics using a subject-specific closed-loop forearm model," Multibody Syst. Dyn., vol. 33, no. 4, pp. 413–438, 2015.

[25] G. A. Malanga and D. I. Campagnolo, "Clarification of the pronator reflex.," Am. J. Phys. Med. Rehabil., vol. 73, no. 5, pp. 338–40, 1994.

[26] D. Remaley et al., "Surface electromyography of the forearm musculature during the windmill softball pitch," Orthop. J. Sport. Med., vol. 3, no. 1, pp. 1–8, Jan. 2015.

[27] J. V Basmajian, Primary Anatomy, 8th editio. Baltimore: Williams and Wilkins, 1982.

- [28] A. Barre and S. Armand, "Biomechanical ToolKit: Open-source framework to visualize and process biomechanical data," *Comput. Methods Programs Biomed.*, vol. 114, no. 1, pp. 80–87, Apr. 2014.
- [29] T.-W. Lu and J. J. O'Connor, "Bone position estimation from skin marker co-ordinates using global optimisation with joint constraints," *J. Biomech.*, vol. 32, no. 2, pp. 129–134, Feb. 1999.
- [30] P. W. Hodges and B. H. Bui, "A comparison of computer-based methods for the determination of onset of muscle contraction using electromyography.," *Electroencephalogr. Clin. Neurophysiol.*, vol. 101, no. 6, pp. 511–9, Dec. 1996.
- [31] A. Sarcher et al., "Patterns of upper limb muscle activation in children with unilateral spastic cerebral palsy: Variability and detection of deviations," *Clin. Biomech.*, vol. 59, pp. 85–93, Sep. 2018.
- [32] M. H. Schwartz, J. P. Trost, and R. A. Wurvey, "Measurement and management of errors in quantitative gait data," *Gait Posture*, vol. 20, no. 2, pp. 196–203, Oct. 2004.
- [33] K. Chia and M. Sangeux, "Quantifying sources of variability in gait analysis," *Gait Posture*, vol. 56, pp. 68–75, Jul. 2017.
- [34] R Core Team, "R: A language and environment for statistical computing." R Foundation for Statistical Computing, Vienna, Austria, 2015.
- [35] F. Hug, "Can muscle coordination be precisely studied by surface electromyography?," *J. Electromyogr. Kinesiol.*, vol. 21, no. 1, pp. 1–12, Feb. 2011.

Highlights

- Overactivity of neither, one or both pronator muscles is patient-specific.
- Spastic coactivation of the pronators can only be detected with electromyography.
- Pronators spastic coactivation is related to the impairment of active supination.
- Pronators spastic coactivation is related to the impairment of upper limb function.
- Pronator overactivity is not the only cause of active supination limitation.

6.1.2. DISCUSSION

Cet article montre que l'anomalie d'activation musculaire du/des pronateur(s) est en effet liée au déficit de supination active, mais que ce n'est pas le seul symptôme à prendre en considération, puisque certains enfants ont leurs deux pronateurs hyperactifs et un déficit de supination active faible. L'EMG ne permet hélas pas de mesurer la faiblesse musculaire ou parésie des supinateurs, à cause des méthodes de normalisation EMG existantes. Il y a un fort besoin de trouver une méthode pour mesurer la parésie musculaire chez les enfants avec une PCUS.

Les limites de cet article sont :

- La normalisation en amplitude de l'EMG est faite à partir de l'activation maximale du muscle pendant les mouvements moyennés de flexion/extension et de pronosupination du coude. Or, si la parésie musculaire est importante pendant ces mouvements, alors l'activation du muscle peut être surestimée en comparaison avec les activations musculaires des enfants à DT, et cela peut entraîner la caractérisation d'une hyperactivité surestimée. Cependant, à ce jour, aucune méthode de normalisation en amplitude de l'EMG n'offre de meilleure alternative pour évaluer le niveau de force d'un muscle.
- Le seuil de détection utilisé peut être discuté, tant sur sa valeur que sur la durée de dépassement :
 - o Faut-il prendre un seuil à $P=0.05$ ou un P ajusté à 0.0005 (correction de Bonferroni) puisque 100 tests statistiques sont effectués sur les données ?
 - o Faut-il prendre une durée de dépassement du seuil de 1%, 2%, 3% ?

Un complément d'analyse a été effectué suite à ce questionnement. Le choix du seuil fait varier le nombre de pronateurs détectés comme hyperactifs (Tableau 3) :

Tableau 3. Variation de la détection de l'hyperactivité en fonction du seuil utilisé

NOMBRE DE PRONATEURS HYPERACTIFS PENDANT LA SUPINATION ACTIVE	ROND PRONATEUR	CARRE PRONATEUR
P = 0.05 DUREE DE DEPASSEMENT = 1%	20/25	15/25
P = 0.05 DUREE DE DEPASSEMENT = 2%	17/25	13/25
P = 0.05 DUREE DE DEPASSEMENT = 3%	17/25	13/25
P = 0.0005 DUREE DE DEPASSEMENT = 1%	16/25	9/25
P = 0.0005 DUREE DE DEPASSEMENT = 2%	13/25	7/25
P = 0.0005 DUREE DE DEPASSEMENT = 3%	13/25	6/25

Les résultats pour une durée de dépassement du seuil de 2% ou de 3% sont très similaires. Ainsi, on imagine qu'une durée de dépassement du seuil de 1% est trop sensible aux variations du signal EMG, surtout que la fréquence de filtrage utilisée pour l'enveloppe linéaire est de 50Hz. On pourrait imaginer qu'avec une fréquence plus faible, les résultats seraient assez similaires quelle que soit la durée de dépassement du seuil utilisée.

Les résultats varient en fonction du P utilisé. Cependant, pour 15 enfants sur les 25 analysés, les résultats d'hyperactivité de leurs deux pronateurs étaient identiques quel que soit le seuil P=0.05 ou P=0.0005 utilisé.

Il est attendu au retour de review de cet article de mieux développer cet aspect méthodologique du choix, très important, du seuil de détection de l'hyperactivité.

Ainsi, la méthode développée dans le chapitre précédent de détection et caractérisation des anomalies d'activation musculaire d'enfants avec une PCUS a été mise en application dans un contexte clinique.

L'identification de la combinaison de pronateur(s) hyperactif(s) pour chaque enfant avec une PCUS présentant un déficit de supination active est essentielle pour guider le choix du traitement qui pourrait améliorer la fonction motrice de l'enfant. Pour cela, la mesure de l'activation musculaire est suffisamment sensible pour détecter une hyperactivité musculaire.

7. OBJECTIF 2.3 : SENSIBILITE AU CHANGEMENT DE LA MESURE DE L'ACTIVATION MUSCULAIRE DU MEMBRE SUPERIEUR CHEZ L'ENFANT PC ET L'ENFANT A DEVELOPPEMENT TYPIQUE

L'article 3 ci-dessus aborde également la sensibilité au changement de la mesure de l'activation musculaire à l'aide d'une étude cas d'une enfant avec une PCUS de 13 ans.

Cette enfant a suivi deux sessions de mesure, avant et pendant la période d'efficacité de ses toxines botuliques (deux mois et demi après les injections) dans le rond pronateur.

L'analyse de l'activation musculaire de son rond pronateur avant et après les toxines met en évidence une diminution de l'activation musculaire, et ce, quel que soit le seuil de détection utilisé (également mis en évidence avec un seuil à $P=0.0005$).

Cependant, il faut noter que la méthode de normalisation de l'amplitude EMG utilisée est celle qui utilise le pic moyen du muscle lors des essais de flexion/extension et de pronation/supination à 0.50Hz. Si une diminution de l'activation musculaire est notée lors de la pronation/supination, c'est également parce que le muscle rond pronateur présentait la même activation musculaire lors de la flexion/extension (en tant que fléchisseur du coude), avant ou après les toxines botuliques. Cet élément est compliqué à expliquer, et doit refléter un des mécanismes de fonctionnement de la toxine botulique. Une étude sur un plus grand nombre de sujets est nécessaire afin de vérifier ces résultats. Cette étude est présentée en perspective de cette thèse.

La mesure de l'activation semble ainsi suffisamment sensible pour détecter une réduction d'activation musculaire après injections de toxine botulique.

8. PERSPECTIVES

8.1. PERSPECTIVES METHODOLOGIQUES

8.1.1. VALIDITE DE CONCURRENCE : COMPARAISON SEMG/IEMG

Une des limites des articles précédents est que l'utilisation d'électrodes EMG de surface peut entraîner la présence de diaphonie (ou cross-talk) : le signal provenant d'un puissant muscle distant peut se propager sur une grande distance et venir s'ajouter à celui du muscle au-dessus duquel les électrodes étaient placées. Il devient alors très difficile, voire impossible d'isoler le signal propre à chaque muscle. Ce phénomène est amplifié dans les zones à forte densité musculaire comme l'avant-bras. Notamment dans notre protocole, le muscle rond pronateur est entouré du muscle fléchisseur radial du carpe et des muscles fléchisseurs des doigts, et est donc à fort risque de crosstalk. Il est nécessaire de vérifier que l'activation musculaire du rond pronateur est correctement mesurée par sEMG. L'électromyographie intramusculaire (iEMG) est le gold standard en termes de mesure d'activation musculaire, puisque les électrodes sont alors directement situées dans la fibre musculaire.

Une étude pilote a été réalisée chez deux adultes sains (1M, 1F ; âge moyen 29.5 ans) pour comparer les signaux sEMG et iEMG du rond pronateur pendant des mouvements de flexion/extension et de pronosupination du coude à 0.50Hz.

L'électrode sEMG du rond pronateur a été placée de la même manière que pour les protocoles précédents.

Les électrodes iEMG sont des fils très fins insérés dans une fibre musculaire à l'aide d'une aiguille (Figure 24).



Figure 24. Electrodes EMG intramusculaires avec l'aiguille de mise en place des fils

Afin de placer les électrodes iEMG, le muscle rond pronateur est repéré par échographie (Figure 25).

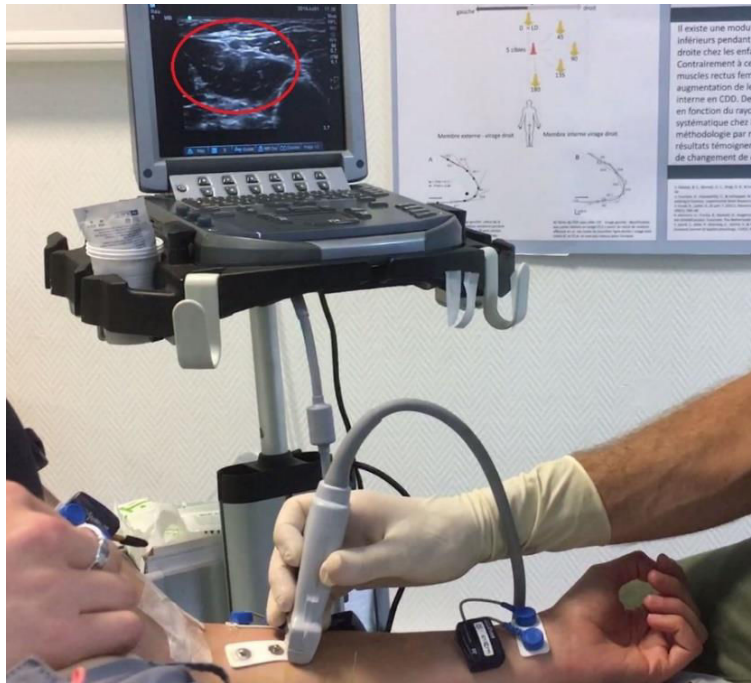


Figure 25. Repérage échographique du rond pronateur (entouré en rouge)

Puis, les électrodes iEMG sont insérées dans une fibre musculaire du rond pronateur (Figure 26). Au moment du retrait de l'aiguille, les fils restent en place dans la fibre musculaire et sont ensuite reliés à un boîtier EMG.

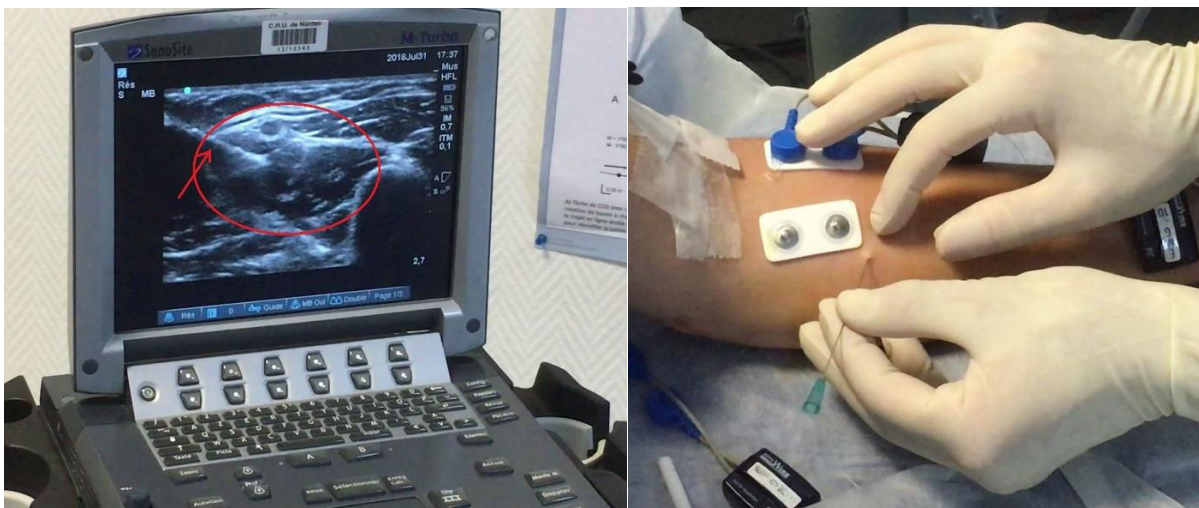


Figure 26. Insertion des électrodes iEMG dans le rond pronateur. L'aiguille est visible par échographie (flèche rouge).

Le participant réalise ensuite les mouvements de flexion/extension et de pronosupination du coude à 0.50Hz avec les fils en place dans le muscle.

Les signaux sEMG et iEMG du rond pronateur ont été traités de la même manière, avec un filtre passe bande 10-450Hz, et un filtre passe bas pour extraire l'enveloppe à 50Hz, comme détaillé dans la partie « Matériels et méthodes ». Généralement, il est conseillé pour l'électromyographie intramusculaire un filtre passe bande 10-1000Hz [106]. Cependant, dans notre cas, ce filtre est directement paramétré dans le boîtier EMG sans fil, et seul le fabricant a accès à ces réglages. Nous avons donc utilisé les mêmes filtres pour traiter les signaux sEMG et iEMG.

De plus, ils ont été normalisés en amplitude de la même manière, par l'amplitude maximale moyenne du rond pronateur mesurée dans les mouvements de flexion/extension et de pronation/supination du coude. Cette méthode était la plus appropriée à notre protocole d'après l'article 3 [66].

Les résultats de comparaison des signaux sEMG et iEMG pendant la pronosupination sont « visuellement » bons (Figure 27). Le coefficient d'intercorrélation des signaux normalisés sEMG et iEMG du rond pronateur a été calculé pour le participant A (r moyen = 19.3 SD 6.4) et B (r moyen = 13.9 SD 7.6).

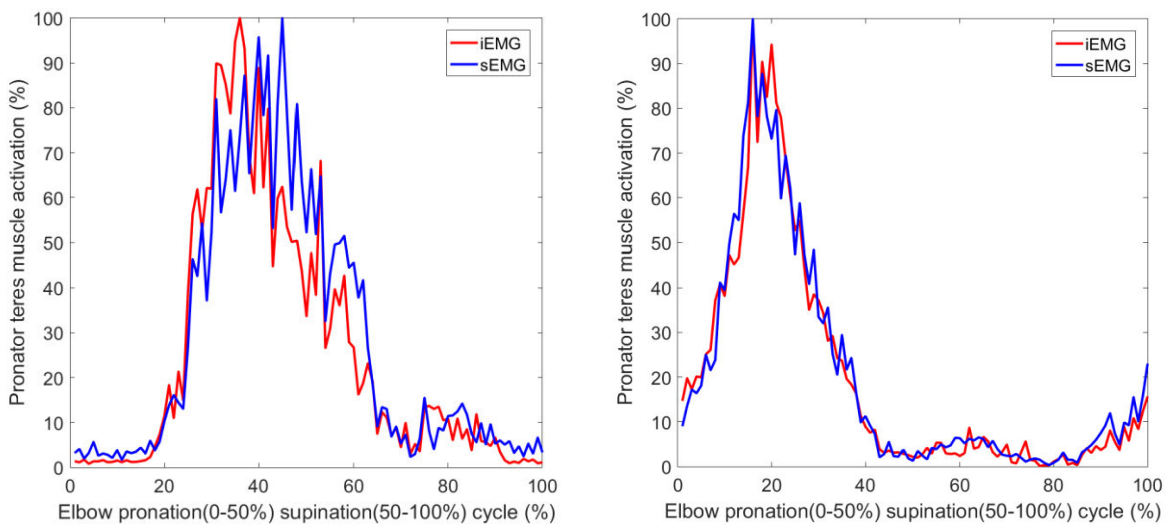


Figure 27. Signaux iEMG (rouge) et sEMG (bleu) normalisés du rond pronateur pendant une pronation-supination du coude du participant A (gauche) et B (droite).

