Universidad San Jorge
Facultad de Ciencias de la Salud
Grado de Fisioterapia

Trabajo Fin de Grado

Efectividad de las estimulaciones transcraneales directas junto con un programa de neurorrehabilitación sobre el nivel de discapacidad durante la ejecución instrumental en músicos con distonía focal de la mano: protocolo de investigación

Autora del proyecto: Emmanuelle Villenave
Director del proyecto: César Castellanos Miguel
Zaragoza, 15 de mayo 2022

universidad SANJORGE
GRUPO SANVALERO

DECLARACIÓN

Este trabajo constituye parte de mi candidatura para la obtención del título de Grado en Fisioterapia de la Universidad San Jorge y no ha sido entregado previamente (o simultáneamente) para la obtención de cualquier otro título.

Este documento es el resultado de mi propio trabajo, excepto donde de otra manera esté indicado y referido.

Doy mi consentimiento para que se archive este trabajo en la biblioteca universitaria de Universidad San Jorge, donde se puede facilitar su consulta.

Firma

Fecha

El 15 de mayo 2022.

AGRADECIMIENTOS

Me gustaría agradecer a todas las personas que me han ayudado para este trabajo y durante estos años en la Universidad San Jorge.

Lo primero de todo, a mi tutor César Castellanos que me ha guiado y ayudado a lo largo de la realización de este trabajo de fin de grado.

A los profesores de investigación por su ayuda.

Y a mis padres que me empujaron a ir por esta carrera y su apoyo a lo largo de estos cuatro años.

ÍNDICE

RESUMEN

ABSTRACT

1. TÍTULO DEL PROYECTO.....1

2. INTRODUCCIÓN.....1

2.1 DEFINICIÓN.....1

2.2 JUSTIFICACIÓN.....4

2.3 HIPÓTESIS.....4

2.4 OBJETIVOS.....4

3. MATERIAL Y MÉTODO.....5

3.1 DISENO.....5

3.2 PARTICIPANTES.....5

3.3 VARIABLES.....6

3.3.1 Variable primaria.....6

3.3.2 Variables segundarias.....7

3.4 INTERVENCIÓN.....7

3.4.1 Grupo control.....8

3.4.2 Grupo experimental.....9

3.5 ANALISIS ESTADÍSTICO.....10

3.6 PLAN DE TRABAJO.....10

4. DISCUSIÓN.....12

5. LIMITACIONES Y FORTALEZAS.....13

5.1 Limitaciones.....13

5.2 Fortalezas.....14

6. CONCLUSIÓN.....14

BIBLIOGRAFÍA.....15

ANEXOS.....18

RESUMEN

Introducción y objetivos: La distonía focal de la mano es un trastorno neurológico caracterizado por una pérdida de control durante la ejecución instrumental en la región de la mano que afecta a 1% de los músicos. Tiene consecuencias graves en la vida laboral, afectando a músicos profesionales hasta el punto de llegar a interrumpir su carrera. El tratamiento actual se basa en la neurorrehabilitación. La utilización de estimulaciones transcraneales con corriente directa (ETCD) se está estudiando. Por eso, el objetivo de este estudio será demostrar la efectividad de las ETCD sobre el nivel de discapacidad durante la ejecución instrumental en músicos con distonía focal de la mano mediante la escala Tubiana y Chamagne scale (TCS) combinadas con un programa de neurorrehabilitación en comparación con el programa solo.

Métodos: Se realizará un ensayo clínico que durará 12 meses con músicos que presentan distonía focal de la mano. Habrá dos grupos: un grupo control que recibirá un tratamiento de neurorrehabilitación combinando Sensory Motor Retuning y Slow-Down Exercise y ETCD placebo, y un grupo experimental que recibirá el mismo tratamiento de neurorrehabilitación con ETCD activas. La variable primaria valorarada será el nivel de discapacidad con la TCS, y las segundarias serán el número de movimientos anormales con la herramienta Frequency of Abnormal Movement, la función del miembro superior con la Arm Dystonia Disability Scale y la velocidad a la que puede tocar con un metrónomo.

Resultados esperados: Se esperará una mejora de todas las variables en ambos grupos con una diferencia significativa en el grupo experimental debido a las ETCD.

Conclusión: Gracias a la utilización de ETCD combinada con un tratamiento de neurorrehabilitación, se podrá evidenciar la disminución del nivel de discapacidad durante la ejecución instrumental y del número de movimientos anormales, la mejora de la función del miembro superior, y el aumento de la velocidad a la que se puede tocar.

Palabras claves: Distonía focal de la mano, músicos, neurorrehabilitación, estimulaciones transcraneales con corriente directa, nivel de discapacidad.

ABSTRACT

Introduction and aims: Focal hand dystonia is a neurological disorder characterised by a loss of control during instrumental performance in the hand region, affecting 1% of musicians. It has serious consequences on working life, affecting musicians to the point of interrupting career. Current treatment is based on neurorehabilitation. The use of transcranial direct stimulation (TDCS) is being studied. Therefore, the aim of this study will be to demonstrate the effectiveness of TDCS on the level of disability during instrumental performance in musicians with focal hand dystonia using Tubiana and Chamagne Scale (TCS) in combination with a neurorehabilitation program compared to the program alone.

Methods: A 12-Month clinical trial will be conducted with musicians with focal hand dystonia. There will be two groups: a control group that will receive neurorehabilitation treatment combining Sensory Motor Retuning and Slow-Down Exercise and sham TDCS, and an experimental group that will receive the same neurorehabilitation treatment with active TDCS. The primary variable the be assessed will be the level of disability with the TCS, and the secondary variables will be the number of abnormal movements with the Frequency of Abnormal Movements tool, the upper limb function with the Arm Dystonia Disability Scale and the speed at which the patient can play with a metronome.

Expected Results: An improvement of all variables will be expected in both groups with a significant difference in the experimental group due to the TDCS.

Conclusion: The combination of neurorehabilitation treatment and the use of TDCS will result in a decrease in the level of disability during instrumental performance and in the number of abnormal movements, an improvement in the upper limb function, and an increase in the speed at which the patient can play.

Keywords: Focal hand dystonia, musicians, neurorehabilitation, transcranial direct current stimulation, level of disability.

1. TÍTULO DEL PROYECTO

Efectividad de las estimulaciones transcraneales directas junto con un programa de neurorrehabilitación sobre el nivel de discapacidad durante la ejecución instrumental en músicos con distonía focal de la mano: protocolo de investigación.

2. INTRODUCCIÓN

2.1 DEFINICIÓN

La distonía es un trastorno neurológico caracterizado por excesivas e involuntarias contracciones musculares que pueden afectar a cualquier parte del cuerpo (1). Generan movimientos o posturas anormales e incontrolables que siguen patrones típicos y repetitivos (1). La parte del cuerpo afectada puede ser flexionada o dirigida hacia una posición anormal. (1).

