

**UNIVERZA V LJUBLJANI
ZDRAVSTVENA FAKULTETA
FIZIOTERAPIJA, 1. STOPNJA**

Eva Bras

**NAČINI ZDRAVLJENJA ŽARIŠČNE DISTONIJE
PRSTOV ROKE PRI GLASBENIKIH – PREGLED
LITERATURE**

diplomsko delo

**TREATMENT OPTIONS FOR MUSICIAN'S CRAMP –
LITERATURE REVIEW**

diploma work

Mentorica: izr. prof. dr. Darja Rugelj

Recenzentka: viš. pred. mag. Sonja Hlebš

Ljubljana, 2020

Posvečeno Etbinu Brasu (1952 - 2019)

ZAHVALA

Največja zahvala gre mojim staršem, ki so mi omogočili študij in me podpirali v težkih trenutkih. Hvala moji noni Mariji Bras in stricu Fedorju Tomažiču, za finančno podporo tekom študija, teti Nidji Tomažič za pomoč pri prevodu izvlečka v angleški jezik, mami Nadi, sestri Hanci Blažko, Boštjanu Marcu in bratrancu Tinetu Tomažiču za pomoč pri diplomski nalogi.

Iskrena hvala moji mentorici za dobre nasvete in hiter odziv na moja vprašanja.

IZVLEČEK

Uvod: Žariščna distonija roke prizadene 1% profesionalnih glasbenikov, pogosteje so prizadeti moški. Dejavniki tveganja so genetski, biomehanski ter povezani s ponavljajočimi, natančnimi in hitrimi gibi roke. Gre za pojav prekomernega vzpodbujanja možganske plastičnosti, kar povzroči povečanje motoričnega področja roke. Tam pride do večjega proprioceptivnega priliva in zmanjšane inhibicije, kar se lahko razširi tudi v sosednja področja. Pojavijo se motnje v mišični koordinaciji ali odsotnost zavestnih gibov takoj, ko oseba prične z igranjem instrumenta. Del telesa, na katerem pride do distonije, je odvisen od vrste instrumenta ter dominantne roke. Zdravljenje zajema intervencije, ki vplivajo na možgansko plastičnost, zdravila in operacijo. K nastanku distonije dlani in prstov so najbolj nagnjeni pihalci, godalci, brenkalci in glasbeniki, ki igrajo na glasbila s tipkami. **Namen:** Namen diplomske naloge je na podlagi pregleda literature analizirati načine zdravljenja glasbenikov z žariščno distonijo prstov roke. **Metode dela:** Uporabili smo opisno metodo dela s pregledom literature. Članke smo iskali na podatkovni bazi PubMed, pri dobljenih člankih pa smo uporabili metodo snežne kepe za nadaljnjo iskanje primerne literature. **Rezultati:** V pregled smo vključili sedem raziskav objavljenih med letom 2002 in 2014 ter ocenili njihovo kakovost po PEDro lestvici. V pregled smo zajeli 257 glasbenikov ter šest zdravih posameznikov (1 raziskava). Najbolj zastopan instrument je bil klavir (5 raziskav). Pri merjenju napredka so najpogosteje uporabljali metronom (5 raziskav), vprašalnik (2 raziskavi) ter lestvice za oceno stopnje distonije (4 raziskave). Uporabljene intervencije so bile z omejevanjem spodbujajoča terapija (4 raziskave), kombinacija izvajanja zrcalnih gibov ter vmesnega proženja različnih vrst impulzov transkraniialne stimulacije z direktnim električnim tokom (1 raziskava) ter vibracija mišice. Zmanjšanje simptomov je bilo prisotno pri vseh intervencijah, večje izboljšanje pa so dosegli glasbeniki, ki za igranje instrumenta ne potrebujejo vanj pihati. Pri vibraciji mišice je prišlo do izboljšanja tako pri bolnih kot tudi pri zdravih glasbenikih (1 raziskava). **Razprava in zaključek:** Intervencije, ki vplivajo na možgansko plastičnost so učinkovite vendar moramo biti pozorni, da postopoma večamo težavnost in trajanje vadbe. Dobljene raziskave imajo majhne in heterogene vzorce, zato rezultate težko posplošimo na celotno populacijo glasbenikov. Potrebne so raziskave z večjimi in homogenimi vzorci, kontrolno skupino ter jasnejšimi izidi.