Les résultats de comparaison des signaux sEMG et iEMG pendant la flexion/extension du coude sont « visuellement » moins bons (Figure 28). Le coefficient d'intercorrélation des signaux normalisés sEMG et iEMG du rond pronateur est également moins bon pour le participant A (r moyen = 6.7 SD 2.8) et B (r moyen = 1.3 SD 0.7).

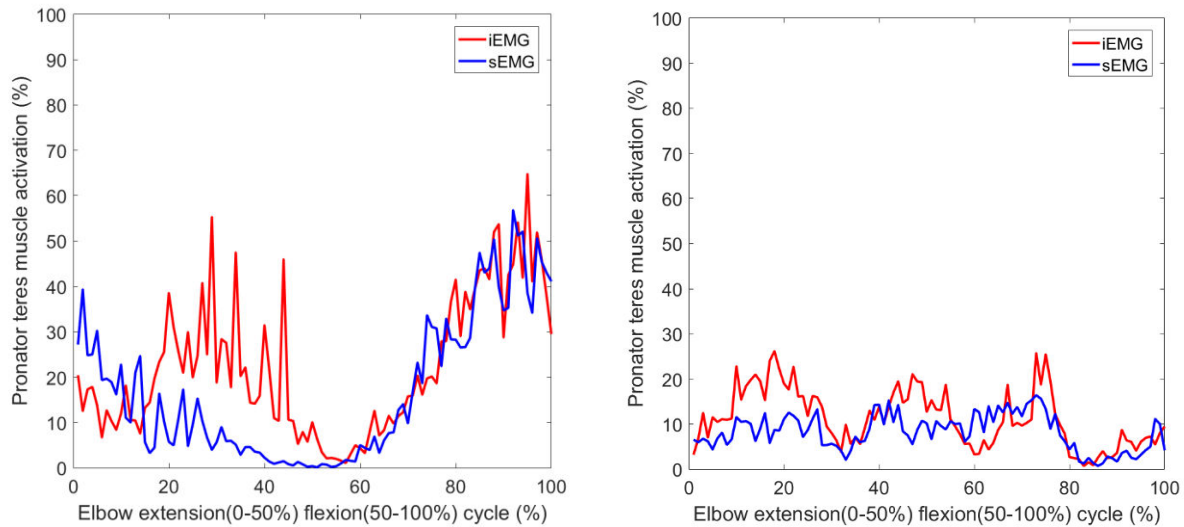


Figure 28. Signaux iEMG (rouge) et sEMG (bleu) normalisés du rond pronateur pendant une extension-flexion du coude du participant A (gauche) et B (droite).

En effet, une bouffée d'activation supplémentaire sur le signal iEMG du rond pronateur est observée pendant l'extension chez le participant A. Après observation des signaux bruts, cette bouffée semble correspondre à une interférence de mouvement non filtrée, probablement due aux mouvements des fils lors de l'extension. Une analyse fréquentielle des signaux du participant A (Figure 29) met en évidence des différences de fréquences entre le signal iEMG et sEMG entre 2Hz et 3Hz, qui n'existent pas pour le participant B. Cela peut en partie confirmer la présence d'interférences de mouvement qui n'ont pas été filtrées car leur fréquence fait partie de l'intervalle de fréquences de l'EMG conservé après traitement.

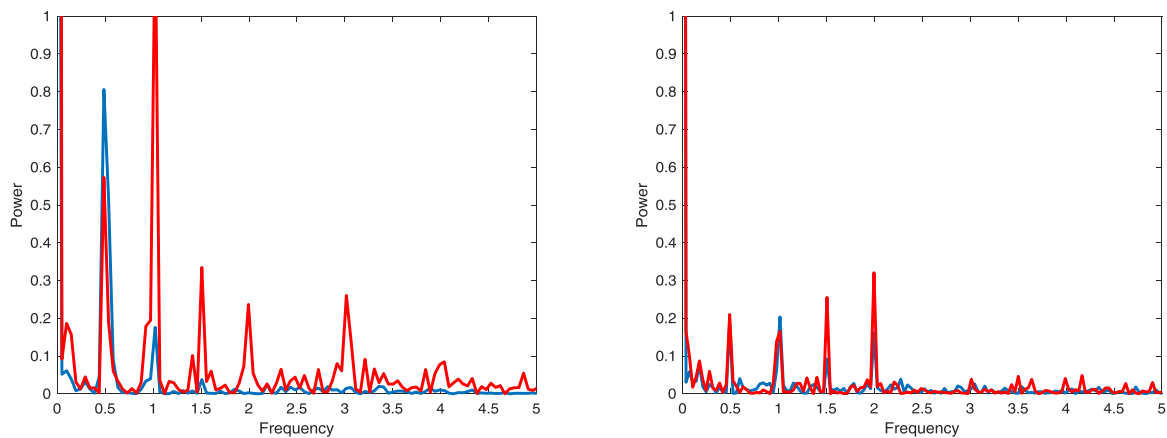


Figure 29. Analyse fréquentielle des signaux iEMG (rouge) et sEMG (bleu) filtrés du rond pronateur pendant une extension-flexion du coude du participant A (gauche) et B (droite).

Les différences d'amplitude des pics observables chez le participant B pendant l'extension-flexion du coude (Figure 28) pourraient être dues au fait que l'iEMG recrute le signal des unités motrices à proximité du fil inséré, qui peut varier légèrement de la sommation des signaux des unités motrices mesurée par sEMG. En dehors de ces différences d'amplitude, l'analyse fréquentielle montre une forte ressemblance entre les signaux iEMG et sEMG (Figure 29).

Il est intéressant de noter que les deux participants A et B n'utilisent pas leur rond pronateur de la même manière pendant le mouvement d'extension-flexion puisqu'il est utilisé comme un fléchisseur chez le participant A alors qu'il n'est quasiment pas recruté chez le participant B.

Ainsi, cette étude pilote est plutôt encourageante sur le fait que l'électromyographie de surface mesure de façon valide l'activation musculaire du rond pronateur. De plus, le signal sEMG semble moins sensible aux interférences de mouvements que le signal iEMG, dont les électrodes-fils sont sensibles aux larges mouvements tels que la flexion/extension du coude.

Il serait intéressant de réaliser une étude de comparaison sEMG/iEMG chez des enfants à DT et avec une paralysie cérébrale, pour qui les volumes musculaires et les distances entre chaque muscle sont réduites. Cependant, même si un Comité de Protection des Personnes pourrait accepter ce protocole chez des enfants avec une paralysie cérébrale chez qui l'électromyographie intramusculaire est déjà utilisé en pratique clinique, il serait sans doute plus compliqué de justifier cette étude chez des enfants à DT.

8.1.2. ETUDE DES SYNERGIES MUSCULAIRES

L'analyse des synergies musculaires a été réalisée dans une étude au membre supérieur de l'enfant avec une paralysie cérébrale [61]. Si cette méthode d'analyse globale de l'activation musculaire n'était pas appropriée à notre question de recherche, elle reste une méthode pertinente d'analyse des signaux EMG, et elle a été utilisée dans le cadre d'une étude ancillaire sur les patients avec une tétraplégie. Cette étude a fait l'objet d'une lettre à l'éditeur publiée dans Annals Of Physical Medicine and Rehabilitation [104]. Cette étude a été financée suite à la sélection de ce projet à l'appel d'offres interne du CHU de Nantes (financement de 37.74keuros).

Principe des synergies musculaires :

Des techniques de calcul telles que des algorithmes de factorisation matricielle peuvent être utilisées pour extraire les synergies musculaires des signaux EMG. Ces algorithmes identifient les groupes pondérés de muscles qui peuvent décrire au mieux la variation de l'activation musculaire globale. Ces groupes pondérés de muscles sont les synergies musculaires. Elles représentent des muscles qui s'activent en synchronie, supposément de manière à simplifier le contrôle moteur (Figure 30).

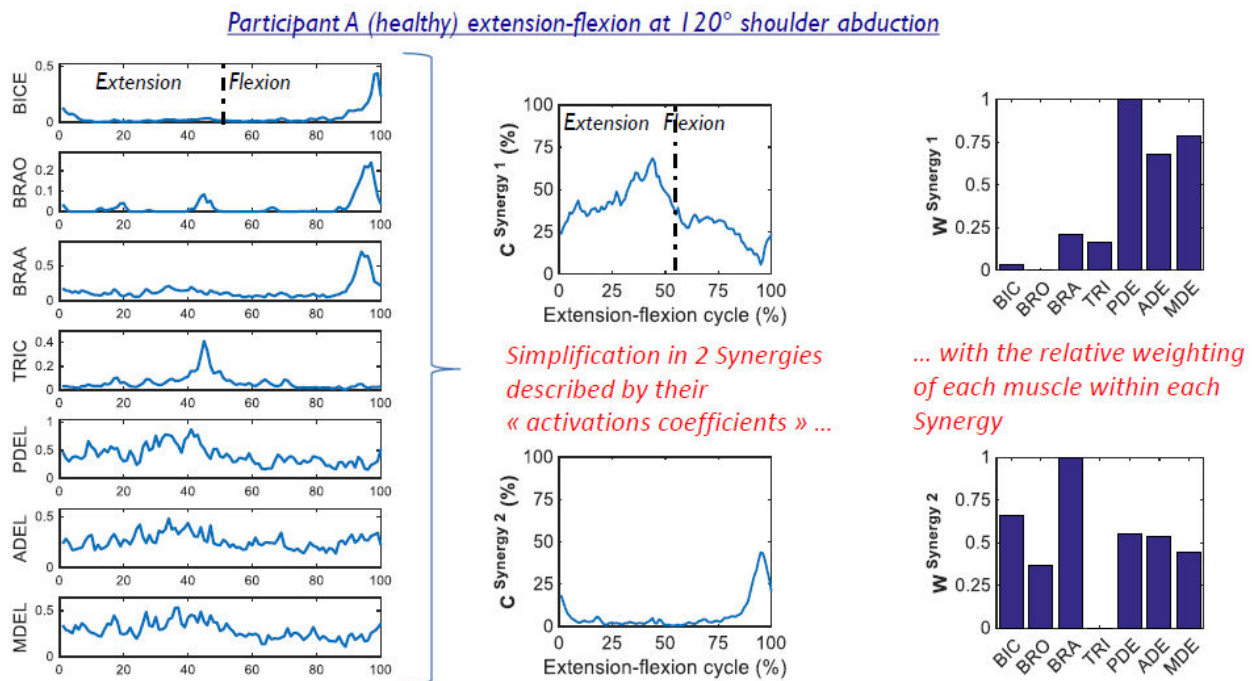


Figure 30. Exemple d'extraction de synergies musculaires à partir de signaux EMG. BICE - Biceps ; BRAO - Brachioradialis ; BRAA - Brachialis ; TRIC - Triceps ; PDEL - Deltoïde postérieur ; ADEL - Deltoïde antérieur ; MDEL - Deltoïde moyen.

Problématique clinique étudiée :

Les patients avec une tétraplégie C5 ou C6 ont un triceps brachii paralysé. L'extension du coude peut être restaurée par un transfert tendineux d'un muscle fonctionnel (soit le biceps, soit le deltoïde postérieur) sur le tendon du triceps paralysé et après quelques mois de rééducation. L'organisation des activations musculaires à la suite de ce transfert n'a jamais été étudiée. L'objectif de ce short report était d'analyser l'organisation des activations musculaires après une chirurgie de réanimation de l'extension du coude chez des patients avec une tétraplégie, par le calcul des synergies musculaires à partir des signaux EMG.

Trois participants ont été inclus dans ce short report : deux patients avec une tétraplégie programmés pour une chirurgie de réanimation de l'extension du coude (un transfert du biceps et un transfert du deltoïde postérieur) et un participant sain. Les deux participants avec une tétraplégie ont été évalués avant et 5 mois après leur chirurgie. Le participant sain a été évalué une seule fois. Equipés d'électrodes sEMG sur les muscles biceps, triceps (seulement pour le participant sain), brachioradialis, brachialis, et les trois chefs du deltoïde, les participants ont dû réaliser des cycles d'extension-flexion du coude avec l'épaule à différents degrés d'abduction (30° ; 60° ; 80° ; 90° ; 120° si possible). Seuls les essais à 60° et 120° ont été traités pour le short report.

Les principaux résultats sont que deux synergies peuvent expliquer plus de 80% de la variance totale des signaux EMG : une synergie d'extension et une synergie de flexion. Le patient avec un transfert du biceps arrive à dissocier l'activation musculaire du biceps (néo-triceps) de celles du brachialis et du brachioradialis après sa chirurgie pour réaliser une extension du coude. Le patient avec un transfert du deltoïde postérieur arrive bien à recruter son deltoïde postérieur en extension du coude, cependant il apparaît une forte cocontraction des trois chefs du deltoïde qui n'était pas présente pré-op et qui n'existe pas chez le participant sain ou le participant avec un transfert du biceps.

Cet article montre que les activations musculaires sont réorganisées après une chirurgie de réanimation de l'extension du coude. Le patient avec un transfert du biceps a une organisation musculaire proche de celle du participant sain, alors que le patient avec un transfert du deltoïde présente une simplification du contrôle moteur avec une cocontraction des chefs du deltoïde.

Les limites de ce short report portent sur les points suivants :

- Ce short report porte seulement sur deux patients, qui ont un profil de tétraplégie très différent. Ainsi, les résultats ne doivent pas être généralisés à une population de patients avec une tétraplégie programmés pour une chirurgie de réanimation de l'extension du coude.
- L'analyse des synergies musculaires ne doit pas être utilisée comme une évaluation de l'efficacité de la chirurgie, qui dépend de nombreux autres facteurs cliniques. L'objectif était de mieux comprendre l'organisation des activations musculaires après la chirurgie.

- La méthodologie de traitement du signal EMG utilisée impacte les résultats de calcul des synergies musculaires [107] : filtrage, normalisation temporelle, nombre de muscles enregistrés, nombre de cycles de mouvement. Cependant, les mêmes conditions méthodologiques ont été utilisées pour les trois participants.

La perspective de ce projet est de suivre l'organisation des activations musculaires tout au long de la rééducation post chirurgicale. Au long terme, la rééducation pourrait être optimisée en fonction des progrès effectués par les patients tous les mois.

Cet article a été publié comme Lettre à l'éditeur dans *Annals of Physical and Rehabilitation Medicine* [104]. Il est situé en Annexe de cette thèse.

Perspective d'application des synergies musculaires :

Dans le cadre des protocoles réalisés pour cette thèse chez les enfants avec une paralysie cérébrale et à DT, les muscles deltoïde (trois chefs) et trapèze ont également été mesurés, mais n'ont pas été traités jusqu'à maintenant. Il serait intéressant d'ajouter ces signaux (et de calculer leur variabilité avec la même méthode que celle présentée dans cette thèse au préalable), et d'analyser les synergies musculaires au membre supérieur, lors des mouvements analytiques de flexion/extension et de pronation/supination mais également au cours du mouvement mesuré (mais non encore traité) de « main à la bouche », qui requiert à la fois des mouvements du coude et de l'épaule [77]. Cette analyse permettrait de mettre en évidence la présence de co-activations pathologiques extrasegmentaires, c'est-à-dire des activations involontaires prolongées de muscles en parallèle à l'activation volontaire d'un autre muscle, à l'origine des mouvements syncinétiques.

8.2. PERSPECTIVES CLINIQUES

8.2.1. DETECTION DES EVOLUTIONS DE COMMANDE DU MEMBRE SUPERIEUR APRES LA THERAPIE MOTRICE INDUITE PAR LA CONTRAINTE CHEZ L'ENFANT PARALYSE CEREBRAL

La méthode développée dans les chapitres précédents permet de détecter des évolutions d'activation musculaire au membre supérieur de l'enfant avec une PCUS de manière fiable. Une étude de cas a déjà été réalisée pour un enfant avec une PCUS ayant eu des injections de toxine botulique dans l'article 3 [66]. En mars 2017, en parallèle aux études présentées ci-dessus, une étude a été lancée pour recruter les enfants participant au programme de la **thérapie motrice induite par la contrainte**. Cette étude a été financée par la Fondation Paralysie Cérébrale. Les inclusions sont toujours en cours, les résultats préliminaires sont présentés ci-dessous.