Cuando la distonía sólo afecta a un segmento corporal, se denomina distonía focal (2). Como ejemplo, se puede citar la distonía cervical o tortícolis espasmódica, o el blefaroespasmo. La distonía focal de la mano es un tipo de distonía que, como su nombre indica, afecta a la región de la mano y también antebrazo y dedos (3). Las tareas que necesitan coordinación motora fina son aquellas en las que los síntomas suelen aparecer (3). Los más habituales son contracciones excesivas e involuntarias de los músculos de la región de la mano como una flexión o extensión involuntaria de uno o más dedos, o de la muñeca, incluso hasta una elevación o retracción del hombro (3). A veces, está desencadenada por una acción específica (2), en este caso, se denomina distonía focal específica a la tarea (4) o distonía funcional (2). Las dos más comunes son el calambre del escritor y la distonía del músico (4) que aparecen respectivamente al escribir y al tocar el instrumento.

Los músicos se ven muy afectados por trastornos específicos durante la práctica del instrumento. Entorno al 84% de los músicos profesionales de orquesta refieren dolores o patologías resultantes de la práctica (5). Una de ellas, la distonía focal, se caracteriza por una pérdida de control durante la ejecución instrumental en la región de la mano, de la embocadura o de la laringe (6). Está asociada a una práctica instrumental intensiva y cuanto más exigente esta, mas riesgo hay que aparezca una distonía (6). Tiene consecuencias graves en la vida laboral, afectando al 62% de músicos profesionales hasta el punto de llegar a interrumpir su carrera (7).

La fisiopatología de la distonía focal de la mano no está bien definida, pero gracias a las pruebas de imagen, se encuentran anomalías. Con una prueba de electromiograma, se observa la falta de inhibición que se caracteriza por un impulso nervioso demasiado largo hacia el músculo, lo que genera una contracción exagerada, asociada con una cocontracción de músculos

inapropiados, generalmente antagonistas al movimiento, llegando a generar posturas distónicas (8). Con una magneto-encefalografía, se observa que los pacientes con distonía tienen una desorganización del córtex somato sensorial con campos receptivos anormalmente grandes (8, 9). En el caso de la distonía focal de la mano, la representación somato sensorial de los dedos está particularmente desorganizada e incluso, a veces, los campos receptivos pueden estar fusionados (9). Además, se ha observado que los pacientes con distonía focal de la mano presentan una plasticidad cerebral anormalmente aumentada. Esto puede explicar la mala reorganización del mapa somato sensorial y la aparición de la distonía (8).

La distonía focal de la mano específica a la tarea afecta al 1% de los músicos (7), pero podrían ser muchos más que permanezcan sin identificar (10). Ocurre en los pianistas, músicos de cuerda de arco, de viento, guitarristas y percusionistas (10) pero los dos instrumentos más afectados son el piano y la guitarra (6). Parece afectar más a los hombres alrededor de los 30 años, principalmente profesionales que trabajan muchas horas al día (6). La región afectada es aquella para la que la tarea es la más exigente durante la práctica instrumental (6). Por eso, la mano más afectada en los pianistas y guitarristas suele ser la derecha, y la izquierda en los instrumentos de cuerda de arco (11). En la distonía focal de la mano se identifica el dedo distónico que suele ser el dedo corazón en la mano derecha y el dedo anular en la mano izquierda, y uno o varios dedos compensatorios. Los dedos compensatorios hacen movimientos anormales para intentar ayudar al dedo distónico a moverse normalmente (6).

Los síntomas aparecen progresivamente (12). La distonía focal de la mano es caracterizada por movimientos de la mano y de los dedos involuntarios y anormales (10) al realizar un esfuerzo concreto y repetitivo (13). El músico puede experimentar pérdida de control en piezas especiales, falta de precisión, flexión excesiva del dedo distónico que está como "pegado" al instrumento (10). Este tipo de distonía es específica a la tarea, lo que significa que cuando el músico toca el instrumento, aparecen los síntomas distónicos, pero en la misma tarea en diferentes condiciones, los síntomas puede que no aparezcan. Por ejemplo, un pianista distónico puede quedarse libre de síntomas si toca en plástico (10). Lo mismo para un guitarrista clásico que tocaría una guitarra eléctrica, se puede que los síntomas no aparezcan (6). Además, la distonía focal de la mano no está asociada al dolor (13).

La evolución es variable. Evoluciona entre 6 y 12 meses y generalmente se estabiliza después (13). Cuando aparece, el músico tiende a pensar que son solo molestias dadas a la falta de trabajo y empiezan a practicar aún más (6). Una vez que empieza el problema, es poco probable que mejore o desaparezca sin tratamiento adecuado (6).

Las distonías pueden ser primarias o segundarias. En la distonía primaria, la propia distonía es el único signo clínico y la causa es desconocida. Se denomina idiopática. La distonía segundaria está causada por factores exógenos, degenerativos o genéticos (14).

El diagnóstico se basa en la observación clínica del paciente (6, 13). Empieza con una historia clínica completa buscando por antecedentes familiares (13). No existen pruebas específicas para diagnosticarla (6) y tampoco hay un patrón sintomático uniforme (13). Por eso, el diagnóstico de la distonía focal de la mano en músicos es bastante complejo. Cuando se sospecha de una distonía de la mano, el médico realizará un examen clínico teniendo en cuenta los antecedentes del paciente (6, 13). Después, la observación durante la ejecución del instrumento aporta elementos diagnósticos. Uno de los aspectos a tener en cuenta es que, si se está frente a un paciente distónico, los síntomas tendrían que desaparecer cuando la mano se encuentra en una posición de reposo (13). Antes de confirmar el diagnóstico, habrá que descartar patologías neurológicas que podrían causar distonías con pruebas complementarias (6).

Para tratarla, existen varias opciones. Se puede utilizar un tratamiento farmacológico con anticolinérgicos que modifica procesos en el sistema nervioso. Bloquea receptores que permiten la planificación y ejecución de los movimientos y controlan la inhibición que está disminuida en los pacientes distónicos (6). Pero esta opción parece tener resultados aleatorios (13). Además, no existen dosis terapéuticas establecidas. Las dosis son aumentadas hasta el efecto deseado (6). Con esta aumentación, pueden aparecer efectos secundarios. Algunos pacientes incluso perciben una agravación de los síntomas (6).