Ključne besede: glasbeniki, distonija, roka, možganska plastičnost, ponovno učenje

ABSTRACT

Introduction: Focal hand dystonia affects 1% of professional musicians. Men are more affected. Risk factors are genetic, biomechanical and relative to repeated, precise and fast movements of the hand. The reason for that is too much brain plasticity which causes enlargement of the motor receptive field of the hand. There, it causes increased proprioceptive input and decrease of inhibition which can also spread to the neighboring receptive fields. It causes disorders in muscle coordination and involuntary movements shortly after the person starts to play the instrument. The location depends on the instrument and hand dominance. It is important to take thorough anamnesis about the hand injuries and burden. Treatment involves interventions that have an impact on brain plasticity, medication, and operation. Winds, strings, plugged and keyboard musicians have the most tendency to develop focal hand dystonia. **Purpose:** The purpose of this diploma work was to review research about the treatment options for focal hand dystonia of musicians. **Methods:** A descriptive method was used. First, studies in the PubMed database were searched for, then the snowball method was used to get more studies. **Results:** Seven articles, published between 2002 and 2014 were included and their quality was evaluated with the PEDro scale. 257 musicians – 18 were healthy (2 studies) and 6 healthy subjects (1 study) were captured in our review. The piano was the most common instrument (5 studies). By measuring the progress metronome (5 studies), questioner (2 studies) and scales for measuring the stage of dystonia (4 studies) were most commonly used. Used interventions were constraint-induced therapy (4 studies), a combination of mirrored finger movements while having different impulses with transcranial direct current stimulation (1 study) and muscle vibration. Improvement was seen in all of the above-mentioned interventions, better results were seen in musicians, who don't require too blow in their instrument. Muscle vibration has also shown improvement for healthy musicians. **Discussion and conclusion:** Interventions that influence brain plasticity are effective but they have to be carefully enhanced in difficulty and practice duration. The studies considered have small and heterogenic samples, so the results are difficult to generalize on the whole musicians' population. Studies with larger and homogenous samples, control group and clearer results are needed.

Keywords: musicians, dystonia, hand, brain plasticity, retraining

KAZALO VSEBINE

1	UVOD.....	1
1.1	Značilnosti glasbenikov	2
1.2	Dejavniki tveganja in ugotavljanje distonije	3
1.3	Patofiziologija nastanka distonije	4
1.4	Posledice distonije	5
1.5	Zdravljenje distonije	5
2	NAMEN	7
3	METODE DELA.....	8
4	REZULTATI.....	9
4.1	Značilnosti preiskovancev	10
4.2	Spremljanje napredka	14
4.3	Intervencije	16
5	RAZPRAVA.....	24
5.1	Primerjava protokolov zdravljenja.....	25
5.1.1	Ne-farmakološko zdravljenje	26
5.1.2	Farmakološko zdravljenje.....	26
5.2	Primerjava izidov med glasbeniki.....	27
5.2.1	Primerjava izidov med pianisti	27
6	ZAKLJUČEK.....	29
7	LITERATURA.....	30
8	PRILOGE	
8.1	Povzetek značilnosti posameznih raziskav	

KAZALO SLIK

Slika 1: Shema pridobivanja člankov za pregled.....	10
Slika 2: Podrobnejši prikaz časovnega zaporedja glede jemanja Botulin toksina v kombinaciji z izvajanjem ponovne vzpostavitve funkcije.....	19
Slika 3: Vrste transkraniialne stimulacije z direktnim električnim tokom	19

KAZALO TABEL

Tabela 2: Značilnosti preiskovancev za v pregled vključene raziskave	12
Tabela 3: Značilnosti pianistov za posamezno raziskavo.....	13
Tabela 4: Značilnosti raziskave - spremljanje napredka	16
Tabela 5: Značilnosti raziskave - izvedba intervencij	20
Tabela 6: Značilnosti raziskave - izidi.....	23

SEZNAM UPORABLJENIH KRATIC IN OKRAJŠAV

ADDS	angl. The arm dystonia disability scale (Lestvica nezmožnosti distonične roke)
EMG	Elektromiografija
FHD	angl. Focal hand dystonia (Žariščna distonija roke)
SICI	angl. short-interval-intracortical inhibition (kratek interval intrakortikalne inhibicije)
TCS	angl. The Tübiana and Chamagne scale (Tübianaova in Chamagnejeva lestvica)
tDCS	angl. transcranial direct current stimulation (transkranijska stimulacija z direktnim električnim tokom)
TMS	angl. Transcranial magnetic stimulation (transkranijska magnetna stimulacija)

1 UVOD

Za distonijo na svetu trpi tri milijone ljudi (Cloud, Jinnah, 2010). Ločimo generalizirano distonijo, ki prizadene oba spodnja uda in vsaj še en del telesa, hemi-distonijo, ki zajame eno stran telesa, segmentalno distonijo, ki zajame dva ali več sosednjih področij, multifokalno distonijo, ki zajame dva ali več področij, ki niso sosednja ter žariščno distonijo, ki prizadene en del telesa, po navadi roko ali obraz (Frucht, 2009; Cloud, Jinnah, 2010). Podrobneje jo ločimo na blefarospazem, ki je posledica prekomerne plastičnosti pri mežikanju (Quartarone et al., 2006), vratno (spasmodic torticollis), grleno (spasmodic dystonia) in ustno-čeljustno distonijo ter distonijo uda (Cloud, Jinnah, 2010). Če se distonija pojavi pred 30-im letom (Cloud, Jinnah, 2010) ali pri otrocih s simptomi distonije v stopalu, lahko pride do generalizirane distonije (Byl et al., 2000). Pojav simptomov po 30-em letu, v zgornjem udu pa sproži žariščno distonijo, ki navadno ne napreduje (Byl et al., 2000, Cloud, Jinnah, 2010).