8.2.1.1. INTRODUCTION

Pour compenser les déficiences des fonctions de motricité globale et fine de leur bras atteint, les enfants avec une PCUS sur-sollicitent leur bras controlatéral dans leurs activités quotidiennes, jusqu'à négliger leur bras atteint [108], [109]. Pour éviter cette sous-utilisation du bras atteint et pour améliorer son contrôle moteur, la thérapie motrice induite par la contrainte (TMIC) impose à l'enfant de n'utiliser que son bras atteint, en contraignant le bras controlatéral dans une attelle d'immobilisation, et ce, plusieurs heures par jour pendant plusieurs semaines de travail intensif des capacités motrices [108], [110]. Couramment, l'évaluation de l'effet de la TMIC se fait à l'aide de tests et d'échelles cliniques, qui décrivent une amélioration fonctionnelle globale [108], [111], [112]. Une étude récente [113] évalue l'évolution de l'activation musculaire d'enfants ayant suivi une TMIC. Cette étude montre que la TMIC permet de renforcer le recrutement musculaire et la coordination du bras atteint. De telles améliorations impliquent que la TMIC a un effet sur les troubles du contrôle moteur sous-jacents.

Cependant, les répercussions de ces modifications sur la commande musculaire sont encore méconnues.

Mesurer l'évolution des activations musculaires en mouvements actifs permet de vérifier sur quels aspects cette thérapie agit. De plus, un couplage de la TMIC avec des injections de toxine pourrait être envisagé, dans l'objectif de maximiser son efficacité.

L'objectif de cette étude est donc de mesurer les évolutions d'activation musculaire chez des enfants avec une PCUS après une thérapie motrice induite par la contrainte.

8.2.1.2. METHODE

8.2.1.2.1. POPULATION

Les enfants avec une PCUS participant au programme de la TMIC de l'Etablissement de Santé pour Enfants et Adolescents de la région Nantaise (ESEAN-APF, Nantes, France) sont recrutés. L'ESEAN organise 2 sessions de TMIC par année (vacances de Toussaint et Pâques).

Le recrutement est en cours, pour l'instant 8 enfants ont été recrutés (Tableau 4).

Les critères d'exclusion de cette thérapie sont la présence d'antécédents psychiatriques, de troubles cognitifs sévères et de troubles importants de la sensibilité superficielle et profonde.

Tableau 4. Enfants participant à la TMIC recrutés dans le protocole.

Sujet	Groupe de TMIC	Age	Objectifs de la thérapie	Toxines parallèles à la TMIC	AHA-unit logit based 0-100 Pré TMIC
1	1	12	Nettoyer ses lunettes, couper de la viande dure, faire ses lacets	Pronator teres et adducteur du pouce	38
2	1	12,8	Manipulation des outils scolaires, couper la viande, boutonner le pantalon.	Brachialis, flexor carpi radialis, flexor carpi ulnaris, pronator teres, biceps brachii	53
3	1	10,5	Se démêler les cheveux, couper de la viande dure, faire ses lacets.	//	67
4	1	11	Porter un plateau, couper sa viande, tenir son pot de yaourt.	//	65
5	2	9,1	Se coiffer, couper sa viande, mettre du vernis.	//	62
6	3	8,4	Couper sa viande, appuyer sur le flacon pompe du savon, mettre des boutons.	Brachialis et pronator teres	55
7	3	8,6	Couper la viande, mettre ses boutons, porter un plateau.	//	77
8	3	10,6	Meilleure intégration de la main gauche dans les activités.	//	75

8.2.1.2.2. DEROULEMENT DE LA TMIC

La TMIC dure 3 semaines, soit 2 semaines en contrainte et 1 semaine en activités bimanuelles, de la même manière que l'étude [114]. Le bras controlatéral des enfants participants est contraint 6h par jour en hospitalisation de jour (les jours ouvrés), et 2h par jour au domicile les jours où l'enfant n'est pas hospitalisé. L'immobilisation utilisée est une orthèse placée en position intermédiaire d'extension du poignet et en position d'ouverture de la main (Figure 31).



Figure 31. Enfant participant à la TMIC avec son orthèse d'immobilisation du membre controlatéral.

Au cours de la TMIC, diverses activités ludiques sont organisées : atelier arts plastiques, atelier cuisine, expression corporelle, jeux de société, expression musicale. A ces activités sont ajoutés des ateliers de motricité fine et globale.

8.2.1.2.3. EVALUATION PRE/POST TMIC

Les tests cliniques et l'analyse des mouvements du membre supérieur des enfants sont réalisés dans le mois précédant la thérapie, dans le mois suivant, et 6 mois après [111].

Concernant le bilan clinique et fonctionnel de l'enfant et de son bras atteint, la capacité manuelle est évaluée grâce à l'Assisting Hand Assessment (AHA), au Children's Hand-use Experience Questionnaire (CHEQ), et aux tests « box and blocks » et « Purdue Pegboard », couramment utilisés pour évaluer l'effet de la TMIC [111]. Un ergothérapeute mesure le tonus musculaire à l'aide de la Modified Ashworth Scale (MAS), la force musculaire, ainsi que les amplitudes articulaires passives.

L'analyse des mouvements du membre supérieur se déroule de la même manière que les autres études réalisées dans le cadre de cette thèse.

8.2.1.3. RESULTATS

Les résultats préliminaires ne traitent que des résultats cliniques de l'AHA, de la cinématique et de l'activation musculaire pendant les mouvements de flexion/extension et de pronosupination du coude à 0.50Hz, et ce, seulement pour le post thérapie à court terme (dans le mois suivant la thérapie).

L'AHA est une évaluation clinique partant du principe que les deux mains jouent des rôles différents : une main assistante efficace, n'a pas nécessairement besoin d'être aussi rapide et précise qu'une main dominante pour rendre les activités bimanuelles possibles. La main atteinte est considérée comme main assistante avec un rôle de soutien, de stabilisation, de maintien et non comme main non dominante. L'AHA est un outil d'évaluation développé par une équipe suédoise [115]. Cette échelle permet de mesurer l'efficacité avec laquelle les enfants souffrant d'une atteinte unilatérale utilisent leur main assistante dans des situations de jeu requérant des activités bimanuelles, au travers de 22 items. Chaque item est coté d'après des critères spécifiques sur une échelle allant de 1 à 4 ; la cotation s'effectue d'après l'enregistrement vidéo de la séance (Figure 32). L'AHA est un test standardisé dont la validité, reproductibilité et sensibilité ont été prouvées pour les enfants âgés de 18 mois à 12 ans.



Figure 32. Evaluation de l'AHA chez une enfant avec une PCUS à l'ESEAN

L'unité recommandée pour analyser la AHA est la « Interval level measure in unit logits based 0-100 » ou AHA-unit [116]. Il a été montré qu'une différence de score AHA d'au moins 5 AHA-units (logit based) est cliniquement significative [116], [117].

La cinématique et les activations musculaires pendant les mouvements de flexion/extension et de pronosupination du coude à 0.50Hz ont été comparées grâce à la méthodologie développée dans l'article 3 [66]. De manière similaire à l'article 4 [soumis], le seuil cliniquement significatif choisi pour la détection de différences d'activation musculaire ou de cinématique est une différence significative ($p < 0.05$) pendant au moins 3% consécutifs du cycle de mouvement.

Les résultats préliminaires sont rassemblés dans le Tableau 5.

Tableau 5. Résultats préliminaires post TMIC. En rouge : différences cliniquement significatives. AHA-assisting hand assessment; AROM-active range of motion ; CA-coactivation; DT-développement typique ; EMG-electromyographie ; FE-flexion/extension ; PS-pronopination; PQ-carré pronateur; PT-rond pronateur; TMIC-thérapie motrice induite par la contrainte.

Sujet	Toxines pré-thérapie	AHA-unit logit based 0-100		<i>Première ligne: Caractérisation de l'enfant par rapport au groupe DT</i> Deuxième ligne: Différence pré/post TMIC pour chaque enfant			
		Pré	Post	Cinématique mouvement FE	EMG mouvement FE	Cinématique mouvement PS	EMG mouvement PS
1	PT et adducteur du pouce	38	44	Déficit extension //	// //	NA (pas de PS)	NA (pas de PS)
2	Brachialis, flexor carpi radialis/ulnaris, PT, biceps	53	64	Déficit extension //	// //	NA (pas de PS)	NA (pas de PS)
3	//	67	92	// //	// //	Déficit supination //	// //
4	//	65	82	Déficit d'extension et de flexion Gain de flexion	// //	Déficit pronation et supination //	CA PT & PQ //
5	//	62	67	Déficit d'extension //	// //	Déficit supination Légère diminution pronation	CA PT & PQ //
6	Brachialis et PT	55	62	Déficit d'extension et de flexion Gain de flexion	// //	Déficit supination Légère diminution pronation	CA PT & PQ //
7	//	77	79	Déficit d'extension et de flexion Gain de flexion	// //	Déficit pronation //	// //
8	//	75	79	Déficit d'extension //	// //	Déficit pronation et supination Diminution pronation	CA PT & PQ //

8.2.1.4. DISCUSSION

8.2.1.4.1. SPONTANÉITÉ D'UTILISATION DU BRAS ATTEINT

6 enfants sur les 8 recrutés ont une amélioration significative de leur AHA après la TMIC (enfants 1, 2, 3, 4, 5, 6), dont 3 ayant eu en parallèle à la TMIC des injections de toxine botulique (cependant avec une efficacité questionnée ci-dessous).

Dans l'étude [114] utilisant la même méthodologie de thérapie (2 semaines de TMIC et une semaine d'activités bimanuelles à hauteur de 6h par jour), aucune différence de gain en dextérité manuelle, évaluée avec le test de Jebsen-Taylor adapté ([118], [119]), n'a été trouvée entre le groupe ayant suivi la TMIC et un groupe ayant continué leur rééducation « classique ». La AHA n'a pas été mesurée dans cette étude.

Une étude à la méthodologie similaire, cependant sur une durée deux fois plus longue (6 semaines de TMIC et 2 semaines de bimanuel) et à intensité deux fois plus faible (3h par jour), a évalué une augmentation de la AHA à un mois de la thérapie de 53.3 (SD 14.6) à 60.1 (SD 15.3) [120]. Cette étude mesure donc un gain de AHA de 6.8 (SD 8.2) au court terme après la TMIC, et nous mesurons un gain de AHA de 9.6 (SD 7.8). Nous avons donc des résultats légèrement supérieurs à l'étude [120]. Cette étude a également pu comparer avec un groupe contrôle qui a conservé sa rééducation « classique », et qui est passé de 50.6 (SD 22.5) à 53.1 (SD 22.2), sans donc augmentation cliniquement significative de la AHA. La TMIC a donc un impact sur la performance bimanuelle telle que mesurée par la AHA.

8.2.1.4.2. CINÉMATIQUE

Les 3 enfants qui présentaient un déficit de flexion du coude ont présenté un gain d'amplitude active de flexion après la TMIC. Aucun des 7 enfants qui présentaient un déficit d'extension du coude n'ont présenté de gain d'amplitude active d'extension après la TMIC. Aucun des 7 enfants qui présentaient un déficit de supination du coude n'ont présenté de gain d'amplitude active de supination après la TMIC. Parmi les 5 enfants qui présentaient un déficit de pronation du coude, un enfant a diminué son amplitude active de pronation après la TMIC.

Ces résultats ne sont pas directement comparables à ceux des études [114], [120], qui n'ont pas effectué de mesure de cinématique. Cependant, l'étude [120] a mesuré le Melbourne Assessment of Unilateral Upper Limb Function [121], qui donne une mesure de la fonction du membre supérieur atteint. Ils ont mesuré une évolution de 63.9 (SD 12.6) à 68.8 (SD 11.6), soit une augmentation de 5.0 (SD 7.6) versus 1.4 (SD 6.2) pour le groupe contrôle. Or, une augmentation cliniquement significative du Melbourne est à

partir de 9.9 [122], donc l'augmentation mesurée n'est pas cliniquement significative. La TMIC, telle que réalisée ici, ne semble pas agir directement sur la fonction motrice du membre atteint. La seule différence significative reportée est une augmentation de l'amplitude active de flexion chez les 3 enfants qui présentaient un déficit de flexion. On peut supposer que les exercices proposés lors de la thérapie présentent un aspect de renforcement musculaire des muscles fléchisseurs (ou bien que ces muscles se renforcent plus naturellement lorsque l'on augmente la quantité d'activité physique).

8.2.1.4.3. ACTIVATION MUSCULAIRE

Aucune différence significative d'activation musculaire n'a été mesurée chez ces 8 enfants, même dans les muscles toxinés (au total 6 muscles toxinés mesurés par sEMG chez 3 enfants, dont un détecté comme co-activant spastique). Cette absence de différence d'activation musculaire suggère que les toxines n'aient pas été efficaces ou en dose insuffisante pour diminuer l'activation musculaire.

8.2.1.4.4. CIBLE DES TOXINES BOTULIQUES

Les enfants 2 et 6 injectés aux fléchisseurs du coude présentaient bien un déficit d'extension active, mais sans co-activation spastique des fléchisseurs associée. On peut penser que même si la dose avait été plus grande, l'amplitude active d'extension n'aurait pas été améliorée.

L'enfant 6 injecté au rond pronateur présentait bien un déficit de supination active, liée à une co-activation spastique des deux pronateurs. On suppose qu'il aurait été plus efficace de cibler les deux pronateurs pour améliorer son amplitude de supination active.

Les enfants 4, 5, et 8 présentent un déficit de supination active liée à une co-activation spastique des deux pronateurs. On suppose qu'ils auraient pu profiter d'injections de toxine botulique dans les pronateurs en parallèle à la thérapie afin d'augmenter son efficacité.

8.2.1.5. CONCLUSION

D'après nos résultats préliminaires, la thérapie motrice induite par la contrainte semble agir sur la spontanéité d'utilisation du bras atteint, mais pas directement sur ses capacités motrices. La thérapie agit différemment selon chaque enfant, et il serait intéressant d'aller voir le profil des enfants répondant le mieux. Selon les enfants et leurs limitations au membre supérieur, il serait intéressant de développer

spécifiquement des exercices avec pour objectif le renforcement musculaire des muscles agonistes aux mouvements déficitaires (triceps pour l'extension ; biceps et supinateur pour la supination). En lien avec cette problématique, le protocole utilisé ici est pertinent pour cibler les muscles pouvant être toxinés en parallèle à la TMIC afin de profiter d'une activation antagoniste diminuée pour renforcer les muscles agonistes.

Cette étude est en cours et les résultats ne sont encore que préliminaires, cependant la méthode développée dans le chapitre précédent de détection et caractérisation des évolutions d'activation musculaire d'enfants avec une PCUS peut bien être mise en application dans un contexte clinique.

8.2.2. DETECTION DES EVOLUTIONS DE COMMANDE DU MEMBRE SUPERIEUR APRES INJECTIONS DE TOXINE BOTULIQUE CHEZ L'ENFANT PARALYSE CEREBRAL

Les résultats des études précédentes montrent que :

- L'identification de la combinaison des muscles hyperactifs en mouvement actif par sEMG pour chaque enfant avec une PCUS est essentielle, pour être certain de réduire les activations musculaires des muscles hyperactifs pour améliorer les mouvements actifs de l'enfant.
- Les injections de toxine botulique ne sont pas toujours efficaces à diminuer l'activation musculaire (cf paragraphe sur la thérapie motrice induite par la contrainte). Une des raisons est que la quantité de toxine botulique injectée dans le membre supérieur est limitée, pour des questions de toxicité du produit. Or, si plusieurs muscles sont injectés, la quantité de toxine dans chaque muscle sera plus faible que si peu de muscles le sont. Injecter des muscles qui ne sont pas hyperactifs a donc deux conséquences : une conséquence fonctionnelle, puisque le seuil de toxine injectable dans les muscles réellement hyperactifs sera plus bas, mais aussi économique, puisque la toxine botulique a un coût important.

Ainsi, il est envisagé de mettre en place une étude multicentrique, dont l'objectif est de quantifier l'apport d'un ciblage par sEMG des pronateurs injectés de toxine botulique, pour les enfants avec une PCUS présentant un déficit de supination active. Le ciblage par sEMG sera comparé aux méthodes traditionnelles de choix du ou des pronateurs injectés (souvent très dépendantes du médecin ou chirurgien responsable des injections). Le protocole de cette étude a été rédigé, mais aucune démarche éthique n'a encore été lancée.

Objectif 1 : Est-ce que l'amélioration de supination active est globalement plus importante dans le groupe d'enfants injectés avec ciblage par sEMG versus sans ciblage par sEMG ?

Objectif 2 : Quantifier le nombre de muscles :

- Qui ont été ou auraient été injectés sans justification d'hyperactivité musculaire.
- Qui n'ont pas été ou n'auraient pas été injectés alors qu'hyperactifs.

Objectif 3 : Tous les muscles toxinés présentent-ils une diminution d'activation musculaire ?

Méthode :

Les enfants avec une PCUS et un déficit d'amplitude de supination active, pour qui des injections de toxine botulique à un ou deux pronateurs sont prévues seront recrutés dans cette étude.

Cette évaluation se fera directement pendant la consultation de toxine de l'enfant.