Otra opción es la utilización de toxina botulínica, que, bloqueando la liberación de acetilcolina en las sinapsis (6), produce debilidad en el musculo inyectado (13). En este caso, implica una denervación química de la placa motora: el cerebro envía ordenes de contracción, pero no se producen porque el impulso no puede pasar del nervio al músculo (6). Aquí también, el efecto, que dura entre 3 y 6 meses, depende de la dosis inyectada y puede ir de una simple debilidad a la parálisis completa (6). La inyección la tiene que realizar un experto, eligiendo adecuadamente el músculo que inyectar, generalmente el músculo distónico (6). Si funciona muy bien con otros tipos de distonías, incluso la del escribiente, en el tratamiento de la distonía del músico, los resultados no son satisfactorios. La afectación de músculos no inyectados (15) y la debilidad muscular pueden comprometer aún más tocar el instrumento (13). En efecto, los músculos que se debilitan con la toxina son los necesarios para tocar (6).

Varias terapias de neurorrehabilitación fueron desarrolladas basándose en la fisiopatología de la distonía focal de la mano. Son las técnicas de tratamiento que más se suelen utilizar para tratarla. Los métodos más investigados son el Sensory Motor Retuning y el Slow-Down Exercise que se utilizarán en este estudio, pero existen también la inmovilización prolongada o los cambios en la técnica (6).

Otra intervención que todavía se está estudiando, es la utilización de estimulaciones cerebrales no invasivas como las estimulaciones transcraneales magnéticas o las estimulaciones transcraneales con corriente directa para modular la excitabilidad (6).

2.2 JUSTIFICACIÓN

Como se puede intuir, la distonía focal de la mano en los músicos profesionales tiene consecuencias devastadoras en su carrera. Además, el tratamiento es muy largo y muchas veces, los resultados no son satisfactorios. En efecto, cuando los músicos distónicos acuden a la consulta y empiezan un tratamiento, son muy exigentes porque quieren recuperar su nivel inicial, antes de la aparición de los síntomas. Una simple mejora no es suficiente. Quieren un tratamiento que va a eliminar por completo los síntomas. En este estudio, se quiere implementar una nueva combinación de terapias para ver si se podría obtener resultados más satisfactorios.

La combinación del Sensory Motor Retuning (SMR) con el Slow-Down Exercise (SDE) y las estimulaciones transcraneales de corriente directa (ETCD) parecen dar resultados significativos y mejoran los síntomas distónicos en los músicos (11, 16). Teniendo esto en cuenta, sería interesante comprobar si añadir sesiones de ETCD en un programa de rehabilitación con SMR y SDE ayuda a obtener resultados más satisfactorios para los músicos.

2.3 HIPÓTESIS

H0: la utilización de ETCD junto con un programa de neurorrehabilitación combinando SMR con SDE no permite mejorar la ejecución instrumental de músicos con distonía focal de la mano.
H1: la utilización de ETCD junto con un programa de neurorrehabilitación combinando SMR con SDE permite mejorar la ejecución instrumental de músicos con distonía focal de la mano.

2.4 OBJETIVOS

<u>Objetivo primario</u>: demostrar la efectividad de las ETCD sobre el nivel de discapacidad durante la ejecución instrumental en músicos con distonía focal de la mano mediante la escala Tubiana y Chamagne scale (TCS) junto con un programa de neurorrehabilitación combinando SMR con SDE. en comparación con el programa exclusivo de neurorrehabilitación.

<u>Objetivos secundarios</u>:

- Analizar si las ETCD permiten disminuir el número de movimientos anormales por segundo durante la ejecución instrumental con la herramienta Frequency of Abnormal Movement.
- Comprobar si las ETCD permiten mejorar la función del miembro superior durante la ejecución instrumental con la Arm Dystonia Disability Scale.

- Evaluar si la velocidad a la que puede tocar durante el SMR, medida con un metrónomo aumenta más gracias a las ETCD.

3. MATERIAL Y MÉTODOS

3.1 DISEÑO DEL ESTUDIO

Este estudio será un ensayo clínico controlado y aleatorizado prospectivo que seguirá las recomendaciones SPIRIT. Tendrá una duración de 12 meses (15) del 1er de octubre 2023 hasta el 1er de octubre de 2024. El reclutamiento durará 3 meses, empezará el 1er de julio de 2023. El primer día del estudio, los participantes serán informados del desarrollo del estudio y firmarán el consentimiento informado [ANEXO]. Serán asignados aleatoriamente en un grupo control y un grupo experimental a través de la herramienta www.random.org. La aleatorización se hace de forma estratificada según el instrumento tocado de tal manera que se buscará una repartición homogénea de instrumentos en cada grupo. Además, los pacientes no sabrán a que grupo pertenecerán. La asignación oculta y aleatorización la llevará a cabo un investigador externo, que no participará en la recogida de datos y medidas, ni realizará las intervenciones. Un evaluador enmascarado y especialmente entrenado llevará a cabo las medidas de datos basales y las valoraciones iniciales, intermedias y finales. Un fisioterapeuta especializado y enmascarado establecerá los programas de ejercicios con cada paciente y les seguirá a lo largo del periodo de seguimiento. Habrá dos otros fisioterapeutas enmascarados y especializados en las ETCD. Uno se encargará de configurar el dispositivo antes de cada sesión para que sea activa o simulada. Otro se encargará de administrar las ETCD y de comprobar la posible aparición de efectos adversos. Las posibles modificaciones importantes del protocolo serán comunicadas por teléfono.

Este estudio está realizado según las directrices de la Declaración de Helsinki y estará presentado a un comité de ética.

3.2 PARTICIPANTES

La población diana del estudio estará compuesta de músicos profesionales, hombres y mujeres, con un diagnóstico de distonía focal de la mano por un médico especializado. El reclutamiento se realizará mediante anuncios en centros especializados en el cuidado de músicos, en conservatorios de música de alto nivel y en los servicios de neurología de varios hospitales en Cataluña, Aragón, y las provincias de Navarra y Valencia, entre el 1º de julio hasta el 30 de septiembre 2023.

Los criterios de inclusión serán los siguientes. Ser músico, de nivel profesional, estar diagnosticado con distonía focal de la mano específica al tocar el instrumento (11). Los pacientes estarán excluidos si tienen una distonía de la mano bilateral o distonía generalizada, si recibieron una inyección de toxica botulínica en los últimos 15 días, si tienen un dispositivo metálico en la

cabeza, un trastorno neurológico como epilepsia, una compresión neural, o si siguen un tratamiento farmacológico o un tratamiento concomitante para la distonía (11, 16).

Los valores perdidos por abandono de uno o más pacientes serán analizados por intención de tratar.

Tamaño muestral:

La herramienta TCS no está suficientemente estudiada como para tener los datos necesarios para calcular un tamaño muestral teórico. De hecho, no se sabe ni la desviación típica, ni la diferencia clínica mínima detectable. Además, ninguna del resto de herramientas adecuadas tiene estos datos establecidos. Por eso, antes de este estudio, se realizará un estudio piloto para obtener los datos necesarios de la TCS. Una vez obtenidos los datos, para calcular el tamaño muestral teórico, se establecerá un valor de α de 0,05 y una potencia de 80% (β=0,2) para minimizar los errores tipo I y II. Teniendo en cuenta los posibles abandonos, se añadirá unos 20% más de pacientes ya que el estudio es de un año. Además, se realizará con el software http://hedwig.mgh.harvard.edu/sample_size/js/js_parallel_quant.html.

3.3 VARIABLES

Todas las medidas de variables tendrán lugar en el instituto de fisiología y medicina del arte de Terrassa, en Barcelona, España. La medida de las características basales de los pacientes la realizará un evaluador enmascarado, el primer día del estudio a través de un cuestionario [ANEXO]. Será especialmente entrenado para realizar las valoraciones iniciales, intermedias y finales a lo largo del estudio utilizando las herramientas apropiadas. Los datos colectados estarán introducidos por un investigador independiente y habrá un control de calidad externo.

La recogida de datos basales y la valoración inicial se desarrollarán el primer día del estudio, durante la primera visita. El día 8, realizarán la primera valoración intermedia. Después, otras valoraciones intermedias se desarrollarán cada dos meses (mes 2, 4, 6, 8, 10) y la valoración final en el mes 12, el final del estudio (11).

3.3.1 Variable primaria:

Tubiana and Chamagne Scale (TCS): [ANEXO]

Esta escala ordinal y objetiva es específica al juego musical pero no a la mano (7,11,17). Cuantifica el nivel de discapacidad durante el juego musical de 0 a 5 (11, 17). La TCS no está validada, pero la utilizarán porque es específica para los músicos y tiene en cuenta más valores que la ADDS (11). Se valorará los pacientes con esta escala en el día 1, 8 y en los meses 2, 4, 6, 8, 10 y 12 (11).

3.3.2 Variables secundarias:

Frequency of Abnormal Movement scale (FAM):

Esta escala fue desarrollada por Spector y Brandfonbrener. Se basa en videos, con las cuales se observan movimientos anormales en flexión, extensión o aducción de los dedos cuantifica los síntomas y se cuantifican en frecuencias (7, 15). Está especifica al instrumento y a la técnica, es decir, se puede filmar directamente el músico tocando el instrumento (15). El numero obtenido es el número de movimientos anormales por segundos (11). Tiene una alta fiabilidad intra- e inter-observador y tiene una buena sensibilidad al cambio (11, 15). En este estudio, analizarán dos piezas de música para cada músico, una fácil y una de media dificultad (7, 11). Con una cámara (LUMIX DMC-FX3, Panasonic, Osaka, Japón), se registra cada paciente jugando las dos piezas durante al menos 3 minutos, dos veces cada pieza (11). El paciente elige el tempo al que jugarlas, un tempo que piensa ser el "normal" para jugar esta pieza y ese tempo es el con el que se valorará la FAM durante los 12 meses del estudio, en el día 1, 8 y en los meses 2, 4, 6, 8, 10 y 12 (11).

Arm Dystonia Disability Scale (ADDS): [ANEXO]

Esta escala ordinal cuantifica la función motora del miembro superior, en 7 actividades específicas, incluso la práctica instrumental (11, 15). Es objetiva y cuantifica la dificultad de jugar de 0 a 3 (7, 17). Se valorará los pacientes con esta escala en el día 1, 8 y en los meses 2, 4, 6, 8, 10 y 12 (11).

Velocidad del metrónomo:

Durante el trabajo de Sensoty Motor Retuning, el paciente trabaja con un metrónomo (Zen-on metrina, quartz metronome, Seiko Instruments & Electronics Ltd, Japan). El paciente tendrá una hoja para que registren la fecha con la velocidad a la que puede tocar. Al día 1, 8 y meses 2, 4, 6, 8, 10 y 12, se valorará la velocidad a la que puede tocar el paciente durante el Sensory Motor Retuning. (11)

3.4 INTERVENCIÓN

La intervención tendrá lugar en el instituto de fisiología y medicina del arte de Terrassa, en Barcelona, España. La realizarán tres fisioterapeutas especializados en el cuidado de pacientes con distonía focal de la mano en músicos. Junto a cada paciente, de manera individual, establecerán un programa de ejercicios adaptados. Los pacientes no sabrán si están en el grupo control o experimental.

3.4.1 Grupo control:

El grupo control recibirá una combinación de terapia de inducción del movimiento por restricción llamado Sensory Motor Retuning y un entrenamiento de control motor con reducción de la velocidad llamado Slow-Down Exercise.

Sabiendo que en esta patología hay un déficit de inhibición, una plasticidad y funciones sensoriales anormales, Candia et al. crearon en 2002 un método llamado Sensory Motor Retuning (SMR) que trata de normalizar la función de los dedos (13). Se apoya sobre la utilización de férulas para inmovilizar un dedo específico. Este dedo que inmovilizar es el dedo compensatorio principal. Para identificarlo, el fisioterapeuta inmovilizará uno a uno los dedos compensatorios mientras el paciente toca el instrumento con los dedos libres. Al inmovilizar el dedo compensatorio principal, el paciente sentirá su mano liberarse y podrá mover el dedo distónico independientemente. (11, 18)

Una vez identificado el dedo compensatorio principal, el fisioterapeuta realizará una férula específica a cada paciente. Hecha en termoplástico, se adapta a la mano del paciente, deja el resto de dedos libres e inmoviliza el dedo en la posición normal permitiendo un entrenamiento en una posición especifica a la tarea. (11)

Las sesiones de SMR serán específicas a cada paciente y planteadas juntamente con el fisioterapeuta. La primera semana del estudio será una semana de SMR intensivo con un total de 2 horas de trabajo al día. Para la primera serie, durante 10 minutos, el paciente realizará continuamente una secuencia de trabajo repetitivo, determinada por el fisioterapeuta, según el patrón de distonía. Se repite 5 veces esos 10 minutos con 2 minutos de reposo entre cada secuencia, durante un total de una hora. Después 10 minutos de reposo, continuará con la misma serie de 60 minutos. Durante cada secuencia, utilizando un metrónomo, la velocidad estará modificada cada 2 minutos en la medida de que no aparezcan movimientos anormales. Los pacientes serán valorados el día 1 y día 8. (11, 16, 18)

Después de esta primera semana intensiva, los pacientes trabajarán las mismas secuencias durante 30 a 60 minutos al día. Los pacientes serán valorados cada 2 meses hasta el mes 12. (11)

Generalmente, los síntomas distónicos desaparecen cuando se baja la velocidad de ejecución. Con esa observación, Sakai desarrolló en 2006 un método llamado Slow-Down Exercise (SDE) Ese método parece ser el único con el que se ha encontrado recuperación al 100% pero tal recuperación requeriría varios años de trabajo (6). Por eso, es interesante cuando se combina con otras terapias.