Afin de pouvoir être exporté dans plusieurs centres de rééducation et hôpitaux, un simple appareil d'sEMG vidéo sera utilisé pour cette étude, composé d'au minimum 3 électrodes sEMG.

1. Les amplitudes actives de supination et de pronation seront mesurées par goniométrie.
2. La force musculaire de pronation/supination/flexion sera évaluée cliniquement sur 5.
3. La spasticité des pronateurs sera évaluée par l'échelle d'Ashworth modifiée ou l'échelle de Tardieu (à définir selon habitudes des centres participants).
4. Les enfants seront équipés des électrodes sEMG sur leur biceps/rond pronateur/carré pronateur et réaliseront des cycles de flexion/extension du coude et de pronosupination du coude à 0.50Hz.

Une méthode automatique de traitement du signal sera mise en place afin de réduire le temps de traitement des données à une dizaine de minutes.

Chaque enfant sera randomisé dans un groupe « avec ciblage par sEMG » ou « sans ciblage par sEMG ».

« avec ciblage par sEMG » : les résultats d'hyperactivité du ou des pronateurs seront donnés au médecin ou chirurgien en charge de la consultation de toxine. Seul(s) le(s) pronateur(s) hyperactif(s) sera/seront toxiné(s). Si aucun pronateur ne ressort hyperactif, l'enfant ne sera pas toxiné.

« sans ciblage par sEMG » : les résultats d'hyperactivité du ou des pronateurs ne sont pas donnés au médecin ou chirurgien en charge de la consultation de toxine. Celui-ci toxine l'enfant selon sa pratique habituelle.

L'évaluation (les points 1 à 4) est effectuée de nouveau pendant la période d'efficacité des toxines de chaque enfant (période à définir : 2 mois post ?).

Résultats attendus :

- L'amélioration de supination active est égale ou plus importante dans le groupe d'enfants injectés avec ciblage par sEMG versus sans ciblage par sEMG. Le cas où l'amélioration pourrait être égale est si tous les médecins ou chirurgiens participant à l'étude toxinent habituellement les deux pronateurs.
- Le ciblage par sEMG diminue le nombre de muscles inutilement toxinés, et donc diminue les risques pour l'enfant et le coût des injections.

Les résultats de cette étude permettront d'optimiser la pratique clinique d'injections de toxine botulique au membre supérieur à l'aide d'une méthodologie simple et rapide à mettre en place.

9. CONCLUSION GENERALE

Cette thèse avait pour objectif de **développer un protocole** d'analyse de l'activation et de la co-activation musculaire lors de mouvements du coude de l'enfant avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique **pouvant être utilisé dans des applications de recherche et de clinique.**

Dans un premier temps, les anomalies de commande musculaire au membre supérieur ont été caractérisées chez un groupe d'enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique, puis chez chaque enfant avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique.

Le développement du protocole a nécessité des choix méthodologiques pour l'expérimentation (choix des mouvements, des muscles mesurés, de la vitesse des mouvements), pour le traitement du signal EMG (filtrage, normalisation, paramètre extrait pour l'analyse), et pour le calcul statistique (détection des différences entre signaux EMG). Plusieurs méthodes de traitement du signal EMG et de calcul statistique ont été comparées afin de conserver seulement les méthodes les plus reproductibles, et les plus adaptées à la problématique clinique.

Au niveau du protocole, celui utilisé consiste en un examen d'une heure, applicable dans un contexte clinique et pour des niveaux d'atteinte du membre supérieur variés. Cependant, ce protocole peut être compliqué à appliquer en cas de troubles de l'attention des enfants. Il est nécessaire d'ajouter ce protocole à l'arsenal d'évaluation clinique déjà existant : sélectivité motrice, parésie, rétractions, spasticité. On pourrait envisager de développer le même type d'évaluation que celle développée par Professeur Graciès (« Five Step Clinical Assessment in Spastic Paresis » [123]) au membre supérieur des enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique. Une des limites de ce protocole est de ne pas avoir accès aux muscles profonds, on pense notamment au muscle supinateur.

Au niveau du traitement des données, le temps de traitement a été abaissé à une heure à l'aide de méthodes d'automatisation du traitement. Cependant, un œil expert est toujours nécessaire pour le traitement des signaux EMG, notamment pour le seuil d'activation musculaire et le découpage des cycles de mouvement.

Au niveau de l'interprétation des données, ce protocole a montré sa reproductibilité, sa capacité à détecter l'hyperactivité musculaire ainsi qu'à mesurer un changement d'activation musculaire. Cependant, il faut bien garder à l'esprit que les résultats de détection d'hyperactivité musculaire dépendent du seuil de détection choisi.

Les perspectives cliniques de ce projet sont d'implémenter ce protocole hors laboratoire d'analyse du mouvement. En effet, ce travail a mis en évidence des situations dans lesquelles l'EMG du membre supérieur pouvait être réellement utile au clinicien, en fournissant un diagnostic fonctionnel de son hyperactivité musculaire en mouvement actif. Il serait intéressant de réduire les temps de traitement des signaux EMG et de mettre en place une interface portable et intuitive simple utilisable en routine clinique. Se pose la question de la mesure de la cinématique, le système de motion capture étant dépendant du système de caméras non mobiles. Pourrions-nous utiliser un modèle cinématique simplifié ? Seulement de l'EMG vidéo couplé à des mesures goniométriques ?

Les perspectives de recherche clinique de ce projet se situent autour des thérapies et des traitements de l'hyperactivité musculaire utilisés quotidiennement : toxines botuliques, neurotomie, bloc moteur.

Les perspectives de recherche scientifique de ce projet sont d'associer la mesure de l'activation musculaire par électromyographie de surface avec d'autres techniques d'imagerie médicale dynamique non invasives, par exemple la technique d'élastographie Supersonic Shear Imaging [124], [125], permettant de mesurer la raideur musculaire, ou l'IRM dynamique [126], permettant d'accéder à la commande neurologique de l'enfant.

L'EMG du membre supérieur appliqué au handicap moteur est très peu utilisé, même au sein de laboratoires d'analyse du mouvement. Pourtant, il s'agit d'un outil indispensable, offrant une aide à la décision thérapeutique individualisée, et une meilleure compréhension du système musculosquelettique, pour peu que du temps soit consacré à déblayer la méthodologie autour de son utilisation. Cette thèse a débuté ce travail conséquent, avec l'espoir de réveiller l'intérêt envers cet outil.

REFERENCES

- [1] Fondation Paralysie Cérébrale, "La paralysie cérébrale," 2018. [Online]. Available: <https://www.fondationparalysiecerebrale.org>. [Accessed: 16-Jul-2018].
- [2] P. Rosenbaum *et al.*, "A report: the definition and classification of cerebral palsy April 2006.," *Dev. Med. Child Neurol. Suppl.*, vol. 109, pp. 8–14, Feb. 2007.
- [3] M. Bax *et al.*, "Proposed definition and classification of cerebral palsy, April 2005.," *Dev. Med. Child Neurol.*, vol. 47, no. 8, pp. 571–6, Aug. 2005.
- [4] "Prevalence and characteristics of children with cerebral palsy in Europe.," *Dev. Med. Child Neurol.*, vol. 44, no. 9, pp. 633–40, Sep. 2002.
- [5] J.-M. Gracies, "Pathophysiology of spastic paresis. II: Emergence of muscle overactivity.," *Muscle Nerve*, vol. 31, no. 5, pp. 552–71, May 2005.
- [6] P. Aagaard, E. B. Simonsen, J. L. Andersen, S. P. Magnusson, F. Bojsen-Møller, and P. Dyhre-Poulsen, "Antagonist muscle coactivation during isokinetic knee extension.," *Scand. J. Med. Sci. Sports*, vol. 10, no. 2, pp. 58–67, Apr. 2000.
- [7] M. F. Levin and M. Dimov, "Spatial zones for muscle coactivation and the control of postural stability.," *Brain Res.*, vol. 757, no. 1, pp. 43–59, May 1997.
- [8] A. M. Smith, "The coactivation of antagonist muscles.," *Can. J. Physiol. Pharmacol.*, vol. 59, no. 7, pp. 733–47, Jul. 1981.
- [9] P. L. Gribble, L. I. Mullin, N. Cothros, and A. Mattar, "Role of Cocontraction in Arm Movement Accuracy," *J. Neurophysiol.*, vol. 89, no. 5, pp. 2396–2405, May 2003.
- [10] J. Nielsen, M. Nagaoka, Y. Kagamihara, N. Kakuda, and R. Tanaka, "Discharge of muscle afferents during voluntary co-contraction of antagonistic ankle muscles in man.," *Neurosci. Lett.*, vol. 170, no. 2, pp. 277–80, Apr. 1994.
- [11] V. B. Unnithan, J. J. Dowling, G. Frost, B. Volpe Ayub, and O. Bar-Or, "Cocontraction and phasic activity during GAIT in children with cerebral palsy.," *Electromyogr. Clin. Neurophysiol.*, vol. 36, no. 8, pp. 487–94, Dec. 1996.
- [12] A. J. Ikeda, M. F. Abel, K. P. Granata, and D. L. Damiano, "Quantification of cocontraction in spastic cerebral palsy.," *Electromyogr. Clin. Neurophysiol.*, vol. 38, no. 8, pp. 497–504, Dec. 1998.

- [13] D. L. Damiano, T. L. Martellotta, D. J. Sullivan, K. P. Granata, and M. F. Abel, "Muscle force production and functional performance in spastic cerebral palsy: relationship of cocontraction.," *Arch. Phys. Med. Rehabil.*, vol. 81, no. 7, pp. 895–900, Jul. 2000.
- [14] R. Gross, F. Leboeuf, J. B. Hardouin, B. Perrouin-Verbe, S. Brochard, and O. Rémy-Néris, "Does muscle coactivation influence joint excursions during gait in children with and without hemiplegic cerebral palsy? Relationship between muscle coactivation and joint kinematics.," *Clin. Biomech. (Bristol, Avon)*, Sep. 2015.
- [15] R. Gross *et al.*, "The influence of gait speed on co-activation in unilateral spastic cerebral palsy children," *Clin. Biomech.*, vol. 28, no. 3, pp. 312–317, Mar. 2013.
- [16] J.-M. Gracies *et al.*, "Safety and efficacy of abobotulinumtoxinA for hemiparesis in adults with upper limb spasticity after stroke or traumatic brain injury: a double-blind randomised controlled trial," *Lancet Neurol.*, vol. 14, no. 10, pp. 992–1001, Oct. 2015.
- [17] R. W. Bohannon and M. B. Smith, "Interrater reliability of a modified Ashworth scale of muscle spasticity.," *Phys. Ther.*, vol. 67, no. 2, pp. 206–7, Feb. 1987.
- [18] R. N. Boyd and H. K. Graham, "Objective measurement of clinical findings in the use of botulinum toxin type A for the management of children with cerebral palsy," *Eur. J. Neurol.*, vol. 6, pp. s23–s35, Nov. 1999.
- [19] S. Levitt, *Treatment of Cerebral Palsy and Motor Delay*, 5th ed. Chichester, UK: Wiley-Blackwell, 2010.
- [20] A. Shamsoddini, S. Amirsalari, M.-T. Hollisaz, A. Rahimnia, and A. Khatibi-Aghda, "Management of spasticity in children with cerebral palsy.," *Iran. J. Pediatr.*, vol. 24, no. 4, pp. 345–51, Aug. 2014.
- [21] J. Perry and M. M. Hoffer, "Preoperative and postoperative dynamic electromyography as an aid in planning tendon transfers in children with cerebral palsy.," *J. Bone Joint Surg. Am.*, vol. 59, no. 4, pp. 531–7, Jun. 1977.
- [22] S. Armand, G. Decoulon, and A. Bonnefoy-Mazure, "Gait analysis in children with cerebral palsy," *EFORT Open Rev.*, vol. 1, no. 12, pp. 448–460, Dec. 2016.
- [23] B. Steenbergen and A. M. Gordon, "Activity limitation in hemiplegic cerebral palsy: evidence for disorders in motor planning," *Dev. Med. Child Neurol.*, vol. 48, no. 09, p. 780, Sep. 2006.
- [24] B. Steenbergen, E. van Thiel, W. Hulstijn, and R. G. J. Meulenbroek, "The coordination of reaching and grasping in spastic hemiparesis," *Hum. Mov. Sci.*, vol. 19, no. 1, pp. 75–105, May 2000.

- [25] M. Kreulen, M. J. C. Smeulders, H. E. J. Veeger, and J. J. Hage, "Movement patterns of the upper extremity and trunk associated with impaired forearm rotation in patients with hemiplegic cerebral palsy compared to healthy controls," *Gait Posture*, vol. 25, no. 3, pp. 485–492, Mar. 2007.
- [26] M. de Bruin, H. E. J. Veeger, M. Kreulen, M. J. C. Smeulders, and S. A. Bus, "Biceps brachii can add to performance of tasks requiring supination in cerebral palsy patients.," *J. Electromyogr. Kinesiol.*, vol. 23, no. 2, pp. 516–22, Apr. 2013.
- [27] R. L. (Richard L. Drake *et al.*, *Gray's anatomie pour les étudiants*. Elsevier Masson, 2006.
- [28] B. Reichert and W. Stelzenmueller, *Palpation techniques : surface anatomy for physical therapists*. Thieme, 2011.
- [29] E. Criswell and J. R. Cram, *Cram's introduction to surface electromyography*. Jones and Bartlett, 2011.
- [30] H. J. Hermens, B. Freriks, C. Disselhorst-Klug, and G. Rau, "Development of recommendations for SEMG sensors and sensor placement procedures.," *J. Electromyogr. Kinesiol.*, vol. 10, no. 5, pp. 361–74, Oct. 2000.
- [31] M. C. O'Sullivan *et al.*, "Abnormal development of biceps brachii phasic stretch reflex and persistence of short latency heteronymous reflexes from biceps to triceps brachii in spastic cerebral palsy.," *Brain*, vol. 121 (Pt 12), pp. 2381–95, Dec. 1998.
- [32] A. Jobin and M. F. Levin, "Regulation of stretch reflex threshold in elbow flexors in children with cerebral palsy: a new measure of spasticity.," *Dev. Med. Child Neurol.*, vol. 42, no. 8, pp. 531–40, Aug. 2000.
- [33] M. Germanotta *et al.*, "Spasticity Measurement Based on Tonic Stretch Reflex Threshold in Children with Cerebral Palsy Using the PediAnklebot," *Front. Hum. Neurosci.*, vol. 11, p. 277, May 2017.
- [34] S.-H. Schless, K. Desloovere, E. Aertbeliën, G. Molenaers, C. Huenaerts, and L. Bar-On, "The Intra- and Inter-Rater Reliability of an Instrumented Spasticity Assessment in Children with Cerebral Palsy," *PLoS One*, vol. 10, no. 7, p. e0131011, Jul. 2015.
- [35] H. S. Milner-Brown and R. D. Penn, "Pathophysiological mechanisms in cerebral palsy.," *J. Neurol. Neurosurg. Psychiatry*, vol. 42, no. 7, pp. 606–18, Jul. 1979.
- [36] M. M. Hoffer, J. Perry, and G. J. Melkonian, "Dynamic electromyography and decision-making for surgery in the upper extremity of patients with cerebral palsy.," *J. Hand Surg. Am.*, vol. 4, no. 5, pp.

424–31, Sep. 1979.

- [37] C. A. Mowery, R. H. Gelberman, and C. E. Rhoades, "Upper extremity tendon transfers in cerebral palsy: electromyographic and functional analysis.," *J. Pediatr. Orthop.*, vol. 5, no. 1, pp. 69–72.
- [38] O. M. Nwaobi, "Nondominant arm restraint and dominant arm function in a child with athetoid cerebral palsy: electromyographic and functional evaluation.," *Arch. Phys. Med. Rehabil.*, vol. 68, no. 12, pp. 837–9, Dec. 1987.
- [39] D. T. Reid and A. Sochaniwskyj, "Influences of a hand positioning device on upper-extremity control of children with cerebral palsy.," *Int. J. Rehabil. Res.*, vol. 15, no. 1, pp. 15–29, 1992.
- [40] M. L. Latash and R. D. Penn, "Changes in voluntary motor control induced by intrathecal baclofen in patients with spasticity of different etiology.," *Physiother. Res. Int.*, vol. 1, no. 4, pp. 229–46, 1996.
- [41] M. Hadders-Algra, I. B. van der Fits, E. F. Stremmelaar, and B. C. Touwen, "Development of postural adjustments during reaching in infants with CP.," *Dev. Med. Child Neurol.*, vol. 41, no. 11, pp. 766–76, Nov. 1999.
- [42] J. C. van der Heide *et al.*, "Postural control during reaching in preterm children with cerebral palsy.," *Dev. Med. Child Neurol.*, vol. 46, no. 4, pp. 253–66, Apr. 2004.
- [43] D. van Roon, B. Steenbergen, and R. G. J. Meulenbroek, "Trunk use and co-contraction in cerebral palsy as regulatory mechanisms for accuracy control.," *Neuropsychologia*, vol. 43, no. 4, pp. 497–508, Jan. 2005.
- [44] G. Schalow and P. Jaigma, "Cerebral palsy improvement achieved by coordination dynamics therapy.," *Electromyogr. Clin. Neurophysiol.*, vol. 45, no. 7–8, pp. 433–45, Dec. 2005.
- [45] D. G. Kamper, A. M. Yasukawa, K. M. Barrett, and D. J. Gaebler-Spira, "Effects of Neuromuscular Electrical Stimulation Treatment of Cerebral Palsy on Potential Impairment Mechanisms: A Pilot Study," *Pediatr. Phys. Ther.*, vol. 18, no. 1, pp. 31–38, 2006.
- [46] N. Malfait and T. D. Sanger, "Does dystonia always include co-contraction? A study of unconstrained reaching in children with primary and secondary dystonia," *Exp. Brain Res.*, vol. 176, no. 2, pp. 206–216, Jan. 2007.
- [47] M. Hadders-Algra, J. C. van der Heide, J. M. Fock, E. Stremmelaar, L. A. van Eykern, and B. Otten, "Effect of Seat Surface Inclination on Postural Control During Reaching in Preterm Children With Cerebral Palsy," *Phys. Ther.*, vol. 87, no. 7, pp. 861–871, Jul. 2007.