Cada paciente, junto al fisioterapeuta, elegirá dos partes (una más fácil y una más difícil) de una pieza de música que desencadenan los síntomas de la distonía. Con un metrónomo, el paciente bajará la velocidad hasta que los movimientos anormales desaparezcan. Este tempo

será a partir del cual empezará a trabajar. Cada semana podrá aumentar de uno o dos incrementos si no siente molestias. Si algunos síntomas aparecen, tendrá que bajar la velocidad. (11, 19)

Este trabajo de SDE empieza después de la primera semana intensiva de SMR. Es decir que, a la segunda semana del estudio, los pacientes realizarán cada día 30 a 60 minutos de SMR y 30 minutos de SDE. La fecha y el tempo serán registrados por los pacientes y serán valorados cada 2 meses hasta el mes 12. (11, 19)

El grupo control recibirá el mismo tratamiento con ETCD que el grupo experimental, pero placebo. Por eso, un fisioterapeuta configurará el dispositivo de manera que se apague automáticamente después de 30 segundos, sin que el paciente se dé cuenta. Eso permite que el fisioterapeuta que administra las ETCD desconozca si el paciente pertenece al grupo control o no. (16)

3.4.2 Grupo experimental:

Las ETCD consisten en la aplicación de una corriente eléctrica baja y continua. Pueden modular la excitabilidad cortical (20), aumentar o disminuir la excitabilidad de zonas subyacentes del cerebro y producir efectos inhibidores (6). Por eso, parecen interesantes a la hora de tratar la distonía focal de la mano en los músicos.

El grupo experimental recibirá exactamente la misma combinación de terapias que el grupo control. En este grupo, el dispositivo de ETCD no se apaga. Dos electrodos (35 cm2) con esponjas empapadas con solución salina serán colocados sobre el cráneo, en el córtex parietal con un mínimo de 6 cm entre las dos para evitar derivaciones. El cátodo estará en el hemisferio contralateral a la mano distónica. Serán mantenidos con una gorra de plástico, y conectados a un estimulador de corriente constante a pilas (Eldith Ltd, Illmenau, Germany). La intensidad será de 2 mA (fade-in/fade-out fases = 10 sec). (16)

Las sesiones de ETCD siempre se desarrollarán durante un trabajo de SMR. Durante la primera semana intensiva de SMR, los pacientes tendrán una hora de ETCD cada día. Después, durante el resto del estudio, tendrán 3 sesiones a la semana, durante el trabajo de SMR.

Después cada sesión de ETCD, se les preguntará si han notado algún efecto adverso. También, los tres fisioterapeutas estarán localizables por teléfono en cualquier momento, que sea para hacer preguntas u observaciones.

3.5 ANÁLISIS ESTADÍSTICO

El análisis estadístico de los datos obtenidos se realizará gracias al programa IBM SPSS Statistics 28. Para comprobar la distribución de las variables utilizarán la prueba Shapiro-Wilk. Según si la distribución es normal o no, se realizará una prueba u otra. Para valorar valores intra grupales, si las variables siguen una distribución normal, se utilizará la prueba ANOVA de medidas repetidas. Si no siguen una distribución normal, se utilizará la prueba de Friedman. Para comparar valores entre grupos con dos muestras independientes, se utilizará la prueba t de Student si las variables siguen una distribución normal, y la prueba u de Mann-Whitney si es no normal. Se establecerá un nivel de confianza al 95%, p siendo significativo si es <0.05. Los valores que serán perdidos serán analizados con intención de tratar.

3.6 PLAN DE TRABAJO

Fechas	**Evento**	
	Grupo control	Grupo experimental
1/07/2023 al 30/09/2023	Reclutamiento	
1/10/2023	Información, consentimiento informado, aleatorización Recogida de datos basales y valoración inicial	
1/10/2023 al 7/10/2023	Semana intensiva SMR+ETCD placebo	Semana intensiva SMR+ETCD activas
8/10/2023	Valoración intermedia	
8/10/2023 al 30/11/2023	SMR+SDE+ETCD placebo	SMR+SDE+ETCD activas
1/12/2023	Valoración intermedia	
1/12/2023 al 31/01/2024	SMR+SDE+ETCD placebo	SMR+SDE+ETCD activas
1/02/2024	Valoración intermedia	
1/02/2024 al 31/03/2024	SMR+SDE+ETCD placebo	SMR+SDE+ETCD activas
1/04/2024	Valoración intermedia	
1/04/2023 al 31/05/2024	SMR+SDE+ETCD placebo	SMR+SDE+ETCD activas
1/06/2024	Valoración intermedia	
1/06/2024 al 31/07/2024	SMR+SDE+ETCD placebo	SMR+SDE+ETCD activas
1/08/2024	Valoración intermedia	
1/08/2024 al 30/09/2024	SMR+SDE+ETCD placebo	SMR+SDE+ETCD activas
1/10/2024	Valoración final	
2/10/2024 al 25/10/2024	Análisis estadístico	
1/11/2024	Publicación de los resultados	