- [48] P. A. Burtner *et al.*, "Effect of Wrist Hand Splints on Grip, Pinch, Manual Dexterity, and Muscle Activation in Children with Spastic Hemiplegia: A Preliminary Study," *J. Hand Ther.*, vol. 21, no. 1, pp. 36–43, Jan. 2008.
- [49] M. G. Feltham, A. Ledebt, F. J. A. Deconinck, and G. J. P. Savelsbergh, "Assessment of neuromuscular activation of the upper limbs in children with spastic hemiparetic cerebral palsy during a dynamical task.," *J. Electromyogr. Kinesiol.*, vol. 20, no. 3, pp. 448–56, Jun. 2010.
- [50] S. Reid, P. Hamer, J. Alderson, and D. Lloyd, "Neuromuscular adaptations to eccentric strength training in children and adolescents with cerebral palsy," *Dev. Med. Child Neurol.*, vol. 52, no. 4, pp. 358–363, Apr. 2010.
- [51] M. G. Feltham, A. Ledebt, F. J. A. Deconinck, and G. J. P. Savelsbergh, "Mirror visual feedback induces lower neuromuscular activity in children with spastic hemiparetic cerebral palsy," *Res. Dev. Disabil.*, vol. 31, no. 6, pp. 1525–1535, Nov. 2010.
- [52] S. N. Kukke and T. D. Sanger, "Contributors to excess antagonist activity during movement in children with secondary dystonia due to cerebral palsy," *J. Neurophysiol.*, vol. 105, no. 5, pp. 2100–2107, May 2011.
- [53] S. M. Braendvik and K. Roeleveld, "The role of co-activation in strength and force modulation in the elbow of children with unilateral cerebral palsy.," *J. Electromyogr. Kinesiol.*, vol. 22, no. 1, pp. 137–44, Feb. 2012.
- [54] H.-Y. K. Cheng *et al.*, "The effect of lower body stabilization and different writing tools on writing biomechanics in children with cerebral palsy," *Res. Dev. Disabil.*, vol. 34, no. 4, pp. 1152–1159, Apr. 2013.
- [55] H.-C. Chiu, M. Halaki, and N. O'Dwyer, "Associated Reactions during a Visual Pursuit Position Tracking Task in Hemiplegic and Quadriplegic Cerebral Palsy," *Chin. J. Physiol.*, vol. 56, no. 2, pp. 117–26, Apr. 2013.
- [56] D. C. Rios *et al.*, "NeuroGame Therapy to improve wrist control in children with cerebral palsy: A case series," *Dev. Neurorehabil.*, vol. 16, no. 6, pp. 398–409, Dec. 2013.
- [57] J. W. Yoo, D. R. Lee, Y. J. Sim, J. H. You, and C. J. Kim, "Effects of innovative virtual reality game and EMG biofeedback on neuromotor control in cerebral palsy.," *Biomed. Mater. Eng.*, vol. 24, no. 6, pp. 3613–8, 2014.
- [58] R. C. F. Moura *et al.*, "Transcranial direct current stimulation combined with upper limb functional

training in children with spastic, hemiparetic cerebral palsy: study protocol for a randomized controlled trial,” *Trials*, vol. 17, no. 1, p. 405, Dec. 2016.

- [59] J. W. Yoo, D. R. Lee, Y. J. Cha, and S. H. You, “Augmented effects of EMG biofeedback interfaced with virtual reality on neuromuscular control and movement coordination during reaching in children with cerebral palsy,” *NeuroRehabilitation*, vol. 40, no. 2, pp. 175–185, Mar. 2017.
- [60] J. Charles, “Upper extremity muscle activation in children with unilateral cerebral palsy during an auditory cued repetitive task: Effects on bimanual coordination,” *J. Pediatr. Rehabil. Med.*, vol. 10, no. 1, pp. 19–26, Mar. 2017.
- [61] L. Tang, X. Chen, S. Cao, D. Wu, G. Zhao, and X. Zhang, “Assessment of Upper Limb Motor Dysfunction for Children with Cerebral Palsy Based on Muscle Synergy Analysis.,” *Front. Hum. Neurosci.*, vol. 11, p. 130, 2017.
- [62] K. P. Granata, D. A. Padua, and M. F. Abel, “Repeatability of surface EMG during gait in children.,” *Gait Posture*, vol. 22, no. 4, pp. 346–50, Dec. 2005.
- [63] O. Tirosh, M. Sangeux, M. Wong, P. Thomason, and H. K. Graham, “Walking speed effects on the lower limb electromyographic variability of healthy children aged 7–16 years,” *J. Electromyogr. Kinesiol.*, vol. 23, no. 6, pp. 1451–1459, Dec. 2013.
- [64] A. Sarcher, M. Raison, F. Leboeuf, B. Perrouin-Verbe, S. Brochard, and R. Gross, “Pathological and physiological muscle co-activation during active elbow extension in children with unilateral cerebral palsy,” *Clin. Neurophysiol.*, vol. 128, no. 1, pp. 4–13, 2017.
- [65] A. Sarcher *et al.*, “Impact of muscle activation on ranges of motion during active elbow movement in children with spastic hemiplegic cerebral palsy.,” *Clin. Biomech. (Bristol, Avon)*, vol. 30, no. 1, pp. 86–94, Jan. 2015.
- [66] A. Sarcher *et al.*, “Patterns of upper limb muscle activation in children with unilateral spastic cerebral palsy: Variability and detection of deviations,” *Clin. Biomech.*, vol. 59, pp. 85–93, Sep. 2018.
- [67] M. Laitenberger, M. Raison, D. Périé, and M. Begon, “Refinement of the upper limb joint kinematics and dynamics using a subject-specific closed-loop forearm model,” *Multibody Syst. Dyn.*, vol. 33, no. 4, pp. 413–438, 2015.
- [68] E. A. A. Rameckers, L. A. W. M. Speth, J. Duysens, J. S. H. Vles, and B. C. M. Smits-Engelsman, “Kinematic aiming task: measuring functional changes in hand and arm movements after botulinum

- toxin-A injections in children with spastic hemiplegia.," *Am. J. Phys. Med. Rehabil.*, vol. 86, no. 7, pp. 538–47, Jul. 2007.
- [69] E. A. A. Rameckers, J. Duysens, L. A. W. M. Speth, H. J. S. Vles, and B. C. M. Smits-Engelsman, "Effect of addition of botulinum toxin-A to standardized therapy for dynamic manual skills measured with kinematic aiming tasks in children with spastic hemiplegia.," *J. Rehabil. Med.*, vol. 42, no. 4, pp. 332–8, Apr. 2010.
- [70] M. Coluccini, E. S. Maini, C. Martelloni, G. Sgandurra, and G. Cioni, "Kinematic characterization of functional reach to grasp in normal and in motor disabled children.," *Gait Posture*, vol. 25, no. 4, pp. 493–501, Apr. 2007.
- [71] E. Jaspers, K. Desloovere, H. Bruyninckx, G. Molenaers, K. Klingels, and H. Feys, "Review of quantitative measurements of upper limb movements in hemiplegic cerebral palsy.," *Gait Posture*, vol. 30, no. 4, pp. 395–404, Nov. 2009.
- [72] E. Jaspers *et al.*, "Three-dimensional upper limb movement characteristics in children with hemiplegic cerebral palsy and typically developing children.," *Res. Dev. Disabil.*, vol. 32, no. 6, pp. 2283–94, 2011.
- [73] A. Utley and D. Sugden, "Interlimb coupling in children with hemiplegic cerebral palsy during reaching and grasping at speed.," *Dev. Med. Child Neurol.*, vol. 40, no. 6, pp. 396–404, Jun. 1998.
- [74] M. J. M. Volman, A. Wijnroks, and A. Vermeer, "Effect of task context on reaching performance in children with spastic hemiparesis.," *Clin. Rehabil.*, vol. 16, no. 6, pp. 684–692, Sep. 2002.
- [75] E. Van Thiel, R. G. Meulenbroek, W. Hulstijn, and B. Steenbergen, "Kinematics of fast hemiparetic aiming movements toward stationary and moving targets.," *Exp. Brain Res.*, vol. 132, no. 2, pp. 230–242, May 2000.
- [76] D. Bensmail, J. V. G. Robertson, C. Fermanian, and A. Roby-Brami, "Botulinum Toxin to Treat Upper-Limb Spasticity in Hemiparetic Patients: Analysis of Function and Kinematics of Reaching Movements," *Neurorehabil. Neural Repair*, vol. 24, no. 3, pp. 273–281, Mar. 2010.
- [77] F. Fitoussi, A. Diop, N. Maurel, E. M. Laassel, and G. F. Penneçot, "Kinematic analysis of the upper limb: a useful tool in children with cerebral palsy.," *J. Pediatr. Orthop. Part B*, vol. 15, no. 4, pp. 247–56, Jul. 2006.
- [78] D. Staudenmann and W. Taube, "Brachialis muscle activity can be assessed with surface electromyography," *J. Electromyogr. Kinesiol.*, vol. 25, no. 2, pp. 199–204, Apr. 2015.

- [79] J. V Basmajian, *Primary Anatomy*, 8th editio. Baltimore: Williams and Wilkins, 1982.
- [80] G. A. Malanga and D. I. Campagnolo, "Clarification of the pronator reflex.," *Am. J. Phys. Med. Rehabil.*, vol. 73, no. 5, pp. 338–40, 1994.
- [81] D. Remaley *et al.*, "Surface electromyography of the forearm musculature during the windmill softball pitch," *Orthop. J. Sport. Med.*, vol. 3, no. 1, pp. 1–8, Jan. 2015.
- [82] C. Detrembleur, P. Willems, and L. Plaghki, "Does walking speed influence the time pattern of muscle activation in normal children?," *Dev. Med. Child Neurol.*, vol. 39, no. 12, pp. 803–7, Dec. 1997.
- [83] A. Barre and S. Armand, "Biomechanical ToolKit: Open-source framework to visualize and process biomechanical data," *Comput. Methods Programs Biomed.*, vol. 114, no. 1, pp. 80–87, Apr. 2014.
- [84] T.-W. Lu and J. J. O'Connor, "Bone position estimation from skin marker co-ordinates using global optimisation with joint constraints," *J. Biomech.*, vol. 32, no. 2, pp. 129–134, Feb. 1999.
- [85] D. Winter, G. Rau, R. Kadefors, H. Broman, and C. J. De Luca, *Units, terms and standards in the reporting of EMG research*. [Goteborg Sweden]: I.S.E.K., 1980.
- [86] R. Merletti, "Standards for Reporting EMG Data," *J. Electromyogr. Kinesiol.*, vol. 9, no. 1, 1999.
- [87] H. J. Hermens *et al.*, *European recommendations for surface electromyography, results of SENIAM project*, 8th editio. Enschede: Roessingh Research and Development, 1999.
- [88] C. J. De Luca, L. Donald Gilmore, M. Kuznetsov, and S. H. Roy, "Filtering the surface EMG signal: Movement artifact and baseline noise contamination," *J. Biomech.*, vol. 43, no. 8, pp. 1573–1579, 2010.
- [89] P. W. Hodges and B. H. Bui, "A comparison of computer-based methods for the determination of onset of muscle contraction using electromyography.," *Electroencephalogr. Clin. Neurophysiol.*, vol. 101, no. 6, pp. 511–9, Dec. 1996.
- [90] K. Tedroff, L. M. Knutson, and G. L. Soderberg, "Synergistic muscle activation during maximum voluntary contractions in children with and without spastic cerebral palsy.," *Dev. Med. Child Neurol.*, vol. 48, no. 10, pp. 789–96, Oct. 2006.
- [91] C. J. De Luca, "The Use of Surface Electromyography in Biomechanics," *J. Appl. Biomech.*, vol. 13, no. 2, pp. 135–163, May 1997.
- [92] M. Halaki and K. Gi, "Normalization of EMG Signals: To Normalize or Not to Normalize and What

to Normalize to?," in *Computational Intelligence in Electromyography Analysis - A Perspective on Current Applications and Future Challenges*, InTech, 2012.

- [93] A. B. Arsenault, D. A. Winter, R. G. Marteniuk, and K. C. Hayes, "How many strides are required for the analysis of electromyographic data in gait?," *Scand. J. Rehabil. Med.*, vol. 18, no. 3, pp. 133–5, 1986.
- [94] D. A. Neumann and T. M. Cook, "Effect of load and carrying position on the electromyographic activity of the gluteus medius muscle during walking.," *Phys. Ther.*, vol. 65, no. 3, pp. 305–11, Mar. 1985.
- [95] J. J. Woods and B. Bigland-Ritchie, "Linear and non-linear surface EMG/force relationships in human muscles. An anatomical/functional argument for the existence of both.," *Am. J. Phys. Med.*, vol. 62, no. 6, pp. 287–99, Dec. 1983.
- [96] J. F. Yang and D. A. Winter, "Electromyography reliability in maximal and submaximal isometric contractions.," *Arch. Phys. Med. Rehabil.*, vol. 64, no. 9, pp. 417–20, Sep. 1983.
- [97] D. A. Winter and H. J. Yack, "EMG profiles during normal human walking: stride-to-stride and inter-subject variability.," *Electroencephalogr. Clin. Neurophysiol.*, vol. 67, no. 5, pp. 402–11, Nov. 1987.
- [98] A. R. Chapman, B. Vicenzino, P. Blanch, J. J. Knox, and P. W. Hodges, "Intramuscular fine-wire electromyography during cycling: Repeatability, normalisation and a comparison to surface electromyography," *J. Electromyogr. Kinesiol.*, vol. 20, no. 1, pp. 108–117, Feb. 2010.
- [99] G. T. Allison, R. N. Marshall, and K. P. Singer, "EMG signal amplitude normalization technique in stretch-shortening cycle movements," *J. Electromyogr. Kinesiol.*, vol. 3, no. 4, pp. 236–244, Jan. 1993.
- [100] J. F. Yang and D. A. Winter, "Electromyographic amplitude normalization methods: improving their sensitivity as diagnostic tools in gait analysis.," *Arch. Phys. Med. Rehabil.*, vol. 65, no. 9, pp. 517–21, Sep. 1984.
- [101] L. M. Knutson, G. L. Soderberg, B. T. Ballantyne, and W. R. Clarke, "A study of various normalization procedures for within day electromyographic data," *J. Electromyogr. Kinesiol.*, vol. 4, no. 1, pp. 47–59, Jan. 1994.
- [102] A. Burden, "How should we normalize electromyograms obtained from healthy participants? What we have learned from over 25 years of research.," *J. Electromyogr. Kinesiol.*, vol. 20, no. 6, pp. 1023–35, Dec. 2010.