TABLA 1 – CRONOGRAMA DEL ESTUDIO

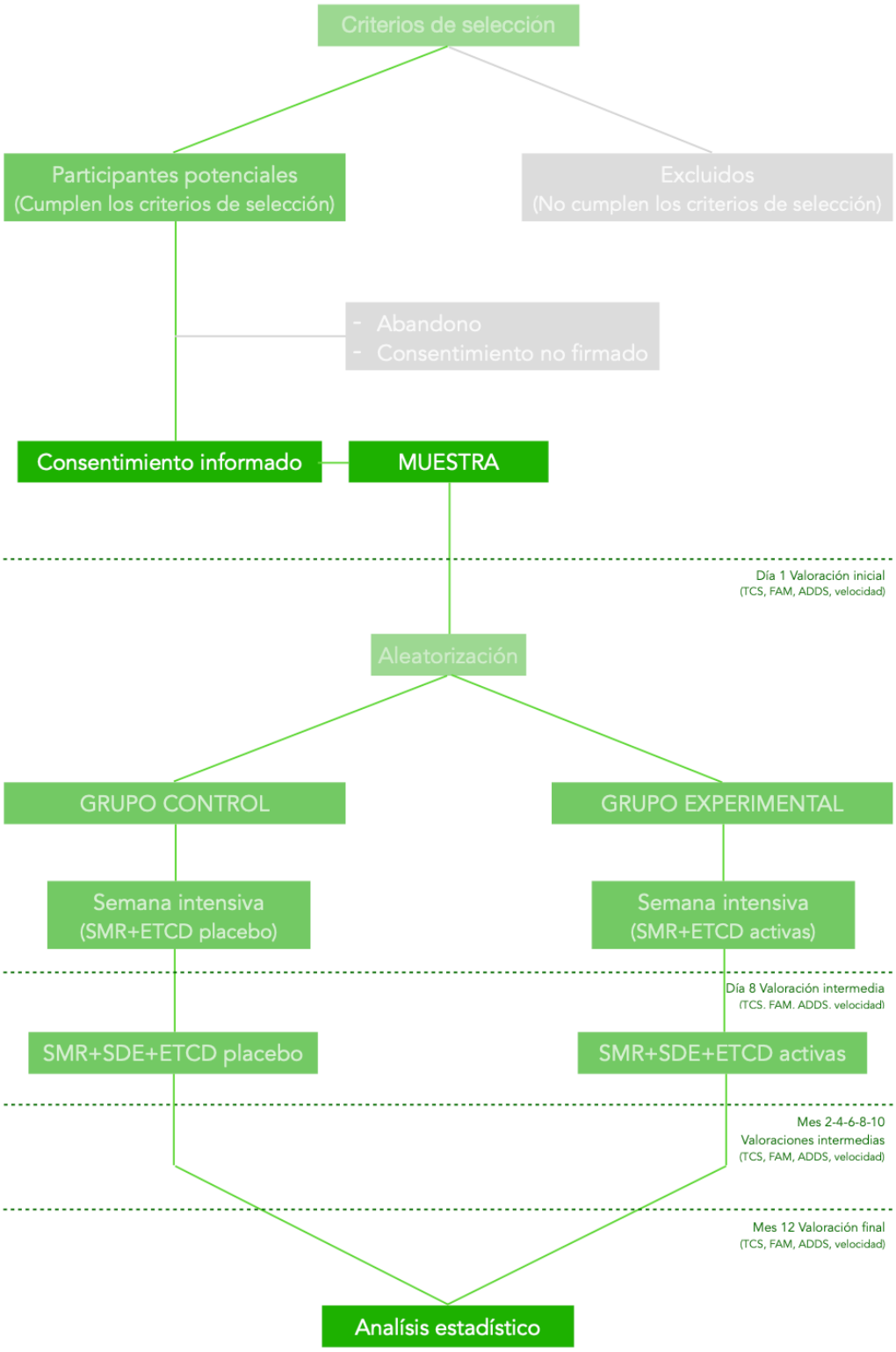

FIGURA 1 – DIAGRAMA DE FLUJO – Diseño del estudio

4. DISCUSIÓN

El objetivo de este estudio es comprobar la efectividad de las ETCD sobre la mejora de la ejecución instrumental de músicos con distonía focal de la mano junto con un programa de neurorrehabilitación combinando SMR y SDE. Se espera obtener mejores resultados en los dos grupos a la valoración final comparando con la inicial. Pero lo concluyente sería notar una clara diferencia significativa en el grupo experimental que ha recibido, además del tratamiento de neurorrehabilitación, sesiones de ETCD adecuadamente administradas. Se espera una mejoría significativa en las cuatro herramientas de valoración que se emplean, sobre todo en la TCS.

En su estudio, Marceglia et al (21), implementa un protocolo con 20 minutos de ETCD durante 5 días consecutivos en músicos con distonía focal de la mano. Compara las ETCD catodales y anodales con placebo, de manera bilateral con dos electrodos activos sobre el cráneo y los dos otros en el deltoides, y valora con la TCS. Encuentra que las ETCD catodales mejoran las funciones motoras y regulan la excitabilidad en las zonas subyacentes permitiendo recuperar la inhibición cortical. Valora con la TCS el día 1, antes de empezar con el tratamiento, y el día 5, y nota una mejora que parece mantenerse durante al menos 2 semanas. Al contrario, las anodales parecen empeorar los síntomas. Además, explica que estas ETCD bilaterales son adecuadas para pacientes bilateralmente afectados, pero si los síntomas son unilaterales, es mejor utilizarlas bipolares sobre el cráneo, como en el presente estudio. Concluye diciendo que no han aparecido efectos adversos y que las ETCD catodales parecen ser más eficaz cuando administradas durante varios días especialmente si están combinadas con técnicas de neurorrehabilitación. En el presente estudio, se implementará ETCD catodales bipolares, 3 veces a la semana durante 12 mese por lo cual, se espera resultados positivos que se mantendrán más allá del estudio. (21)

Berque et al (11), en su estudio, combina el SMR con el SDE en músicos con distonía focal de la mano. Observa resultados significativos con las mismas cuatro herramientas de valoración que se utilizan en este estudio. Además, este estudio está diseñado siguiendo el suyo: una primera semana intensiva de SMR y después, 30-60 minutos de SMR con 30 minutos de SDE cada día. Aunque no tenga grupo control, con este protocolo, observa resultados significativos a los 8 meses. Por eso, en este estudio, se espera obtener resultados significativos a los 8 meses en los dos grupos, con las cuatro herramientas de valoración. (11)

Por otra parte, Rosset-Llobet et al (16), combina 30 minutos de SMR y ETCD activas o placebo durante dos semanas en músicos con distonía focal de la mano. Observa resultados significativos en los dos grupos con una mejoría estadísticamente mayor en el grupo experimental con ETCD activas. Sin embargo, en el 30 meses follow-up (22) de este primer estudio, el objetivo era comprobar si los pacientes que han recibido ETCD han mejorado antes de los que no. De hecho, después estas dos semanas de ETCD, los pacientes seguían con el SMR hasta la rehabilitación completa. Rosset-Llobet no ha podido observar diferencias significativas entre los

grupos. Eso se puede relacionar con el periodo demasiado corto de tratamiento con ETCD. En el presente estudio, los pacientes recibirán 3 sesiones de ETCD a la semana durante 12 meses, junto con SMR y SDE, por lo cual se espera una diferencia entre grupos con una mayor mejora en el grupo que recibe ETCD activas. (16, 22)

En su estudio, Benninger et al (23), implementa las ETCS en 12 músicos afectados por distonía del escribiente, midiendo el cambio en la discapacidad con la ADDS. 6 de ellos pertenecen al grupo control y reciben ETCD placebo. Obtiene como resultados que las ETCD no tienen efecto favorable sobre la distonía con ningún cambio en la discapacidad (ADDS) y que no consigue restaurar la inhibición. Esos resultados se pueden atribuir al hecho que solo se tratan a los pacientes con ETCD y ningún otro de tipo de rehabilitación. Además, el estudio solo dura una semana, lo que también puede explicar la falta de resultados positivos. Lo que se puede notar, es que se ha parado el estudio por aparición de efectos perjudiciales no explicados. Eso significa que hay que estar muy atento a la aparición de efectos adversos. (23)

Futuros estudios tendrían que investigar sobre las herramientas y escalas de valoración de la distonía focal de la mano. Tener una herramienta validada permitiría limitar los sesgos de detección y aumentar la validez interna del estudio. Además, en el caso de que aparezcan efectos adversos con las ETCD, otros estudios tendrán que determinar la dosis óptima para tener los beneficios de las ETCD sin efectos adversos. En el caso de que no aparezcan ningún efecto secundario, un follow-up del presente estudio permitiría evaluar los efectos a largo plazo de las ETCD. Por fin, una estandarización del protocolo sería necesaria.