- [103] K. Falconer and D. A. Winter, "Quantitative assessment of co-contraction at the ankle joint in walking.," *Electromyogr. Clin. Neurophysiol.*, vol. 25, no. 2–3, pp. 135–149, 1985.
- [104] A. Sarcher *et al.*, "Reorganization of muscle synergies in 2 individuals with C5 and C6 tetraplegia after biceps-triceps and posterior deltoid-triceps tendon transfers," *Ann. Phys. Rehabil. Med.*, Oct. 2018.
- [105] M. Sangeux, E. Passmore, H. K. Graham, and O. Tirosh, "The gait standard deviation, a single measure of kinematic variability," *Gait Posture*, vol. 46, pp. 194–200, May 2016.
- [106] G. R. Naik, *Applications, challenges, and advancements in electromyography signal processing*, 1st ed. 2014.
- [107] A. Supiot, B. Berret, N. Roche, and D. Pradon, "Caractérisation des organisations locomotrices par la quantification des synergies musculaires chez le sujet asymptotique et cérébrolésé : une revue de littérature narrative," *Mov. Sport Sci. - Sci. Mot.*, no. 98, pp. 13–30, Jan. 2017.
- [108] B. J. Hoare, J. Wasiak, C. Imms, and L. Carey, "Constraint-induced movement therapy in the treatment of the upper limb in children with hemiplegic cerebral palsy.," *Cochrane database Syst. Rev.*, no. 2, p. CD004149, 2007.
- [109] A. Houwink, P. B. M. Aarts, A. C. H. Geurts, and B. Steenbergen, "A neurocognitive perspective on developmental disregard in children with hemiplegic cerebral palsy.," *Res. Dev. Disabil.*, vol. 32, no. 6, pp. 2157–2163, 2011.
- [110] H. Chen, C. Chen, L. Kang, C. Wu, F. Chen, and W. Hong, "Improvement of upper extremity motor control and function after home-based constraint induced therapy in children with unilateral cerebral palsy: immediate and long-term effects.," *Arch. Phys. Med. Rehabil.*, vol. 95, no. 8, pp. 1423–1432, Aug. 2014.
- [111] L. Sakzewski, J. Ziviani, and R. N. Boyd, "Efficacy of upper limb therapies for unilateral cerebral palsy: a meta-analysis.," *Pediatrics*, vol. 133, no. 1, pp. e175-204, Jan. 2014.
- [112] A. M. E. Thompson, S. Chow, C. Vey, and M. Lloyd, "Constraint-induced movement therapy in children aged 5 to 9 years with cerebral palsy: a day camp model.," *Pediatr. Phys. Ther.*, vol. 27, no. 1, pp. 72–80, 2015.
- [113] K. Xu, L. He, J. Mai, X. Yan, and Y. Chen, "Muscle Recruitment and Coordination following Constraint-Induced Movement Therapy with Electrical Stimulation on Children with Hemiplegic Cerebral Palsy: A Randomized Controlled Trial," *PLoS One*, vol. 10, no. 10, p. e0138608, Oct.

2015.

- [114] M. de Brito Brandão, M. C. Mancini, D. V. Vaz, A. P. Pereira de Melo, and S. T. Fonseca, "Adapted version of constraint-induced movement therapy promotes functioning in children with cerebral palsy: a randomized controlled trial," *Clin. Rehabil.*, vol. 24, no. 7, pp. 639–647, Jul. 2010.
- [115] L. Krumlinde-Sundholm, M. Holmefur, A. Kottorp, and A.-C. Eliasson, "The Assisting Hand Assessment: current evidence of validity, reliability, and responsiveness to change," *Dev. Med. Child Neurol.*, vol. 49, no. 4, pp. 259–264, Apr. 2007.
- [116] L. KRUMLINDE-SUNDHOLM, "Reporting outcomes of the Assisting Hand Assessment: what scale should be used?," *Dev. Med. Child Neurol.*, vol. 54, no. 9, pp. 807–808, Sep. 2012.
- [117] M. Holmefur, P. Aarts, B. Hoare, and L. Krumlinde-Sundholm, "Test-retest and alternate forms reliability of the assisting hand assessment," *J. Rehabil. Med.*, vol. 41, no. 11, pp. 886–891, Nov. 2009.
- [118] N. Taylor, P. L. Sand, and R. H. Jebsen, "Evaluation of hand function in children.," *Arch. Phys. Med. Rehabil.*, vol. 54, no. 3, pp. 129–35, Mar. 1973.
- [119] D. V. Vaz, M. Cotta Mancini, S. T. Fonseca, D. S. R. Vieira, and A. Eustáquio de Melo Pertence, "Muscle stiffness and strength and their relation to hand function in children with hemiplegic cerebral palsy," *Dev. Med. Child Neurol.*, vol. 48, no. 09, p. 728, Sep. 2006.
- [120] P. B. Aarts, P. H. Jongerius, Y. A. Geerdink, J. van Limbeek, and A. C. Geurts, "Effectiveness of Modified Constraint-Induced Movement Therapy in Children With Unilateral Spastic Cerebral Palsy: A Randomized Controlled Trial," *Neurorehabil. Neural Repair*, vol. 24, no. 6, pp. 509–518, Jul. 2010.
- [121] H. Bourke-Taylor, "Melbourne Assessment of Unilateral Upper Limb Function: construct validity and correlation with the Pediatric Evaluation of Disability Inventory.," *Dev. Med. Child Neurol.*, vol. 45, no. 2, pp. 92–6, Feb. 2003.
- [122] T.-N. Wang, K.-J. Liang, Y.-C. Liu, J.-Y. Shieh, and H.-L. Chen, "Psychometric and Clinimetric Properties of the Melbourne Assessment 2 in Children With Cerebral Palsy," *Arch. Phys. Med. Rehabil.*, vol. 98, no. 9, pp. 1836–1841, Sep. 2017.
- [123] J.-M. Gracies *et al.*, "Five-step clinical assessment in spastic paresis.," *Eur. J. Phys. Rehabil. Med.*, vol. 46, no. 3, pp. 411–21, Sep. 2010.
- [124] L. Lacourpaille *et al.*, "Non-invasive assessment of muscle stiffness in patients with duchenne

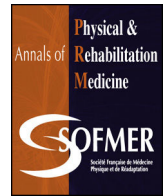
muscular dystrophy,” *Muscle Nerve*, vol. 51, no. 2, pp. 284–286, Feb. 2015.

- [125] A. Nordez and F. Hug, “Muscle shear elastic modulus measured using supersonic shear imaging is highly related to muscle activity level,” *J. Appl. Physiol.*, vol. 108, no. 5, pp. 1389–1394, May 2010.
- [126] B. Borotikar, M. Lempereur, M. Lelievre, V. Burdin, D. Ben Salem, and S. Brochard, “Dynamic MRI to quantify musculoskeletal motion: A systematic review of concurrent validity and reliability, and perspectives for evaluation of musculoskeletal disorders,” *PLoS One*, vol. 12, no. 12, p. e0189587, Dec. 2017.



Available online at
ScienceDirect
www.sciencedirect.com

Elsevier Masson France
EM|consulte
www.em-consulte.com



Letter to the editor

Reorganization of muscle synergies in 2 individuals with C5 and C6 tetraplegia after biceps-triceps and posterior deltoid-triceps tendon transfers

ARTICLE INFO

Keywords:

Elbow extension
Electromyography
Muscle synergy
Non-negative matrix factorization
Spinal cord injury
Tendon transfer

Dear Editor

Individuals with spinal cord injury (SCI) at the C5 or C6 level will have paralysis of the triceps brachii muscle. Elbow extension can be surgically restored by transferring the tendon of a functioning muscle onto the tendon of the paralyzed triceps brachii. The most frequently transferred tendon [1] is the posterior deltoid tendon [2]. However, if the clavicular head of the pectoralis major muscle is weak, this can create a muscle imbalance around the shoulder girdle [3]. In that case, transferring the biceps brachii tendon is recommended [4]. The success of this intervention relies on the ability of the patient to dissociate the drive between the transferred biceps brachii and the other elbow flexor muscles [1].

Even though tendon transfers are widely used to improve upper-limb function in individuals with tetraplegia, the subsequent reorganization of muscle patterns has been little studied. The identification of muscle synergies, defined as groups of muscles activated in synchrony [5], from electromyographic (EMG) signals may help to provide a deeper understanding of changes in muscle patterns. The aim of this study was to investigate the reorganization of muscle patterns after surgical restoration of elbow extension by the identification of muscle synergies, for the first time.

Three participants voluntarily took part in this study and provided informed consent after the local human research ethics committee approved the study: a healthy 21-year-old man (healthy control); a 20-year-old man with C5 tetraplegia (patient-biceps), ASIA Impairment Scale (AIS) A; and a 24-year-old man with C6 tetraplegia (patient-deltoid), AIS B. The demographic and clinical characteristics of the 2 patients are summarized in Table 1. Patient-biceps underwent a biceps brachii tendon transfer [4] and patient-deltoid underwent a posterior deltoid tendon transfer [2].

Muscle patterns were evaluated once for the healthy control and twice for the patients: before the surgery and after 5 months of

rehabilitation. The procedure consisted of consecutive elbow extension-flexion cycles with the shoulder externally rotated and held in 60° and 120° of abduction by the experimenter. For the patients, elbow extension was only possible at 60° of abduction preoperatively; however, 5 months after tendon transfer, elbow extension was also possible at 120° of shoulder abduction. Surface EMG measurements were collected for the biceps brachii, brachialis, brachioradialis, and anterior, middle and posterior deltoid muscles for all participants. EMG activation of the triceps brachii muscle was also recorded in the healthy control.

EMG data were recorded by using a 16-channel system (WaveWireless EMG, Cometa, Milan, Italy) at 1000 Hz. EMG signals were band-pass-filtered (4th order Butterworth, 10–450 Hz), full-wave-rectified, and smoothed with a low-pass filter (10 Hz). EMG amplitude was normalized to its peak value across all trials for each session and each muscle. Each elbow extension-flexion cycle was interpolated to 100 time points such that extension corresponded to 0 to 50% of the cycle and flexion to 50% to 100%.

For each participant and each movement, all combinations from 1 to 7 muscle synergies (because the activity of 7 muscles was recorded) were identified by using non-negative matrix factorization (NMF) from the EMG data and data were then averaged across the cycles (mean [SD]: 6.3 [2.6] cycles). Only 2 cycles were available for the patient-biceps preoperatively owing to a technical difficulty. Information about NMF can be found in [8,9]. The algorithm decomposes EMG data into sets of two components: muscle synergy weights $w_{Muscle M}^{Synergy S}$, that represent the relative weighting of each muscle within each synergy, and a synergy activation coefficient, $C^{Synergy S}$, that represents the recruitment of the muscle groups throughout the cycle, so that the activation of each muscle M =

$$\sum \text{number of synergies } C \frac{Synergy S}{Muscle M} * W \text{ Synergy } S + \text{error.}$$

The error is the difference between the recorded EMG data and the EMG data reconstructed from the synergies. The NMF algorithm first tests random initial estimates of W and C and via an iterative optimization, selects the matrices of W and C that minimize the sum of the squared error. The extraction of fewer muscle synergies increases the amount of error. We extracted the number of synergies that explained at least 90% of the total variance in the EMG data [10]. Synergies using NMF were calculated with Matlab (MathWorks, Natick, MA, United States) and an open-source Matlab routine [9].

After 5 months of rehabilitation after the tendon transfers, both patient-biceps and patient-deltoid could actively extend their elbows, with strength ratings of 4 and 3, respectively, on the modified Medical Research Council Scale [11].

<https://doi.org/10.1016/j.rehab.2018.09.008>

1877-0657/© 2018 Elsevier Masson SAS. All rights reserved.

Table 1
Demographic and clinical data of the 2 patients with spinal cord injury (SCI). The international standards for neurological classification of SCI of the American Spinal Injury Association (ASIA) and International Spinal Cord Society (ISICOS) were used to characterize the neurological status of patients [6]. The ASIA impairment scale (AIS) was used to describe the completeness of injury. The “Giens” classification for the upper limb of patients with tetraplegia is also presented [7].

	Patient-biceps	Patient-deltoid
Age, years	20	24
Weight, kg	65	54
Height, m	1.72	1.60
Cause of SCI	Diving accident in shallow water	Acute transverse myelitis
Associated injuries	None	None
Side of tendon transfer	Right	Right
Type of surgery	Zancolli	Moberg
	Biceps brachii	Posterior deltoid
Time from SCI to surgery, months	25	150
Transfer previously performed on opposite limb	Yes	Yes
	Zancolli-19 months	Moberg-136 months
AIS	A	B
Motor level (right upper limb)	C5	C6
Motor score (right upper limb)	5/25	10/25
Sensory level (right upper limb)	C4	C6
Grade on the “Giens” classification	1	3

AIS: ASIA Impairment Scale; SCI: spinal cord injury.

Two muscle synergies explained more than 90% of the variance of the original EMG signals, except for the healthy control during the trial at 60° of shoulder abduction, for patient-biceps preoperatively during the trial at 60°, and for patient-biceps postoperatively during the trial at 120°, for which 2 muscle synergies explained 88.9%, 89.7% and 88.4%, respectively, of the variance of the original EMG signals. Considering the closeness of the numbers to 90%, 2 muscle

synergies were analyzed in all cases. In all cases, the $C^{Synergy 1}$ was mainly activated during extension. In the healthy control, this synergy was represented by the triceps and deltoid muscles (extension synergy). $C^{Synergy 2}$ was mainly activated during flexion. In the healthy control, this synergy (flexion synergy) was represented by the flexor muscles (biceps, brachioradialis and brachialis) and, with a lower weight, the deltoid muscles (Figs. 1 and 2).

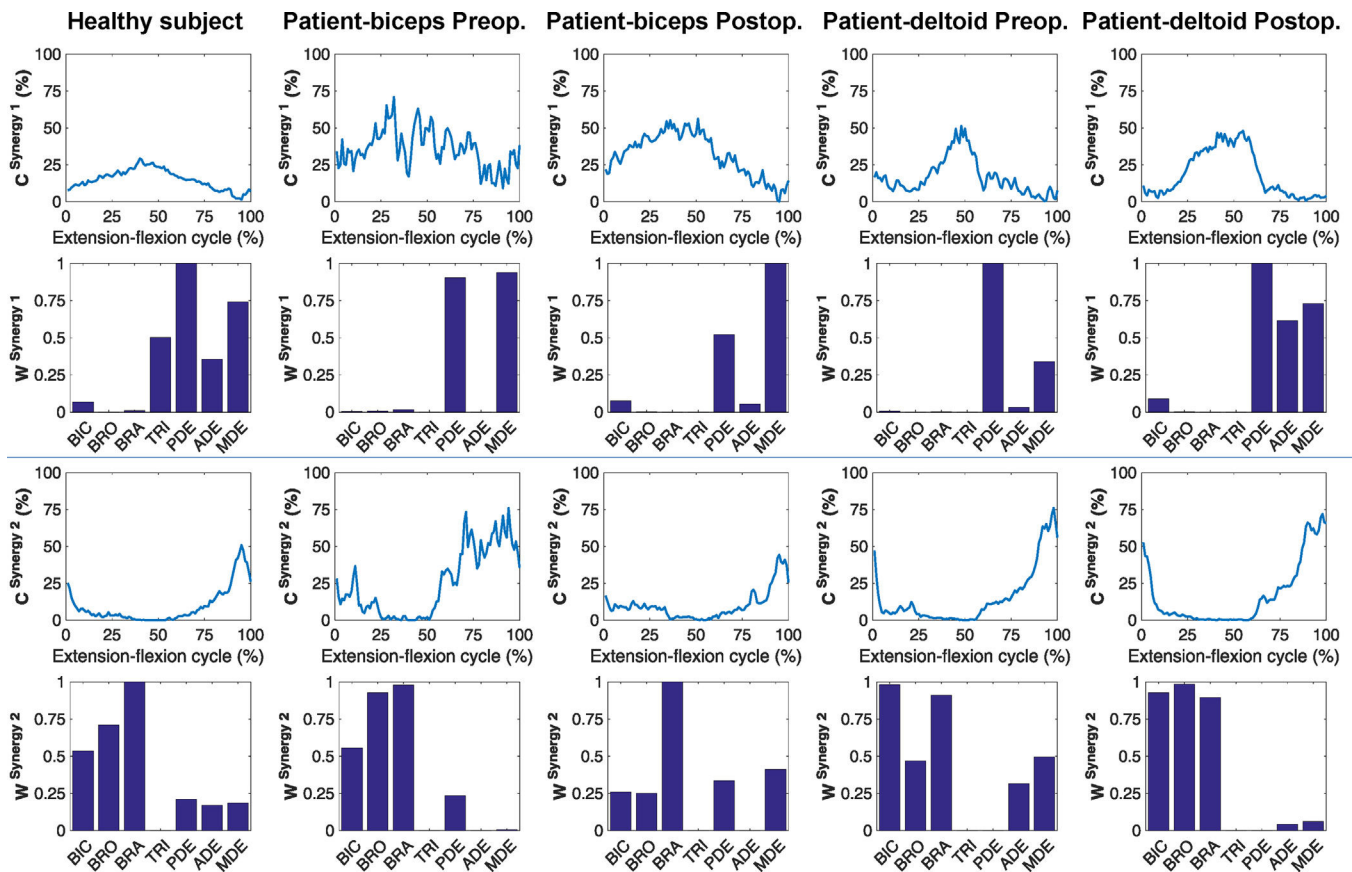


Fig. 1. Muscle synergies for elbow extension-flexion movements with the shoulder abducted at 60° for the healthy control subject, patient-biceps before and after biceps brachii tendon transfer, and patient-deltoid before and after posterior deltoid tendon transfer. The decomposition algorithm has 2 components: muscle synergy weights, $w_{Muscle M}^{Synergy S}$ (no unit), that represent the relative weighting of each muscle within each synergy and a synergy activation coefficient, $C^{Synergy S}$ (%), that represents the activation of muscle groups across the cycle. BIC, biceps; BRO, brachioradialis; BRA, brachialis; TRI, triceps; PDE, posterior deltoid; ADE, anterior deltoid; MDE, middle deltoid; Preop., preoperative data; Postop., postoperative data.

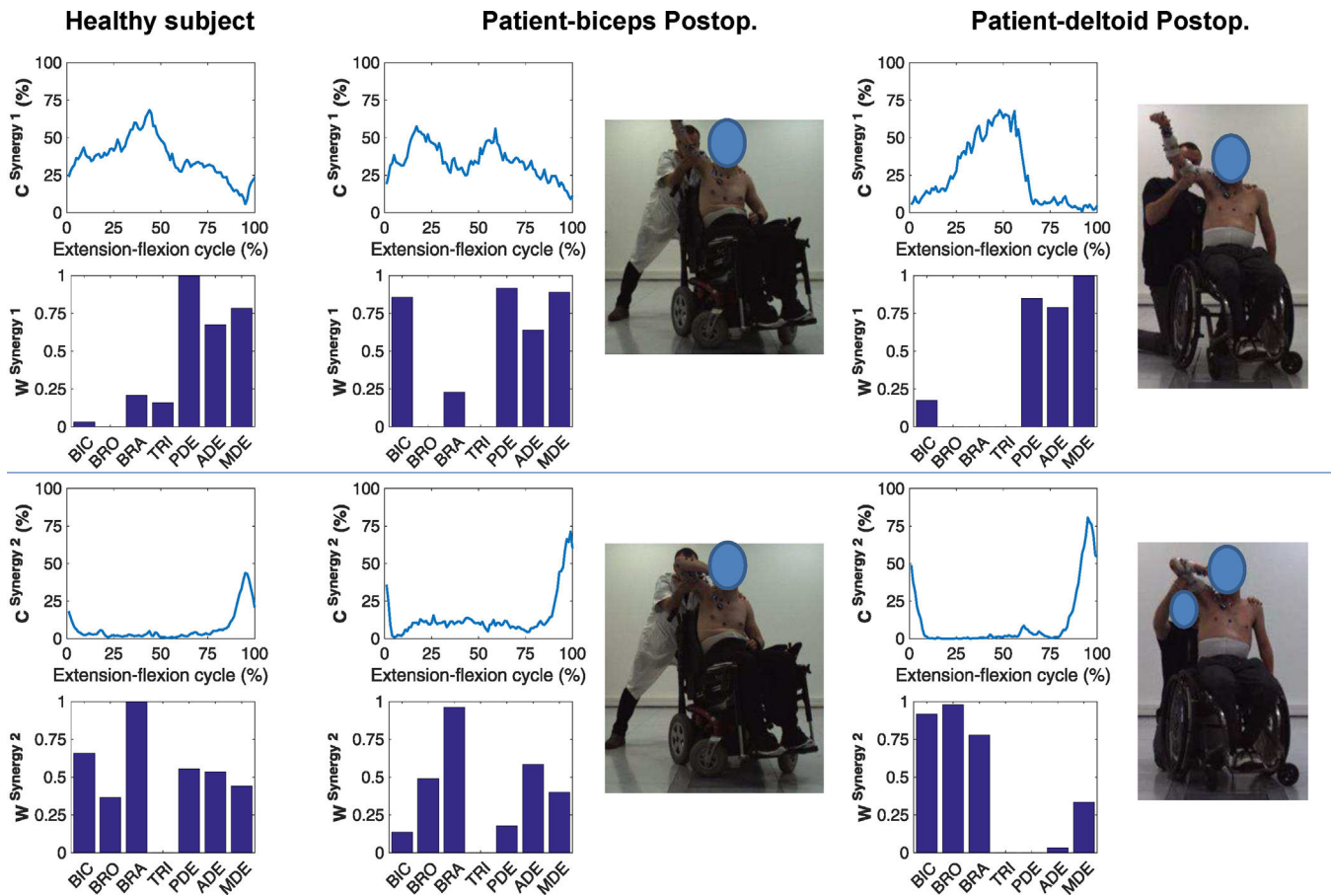


Fig. 2. Muscle synergies for elbow extension-flexion movements with the shoulder abducted at 120° for the healthy control subject, patient-biceps after biceps brachii tendon transfer, and patient-deltoid after posterior deltoid tendon transfer, supplemented with the frontal views of patient-biceps (left) and patient-deltoid (right) performing active extension (top) and flexion (bottom) with the shoulder abducted at 120°. BIC: biceps; BRO: brachioradialis; BRA: brachialis; TRI: triceps; PDE: posterior deltoid; ADE: anterior deltoid; MDE: middle deltoid; Preop.: preoperative data; Postop.: postoperative data.

Table 2
Muscles involved each synergy for the 3 participants.

	Synergy 1 (elbow extension)	Synergy 2 (elbow flexion)	Both synergies (hypothesized as shoulder stabilization)
Healthy control	Triceps	Biceps; brachialis; brachioradialis	ADE; MDE; PDE
Patient-biceps Preop.	MDE; PDE	Biceps; brachialis; brachioradialis	///
Postop.	Biceps (neo-triceps)	Brachioradialis; brachialis	ADE; MDE; PDE
Patient-deltoid Preop.	PDE	ADE; biceps; brachialis; brachioradialis	MDE
Postop.	ADE; MDE; PDE (neo-triceps)	Biceps; brachialis; brachioradialis	///

ADE: anterior deltoid; MDE: middle deltoid; PDE: posterior deltoid.

Patient-biceps: preoperatively, the posterior and middle deltoids were the only 2 muscles in the extension synergy, and the 3 elbow flexors weighted in the flexion synergy (Fig. 1). Post-operatively, at 60°, the extension synergy was unchanged, and the flexion synergy showed the emergence of the posterior and middle deltoids and the decrease in weights of the biceps and brachioradialis (Fig. 1). Post-operatively, at 120°, the 3 heads of the deltoid were involved in both synergies, together with the transferred biceps in the extension synergy and the 2 other elbow flexors in the flexion synergy (Fig. 2).

Patient-deltoid: preoperatively, the posterior deltoid was present in the extension synergy, the anterior deltoid in the flexion synergy, and the middle deltoid in both synergies. Postoperatively, all 3 heads of the deltoid were exclusively active during the

extension synergy. The elbow flexors were included only in the flexion synergy both pre- and postoperatively (Figs. 1 and 2).

The muscles involved in each synergy are summarized in Table 2 for the 3 participants.

In this study, we used a factorization technique to identify changes in muscle synergies after surgical restoration of elbow extension in 2 patients with tetraplegia. As expected, during the elbow extension-flexion task, 2 synergies were identified in the healthy control: an extension synergy, composed of the elbow extensor muscles, and a flexion synergy, composed of the elbow flexor muscles. The 3 heads of the deltoid were involved in both synergies, likely to stabilize the shoulder at the instructed abduction angle. Before the tendon transfer and despite paralysis of the elbow extensor muscles, both patients were able to perform the cyclical

elbow extension-flexion task with the shoulder abducted at 60°, probably with the help of gravity. The posterior and middle deltoids may also have helped in the extension movement, because they were more involved in the extension than for the healthy control.

After tendon transfer and 5 months of rehabilitation, both patients were able to perform active elbow extension against gravity. Analysis of the muscle synergies showed that the transferred muscles of both patients became largely predominant in the extension synergy, thus demonstrating the effectiveness of the tendon transfers.

Patient-biceps clearly succeeded in dissociating the drive between the transferred biceps brachii and the other elbow flexor muscles during elbow extension-flexion against gravity. During the trial at 60° of shoulder abduction, the weighting of the biceps during extension was low: this finding confirmed no need for the presence of an extensor to perform the extension-flexion task at 60° of shoulder abduction. In both trials, there was a low weighting of the biceps in the flexion synergy: this finding could reveal a small co-contraction of the biceps with the elbow flexors during elbow flexion, which was not detrimental to function because elbow flexion and extension were efficient in patient-biceps postoperatively. Of note, the weightings of posterior and middle deltoids increased in the flexion synergy postoperatively to a level similar to the healthy control. We assume that the prevalence of the middle and posterior deltoids during extension preoperatively was part of a compensation strategy to perform extension without an extensor. After the transfer of the biceps brachii, this strategy was no longer necessary and thus the weightings of posterior and middle deltoids were balanced between extension and flexion as for the healthy control.

However, patient-deltoid exhibited a simplified motor control strategy after the tendon transfer as the 3 heads of the deltoid became synergistic and exclusively involved in the extension synergy. Strong co-activation of the 3 heads of the deltoid during extension indicates unbalanced activity around the shoulder joint. However, we do not know whether this co-activation results from an inability to dissociate the drive to the different heads of the deltoid, leading to imbalance, or is a co-contraction strategy to stabilize the shoulder joint. This question needs to be explored in further research involving additional EMG measurements of main shoulder stabilization muscles, such as infraspinatus, supraspinatus and subscapularis muscles.

This study is a case report of 2 patients with SCI who underwent tendon transfer. The aim was to highlight the utility of identifying muscle synergies to investigate the reorganization of muscle patterns and not to compare the effectiveness of tendon transfer techniques. Indeed, the differences in reorganization of muscle patterns found in the 2 patients may also be due to their differences in motor level, because they did not have the same preserved muscles, and their differences in sensory level, even if we expect that the lack of sensory input had a relatively small effect on the results because the studied movements were not fine motor activities [12]. Therefore, our findings from this case report cannot be generalized to patients with SCI undergoing tendon transfer surgery.

Muscle synergy analysis must not be used as a single measure of surgical outcome. This method provides additional quantitative information relating to muscle patterns, which is complementary to existing clinical measures [13].

Finally, the methods used to calculate muscle synergies likely affected the results [10]: EMG filtering, EMG temporal normalization, EMG amplitude normalization, number of muscles recorded, number of movement cycles and the consideration of synergies that explained at least 90% of the total variance in muscle activation, as is commonly found in the literature [10]. Until now, no study has justified this choice [10], which may therefore be open to question. However, the same methodological conditions were used for all 3 participants.

This study demonstrated that muscle patterns are reorganized after surgical restoration of elbow extension. Muscle synergy analysis is a powerful tool:

- it is non-invasive;
- EMG activity is recorded from numerous muscles and described in an integrative fashion;
- differences can be detected between patients as well as after surgery to restore movement. Future studies should evaluate the time-course of changes during postoperative rehabilitation.

Disclosure of interest

The authors declare that they have no competing interest.

References

- [1] Mulcahey MJ, Lutz C, Kozin SH, Betz RR. Prospective evaluation of biceps to triceps and deltoid to triceps for elbow extension in tetraplegia. *J Hand Surg Am* 2003;28:964–71.
- [2] Moberg E. Surgical treatment for absent single-hand grip and elbow extension in quadriplegia. Principles and preliminary experience. *J Bone Joint Surg Am* 1975;57:196–206.
- [3] Ballas R, Fattal C, Teissier J. Anterior glenohumeral joint stabilization in tetraplegic patients by medializing the anterior head of deltoid muscle. *J Hand Surg Am* 2015;40:148–51.
- [4] Kuz JE, Van Heest AE, House F H. Biceps-to-triceps transfer in tetraplegic patients: report of the medial routing technique and follow-up of three cases. *J Hand Surg Am* 1999;24:161–72.
- [5] Ivanenko YP, Poppele RE, Lacquaniti F. Five basic muscle activation patterns account for muscle activity during human locomotion. *J Physiol* 2004;556:267–82.
- [6] Kirshblum SC, et al. International standards for neurological classification of spinal cord injury (revised 2011). *J Spinal Cord Med* 2011;34:535–46.
- [7] McDowell CL, Moberg EA, House JH. The second international conference on surgical rehabilitation of the upper limb in tetraplegia (quadriplegia). *J Hand Surg Am* 1986;11:604–8.
- [8] Seung HS, Lee DD. Learning the parts of objects by non-negative matrix factorization. *Nature* 1999;401:788–91.
- [9] Ting LH, Chvatal SA. In: Danion F, Latash ML, editors. Theories, experiments, and applications in motor control. New York: Oxford University Press; 2010. p. 102–21.
- [10] Supiot A, Berret B, Roche N, Pradon D. Caractérisation des organisations locomotrices par la quantification des synergies musculaires chez le sujet asymptomatique et cérébrolésé: une revue de littérature narrative. *Mov Sport Sci Sci Mot* 2017;98:13–30.
- [11] Florence JM, et al. Intrarater reliability of manual muscle test (Medical Research Council scale) grades in Duchenne's muscular dystrophy. *Phys Ther* 1992;72:115–22 [discussion 122–6].
- [12] Asanuma H. Functional role of sensory inputs to the motor cortex. *Prog Neurobiol* 1981;16:241–62.
- [13] Bolliger M, et al. Lower extremity outcome measures: considerations for clinical trials in spinal cord injury. *Spinal Cord* 2018.

Aurélien Sarcher^{a,*}, Brigitte Perrouin-Verbe^a, Sophie Touchais^b,
Guillaume Gadbled^b, Matthieu Gahier^a, Sylvain Brochard^c,
François Hug^d, Raphaël Gross^a

^aMotion analysis laboratory, Physical Medicine and Rehabilitation,
University Hospital of Nantes, 44093 Nantes, France

^bOrthopaedic Surgery and Traumatology, University Hospital of Nantes,
44000 Nantes, France

^cLaboratory of Medical Information Processing (LaTIM), INSERM UMR
1101, 29609 Brest, France

^dLaboratory of Movement-Interactions-Performance (MIP), EA 4334,
University of Nantes, 44322 Nantes, France

*Corresponding author. Laboratoire d'Analyse du Mouvement,
Hôpital Saint-Jacques, 85, rue Saint-Jacques, 44093 Nantes cedex,
France

E-mail address: aurelie.sarcher@gmail.com (A. Sarcher).

Received 17 May 2018

Accepted 27 September 2018

Available online xxx

ACTIVITES PARALLELES EN TANT QU'INGENIEUR DE RECHERCHE DU LABORATOIRE D'ANALYSE DU MOUVEMENT

ACTIVITES DE RECHERCHE

- **2017 – actuel : Etude Adulte tétraplégique. (RBM HPS - N° d'enregistrement : n° 2018-A000086-49 Réf. : RC17_0466). Analyse du mouvement du membre supérieur après une chirurgie de réanimation de l'extension du coude chez le patient tétraplégique.**

Financement obtenu par appel d'offres interne 2017-2018 du CHU de Nantes (37.74keuros).

CPP approuvé. Inclusions en cours.

- **2017 – actuel : Essai clinique Marche plan incliné. (RBM HPS - N° d'enregistrement : n° 2016-A01227-44 Réf. : RC16_0089). Effet d'un plan incliné sur la marche de l'enfant paralysé cérébral de type « crouch gait ».**

Financement obtenu par appel d'offres 2015-2016 de la Fondation Paralysie Cérébrale (24keuros).

CPP approuvé. Inclusions en cours.

- **2017 – actuel : Essai clinique MouvsupTCIHemi. (RBM HPS - N° d'enregistrement : n°2015-A01713-46 Réf. : RC15_0310). Analyse du mouvement du membre supérieur d'enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale.**

Financement obtenu par appel d'offres 2015-2016 de la Fondation Paralysie Cérébrale (23keuros).

CPP approuvé. Inclusions en cours.

- **2016 – actuel : Etude marche DMD : facteurs biomécaniques et morphologiques déterminants de la perte de la marche des enfants atteints d'une dystrophie musculaire de Duchenne.**

Projet dirigé par le CHRU de Brest. Inclusions en cours.

- **2015 – 2016 : co-encadrement du master II recherche de Mme Lorette Vinet, Université de Saint Etienne. Adaptations musculaires à la marche sur plan incliné d'enfants avec paralysie cérébrale.**

ACTIVITES CLINIQUES

12/2015-12/2018 : Réalisation de l'Analyse Quantifiée de la Marche chez **138** enfants et **77** adultes.

ACTIVITES D'ENSEIGNEMENT

- **2015 - actuel : IFM3R Pays de la Loire (formation masso-kinésithérapie et pédicurie-podologie)**

Enseignement « Instrumentation et analyse du mouvement » à la promotion K1: 13h/an.

- **2015 – actuel : UFR STAPS Université de NANTES**

Enseignement « Métrologie et outils de mesure » à la promotion M1 EOPS : 12h/an.