5. FORTALEZAS Y LIMITACIONES

5.1 LIMITACIONES

El tema de la distonía focal de la mano siendo poco estudiado, no se ha podido encontrar mucha literatura reciente. Por eso, la bibliografía está compuesta de literatura bastante antigua (más de 10 años). Es un tema en el que falta investigación. De la misma manera, esta falta de evidencia incluso en las herramientas de valoración no ha permitido calcular el tamaño muestral teórico para este estudio. Esto significa que habrá que realizar antes un estudio piloto antes lo que implica pérdida de tiempo y de dinero. Además, ninguna herramienta validada existe para valorar la distonía focal de la mano en los músicos lo que puede indicar posibles sesgos en el estudio. También, para disponer de una muestra más amplia, este estudio será multicéntrico. Lo que significa que los pacientes se tendrán que desplazar, algo que podría influir en la adherencia. Para terminar, se sabe que las ETCD no tienen efectos adversos a corto plazo, pero no se sabe si tienen a largo plazo. En este estudio que durará 12 meses, habrá que estar muy atentos a la posible aparición de efectos adversos en pacientes del grupo experimental.

5.2 FORTALEZAS

La distonía focal de la mano en los músicos siendo un tema poco estudiado, este estudio participa a la recogida y difusión de datos y conocimientos sobre esta patología y se dirige tanto a los profesionales de la salud (médicos, fisioterapeutas...) como a los músicos (profesionales y amateur, solistas, de orquesta y profesores). Del reclutamiento de músicos profesionales, se puede esperar una mayor implicación y adherencia al tratamiento puesto que se trata de su carrera profesional. Además, este estudio demuestra la importancia del fisioterapeuta en el cuidado de músicos con distonía focal de la mano. Actualmente, los resultados con tratamientos farmacológicos y con toxina botulínica no son satisfactorios y no permiten tratar a los pacientes adecuadamente. El tratamiento de la distonía focal de la mano tiene que pasar por una rehabilitación llevada a cabo por fisioterapeutas y el presente estudio permite nuevos conocimientos. De la misma manera, testa una nueva combinación de terapias nunca testada. Se espera poder acortar el tiempo de tratamiento y mejorar las condiciones de vida de los pacientes. Por fin, en todo momento, los pacientes, fisioterapeutas y evaluadores están todos enmascarados. Limita el riesgo de sesgo.

6. CONCLUSIÓN

Tratar a músicos afectados por la distonía focal de la mano supone un reto profesional importante, por lo que plantear un enfoque combinando ETCD con un programa de neurorrehabilitación con SMR y SDE durante un año se espera que permita mejorar notablemente su nivel de discapacidad durante la ejecución instrumental, disminuyendo el número de movimientos anormales, mejorando la función del miembro superior y aumentando la velocidad a la que consigue tocar.

Este estudio participa en la mejora de la atención a estos pacientes, permitiendo acortar el tiempo de tratamiento, disminuir los gastos económicos que implica esta patología y mejorando considerablemente la calidad de vida de los pacientes, puesto que pueden volver a trabajar. Sin embargo, más investigaciones están necesarias para mejorar el cuidado de los músicos especialmente sobre la distonía focal de la mano que queda poca conocida.

BILBLIOGRAFÍA

(1) Dystonia Medical Research Foundation [Internet]. Chicago: Dystonia Medical Research Fondation; 2021 [17/04/2022]. What is dystonia?. Disponible en: https://dystonia-foundation.org/what-is-dystonia/

(2) Créange A, Defebvre L, Zuber M. Mouvements anormaux – dystonie. En : Collège des enseignants de neurologie/Elsevier. Neurologie. 5e ed. Elsevier Masson SAS ; France: 2019. p. 263.

(3) Dystonia Medical Research Foundation [Internet]. Chicago: Dystonia Medical Research Fondation; 2021 [17/04/2022]. Hand dystonia. Disponible en: https://dystonia-foundation.org/what-is-dystonia/types-dystonia/hand-dystonia/

(4) Stahl CM, Frucht SJ. Focal task dystonia: a review and update. J Neurol. 2017; 264: 1536-1541.

(5) Ackermann B, Driscoll T, Kenny DT. Musculoskeletal pain and injury in professional orchestral musicians in Australia. Med Probl Perform Art. 2012/12; 27 (4): 181-7.

(6) Rosset-Llobet J, Fàbregas Molas S. La dystonie du musicien, manuel pratique à l'usage des musiciens et de leurs thérapeutes. Alexitère Editions. Montauban : 2013.

(7) Peterson DA, Berque P, Jabusch H, Altenmüller A, Frucht SJ. Rating scales for musician's dystonia: the state of the art. Neurology. 6/08/2013; 81 (6): 589-598.

(8) Lin PT, Hallett M. The pathophysiology of focal hand dystonia. J Hand Ther. 2009; 22(2): 109-114.

(9) Chang CFF, Frucht S. Motor and sensory dysfunction in musician's dystonia. Curr Neurpharmacol. 01/2013; 11(1): 41-7.

(10) Dystonia Medical Research Foundation [Internet]. Chicago: Dystonia Medical Research Fondation; 2021 [17/04/2022]. Musician's dystonia. Disponible en: https://dystonia-foundation.org/what-is-dystonia/types-dystonia/musicians/

(11) Berque P, Gray H, Harkness C, McFayden A. A combination of constraint-induced therapy and motor control retraining in the treatment of focal hand dystonia in musicians. Med Probl Perform Art. 12/2010; 25(4): 149-61.

(12) Tubiana R. Musician's focal dyctonia. Hand Clin. 2003; 19(2): 303-308.

(13) Proubasta A, Pagonabarraga J, Lamas C, Millan A. Distonía focal de la mano. Rev Iberamer Cir Mano. 2014; 42(2): 172-182.

(14) Gregis M. La dystonie des musiciens: quand la tonique n'est plus dominante, la cadence peut -être rompue. Dijon: Institut de Formation en Masso-Kinésithérapie de Dijon ; 2016.

(15) Cogan G, Tritten J. Les effets des traitements de rééducation sur la dystonie focal primaire de la main chez les musiciens de haut niveau. Lausanne: Haute École de Santé Vaud; 2016.

(16) Rosset-Llobet J, Fàbregas-Molas S, Pascual-Leone A. Effect of transcranial direct current stimulation on neurorehabilitation of task-specific dystonia: a double-blind, randomized clinical trial. Med Probl Perform Art. 09/2015; 30(3); 178-84.

(17) Spector JT, Brandfonbrener AG. Methods of evaluation of musician's dystonia: critique of measurement tools. Mov Disord. 02/2007; 22(3): 309-12.

(18) Candia V, Schäfer T, Taub E, Rau H, Altenmüller E, Rockstroh B et al. Sensory motor retuning : a behavioral treatment for focal hand dystonia of pianists and guitarists. Arch Phys Ed Rehabil. 10/2002; 83(10): 1342-8.

(19) Yoshie M, Sakai N, Ohtsuki T, Kudo K. Slow-down exercise reverses sensorimotor reorganization in focal hand dystonia: a case study of a pianist. Int J Neurorehabilitation. 2015; 2(2): 157- 163.

(20) Lefaucheur JP, Antal A, Ayache SS, Benninger DH, Brunelin J, CogiamanianF et al. Evidence-based guidelines on the therapeutic use of transcranial direct current stimulation (tDCS). Clin Neurophysiol. 01/2017; 128 (1): 56-92.

(21) Marceglia S, Mrakic-Sposta S, Fumagalli M, Ferrucci R, Mameli F, Vergari M et al. Cathodal transcranial direct current stimulation improves focal hand dystonia in musicians: a two-case study. Front Neurosci. 09/2017; 11: 508.

(22) Rosset-Llobet J, Fàbregas-Molas S. The effect of two weeks of Transcranial Direct Current Stimulation on Neurorehabilitation of Musician's dystonia: A Follow Up. Austin J Clin Neurol. 2017; 4 (2): 1106.

(23) Benninger DH, Lomarev M, Lopez G, Pal N, Luckenbaugh DA, Hallett M. Transcranial direct stimulation for the treatment of focal hand dystonia. Mov Disord. 1/08/2011; 26 (9): 1698-1702.

ANEXOS

1. CONSENTIMIENTO INFORMADO

Para satisfacción de los Derechos del Paciente, como instrumento favorecedor del correcto uso de los Procedimientos Diagnósticos y Terapéuticos, y en cumplimiento de la Ley General de Sanidad:

Yo, D/Dña._____,

como paciente/voluntario, en pleno uso de mis facultades, libre y voluntariamente,

EXPONGO: que he sido debidamente INFORMADO/A por D/Dña._____,

en entrevista personal realizada el día ____ de _____de _____, de que entro a formar parte de un proyecto clínico para el estudio de “”.

MANIFIESTO: que he entendido y estoy satisfecho de todas las explicaciones y aclaraciones recibidas sobre el proceso médico citado. Y OTORGO MI CONSENTIMIENTO para que me sea realizado este estudio titulado “_____” por parte de los investigadores de este proyecto de investigación.

De acuerdo con el Reglamento (UE) 2016/679 del Parlamento Europeo y del Consejo de 27 de abril de 2016 de Protección de Datos (RGPD), el participante y/o sus padres o tutores legales quedan informados de que el Responsable del tratamiento de sus datos personales será FUNDACION UNIVERSIDAD SAN JORGE.

Todos los datos personales, incluidos los clínicos, serán tratados por el equipo investigador conforme a las leyes en vigor en la materia, especialmente el RGPD, únicamente con fines estadísticos, científicos y de investigación, para extraer conclusiones del proyecto en el que participa.

Los datos recogidos para el estudio estarán identificados mediante un código de manera que no se pueda identificar a los participantes y su identidad no será revelada de

ninguna manera excepto en los casos legalmente previstos. Cualquier publicación de los resultados de la investigación, estadísticos o científicos, reflejará únicamente datos disociados que impidan la identificación de los participantes en el estudio.

Como participante en el estudio puede ejercitar sus derechos de acceso, modificación, oposición, cancelación, limitación del tratamiento y portabilidad, dirigiéndose al Delegado de Protección de Datos de la Universidad adjuntando a su solicitud de ejercicio de derechos una fotocopia de su DNI o equivalente al domicilio social de USJ sito en Autovía A-23 Zaragoza- Huesca, km. 299, 50830- Villanueva de Gállego (Zaragoza), o la dirección de correo electrónico privacidad@usj.es. Asimismo, tiene derecho a dirigirse a la Agencia Española de Protección de Datos en caso de no ver correctamente atendido el ejercicio de sus derechos.

El participante podrá retirarse del estudio en cualquier momento comunicándoselo al investigador principal, si bien queda informado de que sus datos no podrán ser eliminados para garantizar la validez de la investigación y garantizar el cumplimiento de los deberes legales del Responsable.

Igualmente queda informado de que los resultados del presente proyecto podrán ser usados en el futuro en otros proyectos de investigación relacionados con el campo de estudio objeto del presente, así como que tiene derecho a ser informado sobre los resultados del estudio en el caso de que así lo solicite.

Y, para que así conste, firmo el presente documento

Villanueva de Gállego, a ___ de _____ de _____

Firma del paciente y nº DNI	**Firma del investigador y nº DNI**

2. CUESTIONARIO DE RECOGIDA DE DATOS BASALES

Nombre: .....

Apellidos: .....

DNI: .....

Numero de teléfono: .....

Correo electrónico: .....

Sexo: H / F

Edad:

Instrumento(s) tocado(s):

Mano afectada: D / I

Edad de aparición de los primeros síntomas:

Horas de práctica al día: 0-1h 1-2h 3-5h 5-7h >7h

Rellenar por el examinador:

Estadio TCS:

N° movimientos anormales por segundo (FAM):

Estadio ADDS:

Velocidad metrónomo:

Firma del paciente y nº DNI	**Firma del investigador y nº DNI**

3. Tubiana and Chamagne scale

Estadio 0	Incapaz de tocar
Estadio 1	Toca algunas notas, pero para por bloqueos y dificultades
Estadio 2	Toca secuencias con lentitud y dedos inestables
Estadio 3	Toca piezas fáciles, pero incapaz de tocar piezas con requerimientos técnicos
Estadio 4	Toca casi normalmente, pero se evitan los pasajes difíciles por miedo a la aparición de síntomas motores
Estadio 5	Vuelve a los conciertos

Berque P, Gray H, Harkness C, McFayden A. A combination of constraint-induced therapy and motor control retraining in the treatment of focal hand dystonia in musicians. Med Probl Perform Art. 12/2010; 25(4): 149-61.

4. Arm Dystonia Disability Scale

Estadio 0	No distonía
Estadio 1	Dificultad leve para tocar
Estadio 2	Dificuldad moderada para tocar
Estadio 3	Dificultad marcada para tocar

Berque P, Gray H, Harkness C, McFayden A. A combination of constraint-induced therapy and motor control retraining in the treatment of focal hand dystonia in musicians. Med Probl Perform Art. 12/2010; 25(4): 149-61.