COMMUNICATIONS

Article dans une revue avec comité de lecture :

- **Sarcher, A.**, Brochard, S., Perrouin-Verbe, B., Raison, M., Letellier, G., Leboeuf, F., Gross, R. (2018). Detection of overactivity in the pronator muscles during active supination in children with unilateral spastic cerebral palsy. *Annals of Physical and Rehabilitation Medicine* (soumis).
- **Sarcher, A.**, Brochard, S., Hug, F., Letellier, G., Raison, M., Perrouin-Verbe, B., Sangeux, M., Gross, R. (2018). Patterns of upper limb muscle activation in children with unilateral spastic cerebral palsy: variability and detection of deviations. *Clinical Biomechanics*, 59, 85-93.
- **Sarcher, A.**, Perrouin-Verbe, B., Touchais, S., Gadbled, G., Gahier, M., Brochard, S., Hug, F., Gross, R. (2018). Reorganization of muscle synergies in 2 individuals with C5 and C6 tetraplegia after biceps-triceps and posterior deltoid-triceps tendon transfers. *Annals of Physical and Rehabilitation Medicine – Letter to the Editor*, Oct.
- Raouafi, S., Achiche, S., Begon, M., **Sarcher, A.**, Raison, M. (2017). Classification of upper limb disability levels of children with spastic unilateral cerebral palsy using K-means algorithm. *Medical & Biological Engineering & Computing*, 1-11.
- **Sarcher, A.**, Raison, M., Leboeuf, F., Perrouin-Verbe, B., Brochard, S., Gross, R. (2017). Pathological and physiological muscle co-activation during active elbow extension in children with unilateral cerebral palsy. *Clinical Neurophysiology*, 128(1), 4-13.
- **Sarcher, A.**, Raison, M., Ballaz, L., Lemay, M., Leboeuf, F., Trudel, K., et al. (2015). Impact of muscle activation on ranges of motion during active elbow movement in children with spastic hemiplegic cerebral palsy. *Clinical Biomechanics*, 30(1), 86-94.

Communications orales avec comité de lecture (*: orateur) :

- **Sarcher, A.**, Perrouin-Verbe, B.*, Le Fort, M., Touchais, S., Gadbled, G., Gahier, M., Brochard, S., Hug, F., Gross, R. (2018) Organization of muscle synergies in two patients with C5 and C6 tetraplegia following a biceps-triceps and posterior deltoid-triceps tendon transfer. 12th International Congress on Surgery and Rehabilitation of the Upper Extremity in Tetraplegia (TETRAHAND), Nottwil, Switzerland, 28-31 august. (Conférence internationale).

- **Sarcher, A.**, Perrouin-Verbe, B., Gahier, M., Brochard, S., Gross, R.* (2017) Evolution des co-activations musculaires du membre supérieur chez deux patients tétraplégiques C5 et C6 à la suite de transferts tendineux biceps-triceps et deltoïde postérieur-triceps. 32^{ème} Congrès de la Société Française de Médecine physique et de Réadaptation (SOFMER), Nancy, France, 5-7 octobre. (Conférence nationale).
- **Sarcher, A.***, Brochard, S., Raison, M., Leboeuf, F., Perrouin-Verbe, B., Letellier, G., Gross, R. (2016) Effet d'une thérapie motrice induite par la contrainte sur la cinématique et l'activation musculaire du membre supérieur atteint d'enfants hémiparétiques. 1^{er} Congrès conjoint Posture-Equilibre-Mouvement (PEM) de la SOFPEL, de l'ESCEBD, et de la SOFAMEA, Nancy, France, 8-10 décembre. (Conférence nationale)
- Vinet, L., **Sarcher, A.***, Perrouin-Verbe, B., Leboeuf, F., Gross, R. (2016) Evaluation de l'effet de la pente sur l'activation musculaire et la cinématique du genou de l'enfant « crouch gait » : quelles pistes pour la rééducation ? 1^{er} Congrès conjoint Posture-Equilibre-Mouvement (PEM) de la SOFPEL, de l'ESCEBD, et de la SOFAMEA, Nancy, France, 8-10 décembre. (Conférence nationale)
- **Sarcher, A.***, Brochard, S., Raison, M., Leboeuf, F., Perrouin-Verbe, B., Letellier, G., Gross, R. (2016). Sensitivity of an upper limb motion analysis protocol to changes in kinematics and muscle activity after constraint induced therapy in children with hemiplegia. 25th Annual Meeting of the European Society of Movement Analysis in Adults and Children (ESMAC), Seville, Spain, September 28th-30th. (Conférence internationale).
- **Sarcher, A.***, Raison, M., Leboeuf, F., Perrouin-Verbe, B., Brochard, S., Gross, R. (2016) Distinction entre co-activation pathologique et fonctionnelle lors de mouvements actifs du bras chez des enfants hémiparétiques. 15^{ème} Congrès de la Société Francophone d'Analyse du Mouvement chez l'Enfant et l'Adulte (SOFAMEA), Brest, France, 27-29 janvier. (Conférence nationale)
- Vinet, L.* , **Sarcher, A.**, Perrouin-Verbe, B., Leboeuf, F., Gross, R. (2016) Adaptations de la marche sur plan ascendant chez l'enfant sain : pistes pour la rééducation de l'enfant paralysé cérébral. 15^{ème} Congrès de la Société Francophone d'Analyse du Mouvement chez l'Enfant et l'Adulte (SOFAMEA), Brest, France, 27-29 janvier. (Conférence nationale)
- **Sarcher, A.***, Raison, M., Gross, R., Ballaz, L., Leboeuf, F., Brochard, S., Perrouin-Verbe, B. (2015) Distinction between pathological and functional co-activation during active elbow extension in children with spastic hemiplegic cerebral palsy. 24th Annual Meeting of the European Society of

Movement Analysis in Adults and Children (ESMAC), Heidelberg, Germany, September the 10th.
(Conférence internationale)

- Raison, M.*, Kalache, M., Laitenberger, M., **Sarcher, A.** (2013) Biofidelic assessment of upper limb muscle forces: the solving of a closed-loop complex bone-joint system overactuated by muscles. 4th Canadian Conference on Nonlinear Solid Mechanics (CANCNSM), 23-26 juillet. (Conférence nationale)
- Laitenberger, M.*, **Sarcher, A.***, Yazji, M., Begon, M., Raison, M. (2012). Développement d'un outil d'évaluation des forces musculaires chez les patients atteints de déficience motrice cérébrale (DMC). Compte-rendu du 9^e Congrès québécois de réadaptation, Réinventer la réadaptation: comment faire autrement?, St-Hyacinthe, Canada, 25-26 octobre. (Conférence provinciale)

Communications par affiche avec comité de lecture :

- **Sarcher, A.***, Brochard, S., Raison, M., Leboeuf, F., Perrouin-Verbe, B., Hug, F., Gross, R. (2017). Upper limb co-activation in typically developing children and in children with unilateral cerebral palsy: reliability and sensitivity to the EMG normalization technique. 26th Annual Meeting of the European Society of Movement Analysis in Adults and Children (ESMAC), Trondheim, Norway, September 6th-9th. (Conférence internationale).
- **Sarcher, A.***, Brochard, S., Raison, M., Leboeuf, F., Perrouin-Verbe, B., Gross, R. (2016). Evolution of upper limb co-activations in two patients with C5 and C6 tetraplegia following biceps-triceps and posterior deltoid-triceps tendon transfers. 26th Annual Meeting of the European Society of Movement Analysis in Adults and Children (ESMAC), Trondheim, Norway, September 6th-9th. (Conférence internationale).
- **Sarcher, A.***, Brochard, S., Raison, M., Leboeuf, F., Perrouin-Verbe, B., Bellay, E., Guerchet, N., Letellier, G., Gross, R. (2017). Evolution de la cinématique et de l'activation musculaire lors de mouvements du bras atteint d'enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale ayant suivi une thérapie motrice induite par la contrainte. Congrès de la Société Francophone d'Etudes et de Recherche sur les Handicaps de l'Enfance (SFERHE), du Réseau Breizh Paralysie Cérébrale et du Cercle de Documentation et d'Information pour la réadaptation des IMC (CDI), Saint-Malo, France, 26-27 juin. (Conférence nationale).
- **Sarcher, A.***, Brochard, S., Raison, M., Leboeuf, F., Perrouin-Verbe, B., Letellier, G., Gross, R. (2017). Sensitivity of an upper limb motion analysis protocol to changes in kinematics and muscle

activity after constraint induced therapy in children with hemiplegia. 29th Annual Meeting of the European Academy of Childhood Disability (EACD), Amsterdam, The Netherlands, May 17th-20th. (Conférence internationale).

- **Sarcher, A.**, Raison, M., Leboeuf, F., Perrouin-Verbe, B., Brochard, S., Gross, R*. (2016). Co-activation pathologique et physiologique lors d'extensions actives du coude chez des enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale. 31^{ème} Congrès de la Société Française de Médecine physique et de Réadaptation (SOFMER), Saint-Etienne, France, 13-15 octobre. (Conférence nationale).
- **Sarcher, A.***, Brochard, S., Raison, M., Leboeuf, F., Perrouin-Verbe, B., Gross, R. (2016). Movement analysis for the assessment of surgical reconstruction of elbow extension by tendon transfer in C5/C6 tetraplegia. 25th Annual Meeting of the European Society of Movement Analysis in Adults and Children (ESMAC), Seville, Spain, September 28th-30th. (Conférence internationale).
- **Sarcher, A.***, Raison, M., Laitenberger, M., Lemay, M., Ballaz, L., Mathieu, P.A. (2013). Muscular co-activation and joint torque during elbow flexion-extension in healthy adults : towards a tool to quantify spasticity during voluntary movement. Compte-rendu du Progress in Motor Control IX, Montréal, Canada, 13-16 juillet. (Conférence internationale)
- **Sarcher, A.***, Raison, M., Laitenberger, M., Ballaz, L., Mathieu, P.A., Lemay, M. (2013). Effet de la vitesse sur l'activité motrice pendant la flexion/extension et la pronosupination du coude chez des enfants hémiplegiques. Compte-rendu du 28^{ème} congrès annuel du Centre de recherche du CHU Sainte-Justine, Montréal, Canada, 30 mai. (Conférence organisée par le Centre de recherche du CHU Sainte-Justine)
- Laitenberger, M.*, Begon, M., **Sarcher, A.**, Périé, D., Raison, M. (2013). Modélisation ostéo-articulaire du membre supérieur visant la quantification d'angles et de couples articulaires réalistes lors de mouvements fonctionnels. Compte-rendu du 28^{ème} congrès annuel du Centre de recherche du CHU Sainte-Justine, Montréal, Canada, 30 mai. (Conférence organisée par le Centre de recherche du CHU Sainte-Justine)
- **Sarcher, A.***, Raison, M., Laitenberger, M., Ballaz, L., Mathieu, P.A., Lemay, M. (2012). Évaluation des forces musculaires et de la spasticité chez l'enfant ayant un déficit moteur cérébral. Compte-rendu de la Journée Scientifique du Réseau provincial de recherche en adaptation-réadaptation (REPAR), Montréal, Canada, 11 mai. (Conférence provinciale)
- Laitenberger, M.*, **Sarcher, A.**, Begon, M., Raison, M. (2012). Impact du modèle anthropométrique sur les paramètres inertiels segmentaires et les couples articulaires au membre

supérieur en mouvement. Compte-rendu de la Journée Scientifique du Réseau provincial de recherche en adaptation-réadaptation (REPAR), Montréal, Canada, 11 mai. (Conférence provinciale)

- **Sarcher, A.***, Raison, M., Laitenberger, M., Ballaz, L., Mathieu, P.A., Lemay, M. (2012). Mise en place d'un outil d'évaluation des forces musculaires et de spasticité chez l'enfant ayant un déficit moteur cérébral. Compte-rendu de la Deuxième Journée Scientifique du Groupe de recherche en activité physique adaptée (GRAPA), Montréal, Canada, 21 mars. (Conférence régionale)
- Laitenberger, M.* , **Sarcher, A.**, Begon, M., Raison, M. (2012). Influence du modèle anthropométrique sur les paramètres inertiels segmentaires et les couples articulaires dans le membre supérieur en mouvement. Compte-rendu de la Deuxième Journée Scientifique du Groupe de recherche en activité physique adaptée (GRAPA), Montréal, Canada, 21 mars. (Conférence régionale)

Contributions sans comité de lecture (chapitre de livre) :

- Raison, M., Laitenberger, M., **Sarcher, A.**, Detrembleur, C., Samin, J.-C., Fiset, P. (2012). Methodology for the Assessment of Joint Efforts During Sit to Stand Movement, Injury and Skeletal Biomechanics, Tarun Goswami (Ed.), ISBN: 978-953-51-0690-6.

Colloques :

- **Sarcher, A.***, Guerchet, N.* , Bellay, E.* (2016). La contrainte induite transforme-t-elle le fonctionnement du membre supérieur ? Journée d'étude inter-régionale « Rééducateurs en mouvement » des groupes COKILLAJE (Coordination Kinésithérapique et Interprofessionnelle Ligérienne pour L'Accompagnement du Jeune Enfant) et AKPB (Association de Kinésithérapie Pédiatrique Bretonne), Nantes, France, 1^{er} octobre (Colloque inter-régional)
- **Sarcher, A.*** (2013). Le traitement conventionnel de l'électromyographie. Séminaire « Utilisation de l'électromyographie pour la commande d'exosquelettes » du groupe INTER (Ingénierie des Technologies Interactives en Réadaptation), Montréal, Canada, 27 juin.

ABREVIATIONS

AHA – Assisting hand assessment

AQM – Analyse quantifiée de la marche

AROM – Amplitude de mouvement maximale active

CA – Coactivation

CHEQ – Children’s hand-use experience questionnaire

DT – Développement typique

EMG – Electromyographie

ESEAN – Etablissement de santé pour enfants et adolescents de la région nantaise

sEMG – Electromyographie de surface

iEMG – Electromyographie intramusculaire

FE – Flexion/extension

MAS – Echelle d’Ashworth modifiée

MVC – Contraction volontaire maximale

PCDS – Paralyse cérébrale diplégique spastique

PCQS – Paralyse cérébrale quadriplégique spastique

PCUS – Paralyse cérébrale unilatérale spastique

PQ – Carré pronateur

PS – Pronosupination

PT – Rond pronateur

SENIAM – Surface electromyography for the non-Invasive assessment of muscles

TMIC – Thérapie motrice induite par la contrainte

Titre : Développement méthodologique pour l'analyse des troubles de la commande du membre supérieur des enfants avec une paralysie cérébrale unilatérale spastique : implications pour les thérapies et traitements associés.

Mots clés : co-activation spastique ; électromyographie de surface ; enfant ; membre supérieur ; paralysie cérébrale unilatérale spastique.

Résumé : Les enfants atteints de paralysie cérébrale unilatérale spastique ont un membre supérieur dont les mouvements sont dégradés. Un des symptômes en cause est la co-activation spastique, une activation excessive de certains muscles qui s'opposent au mouvement. En clinique, il n'existe pas d'outil pour distinguer quels muscles ont une activation pathologique. Les signaux électromyographiques, mesurés de façon non invasive, peuvent discriminer des activations musculaires pathologiques. Cependant, ils sont rarement mesurés au membre supérieur des enfants atteints de paralysie cérébrale, en raison d'obstacles méthodologiques et statistiques. Cette thèse aborde ces obstacles. Les signaux électromyographiques de muscles du membre supérieur ont été mesurés chez 63 enfants avec et sans paralysie cérébrale unilatérale spastique, dans le cadre de 5 études de recherche.

Les 2 premières études ont consisté à détecter et caractériser les anomalies de commande musculaire chez les enfants avec une paralysie cérébrale, afin de cibler les paramètres électromyographiques pertinents. La 3ème étude a validé la mesure électromyographique au membre supérieur, en évaluant sa variabilité. Les 4ème et 5ème études ont appliqué la méthodologie développée à des problématiques cliniques : distinguer, pour chaque enfant, les muscles responsables des limitations de mouvements actifs ; évaluer les modifications d'activation musculaire à la suite de thérapies. Le développement méthodologique lié à ces études a permis d'évaluer la fiabilité de l'analyse électromyographique du membre supérieur, et a montré son fort potentiel pour le « diagnostic fonctionnel » des enfants atteints de paralysie cérébrale.

Title : Methodological development to analyze upper limb muscle disorders in children with unilateral spastic cerebral palsy : implications for associated therapies and treatments.

Keywords : child ; spastic co-activation ; surface electromyography ; unilateral spastic cerebral palsy ; upper limb.

Abstract : Children with unilateral spastic cerebral palsy have restricted movement of one upper limb. One of the symptoms responsible for this limitation is spastic co-activation, which is an excessive activation from specific muscles opposing the movement. In clinical routine, no tool can detect which muscles have a pathological activation. Electromyographic signals, measured non-invasively, can discriminate pathological muscle activations. However, they are rarely measured at the upper limb of children with cerebral palsy, due to methodological and statistical difficulties. This thesis addresses these difficulties. Electromyographic signals of upper limb muscles were measured in 63 children with and without unilateral spastic cerebral palsy, as part of 5 research studies.

The first two studies consisted in detecting and characterizing abnormal muscle activations in children with cerebral palsy, in order to target relevant electromyographic parameters. The third study validated the measure of upper limb electromyography, and evaluated its variability. Fourth and fifth studies applied the developed methodology to clinical problems: the distinction, for each child, of the muscles responsible for active movement restrictions; the evaluation of muscle activation modifications following a therapy. Methodological development associated with these studies assessed the reliability of upper limb electromyography, and showed its strong potential for the "functional diagnosis" of children with cerebral palsy.