V letu 1800 je Gowers opisal žariščno distonijo roke (angl.'focal hand dystonia', v nadaljevanju FHD) pri glasbenikih in jo poimenoval 'poklicna nevroza'. Sprva so mislili, da gre za psihološki vzrok nastanka, dokler nista Sheehy in Marsden v drugi polovici 20. stoletja pojasnila etiologijo nastanka FHD pri pisanju. Leta 1981 je bil Gary Graffan prvi diagnosticiran s FHD, Leon Fisher pa je prvi, ki je za zdravljenje predlagal injekcije Botulin toksina. Govorili so tudi o distoniji na ustnicah pri pihalcih in trobilcih, vendar je bila ta težava kompleksnejša. (Frucht, 2009).

Žariščna distonija prizadene 1% profesionalnih glasbenikov (Altenmüller et al., 2012). S skupno besedo jo imenujemo »Musician's cramp«, ki zajema zgornji ud, roko in ustnice (Richardson et al., 2017). Pogosteje prizadene moške, kar naj bi bila posledica hormonov, razlik v odnosu do dela in spopadanju s stresom (Altenmüller et al., 2012). V motoričnem korteksu pride do povečanja motoričnega področja roke in s tem večjega proprioceptivnega preliva v to področje (Rosenkranz, et al., 2009). Prekomerno povečanje področja vodi v hiperaktivnost in posledično zmanjšanje inhibicije le-tega (Furuya, et al., 2014), kar privede do izgube nadzora in koordinacije posameznih prstov (Berque et al., 2013). Pojavi se takoj, ko oseba prične igrati na inštrument in se kaže kot motena mišična koordinacija ali odsotnost hotenih gibov (Altenmüller et al., 2012). Povprečna starost pričetka je 36 let (Richardson et al., 2017), oziroma proti koncu izobraževanja ali na vrhuncu profesionalne kariere (Rosset-

Llobet et al., 2009). Prisotna je na ustnicah, vratu, zgornjemu udu, roki ter spodnjemu udu (Altenmüller et al., 2012). FHD prizadene glasbenike na pihalih, godalih, brenkalih in na glasbilih s tipkami (Altenmüller et al., 2012). Tolkalce pogosto prizadene distonija stopala, trobilce in pihalce pa distonija obraza (Bažon, 2015). Le ta je posledica daljšega trajanja vadbe, sprememb v tehniki igranja ali mehaniki inštrumenta ter izvajanja zahtevnejših skladb (Frucht, 2009). FHD se pojavi v bolj obremenjeni roki glede na igranje inštrumenta, upoštevati je potrebno tudi dominantno roko, ker obstaja večje tveganje za nastanek distonije, če je ista roka dominantna in obremenjena pri igranju (Altenmüller et al., 2012). Pri godalcih je distonija pogostejša v levi roki ali na desnem zgornjem udu in bolj je prisotna pri igranju na visokih godalih (Altenmüller et al., 2012). Pri brenkalcih in glasbilih s tipkami je pogosteje prizadeta desna roka, so pa glasbila s tipkami najpogosteje razlog za nastanek obojestranske FHD (Altenmüller et al., 2012). Pri flavtistih je pogosteje prizadeta leva pri klarinetistih in oboistih pa desna roka, kar je posledica kombinacije dolgotrajnega podpiranja inštrumenta s palcem in natančnih gibov ostalih prstov (Altenmüller et al., 2012). Frucht (2009) je navedel fenotipe FHD, ki se pri pianistih pojavi kot fleksija četrtega in petega prsta desne roke, pri violinistih četrtega in petega prsta leve roke, pri pihalcih pa kot izolirana ekstenzija tretjega prsta. Tveganje za nastanek distonije je manjše, če oseba začne z igranjem pred 10-im letom starosti (Ricgardson et al., 2017).

1.1 Značilnosti glasbenikov

Pogoj za dobro igranje je natančna izvedba hitrih in kompleksnih gibov telesnih segmentov, za kar je potrebno dolgoletno učenje, s katerim se doseže prostorsko in časovno natančnost ter nadzor nad izvedbo drobnega gibanja. Kljub temu, da glasbeniki pri igranju uporabljajo majhne mišice in mišične skupine, je za glasbenike pomembna tudi gibljivost, vzdržljivost, moč in koordinacija telesa. Pomemben je tudi močan in stabilen trup, ki vzdržuje telesno držo. Igranje na inštrument zahteva visoko kognitivno obremenitev. Frekvenca pulza se med igranjem poveča in spada med zmerno težko stopnjo intenzivnosti, kar je veliko več kot se pričakuje pri sedeči aktivnosti. Prav zaradi tega je pomembno, da so gibalne sposobnosti in telesna drža ustrezno razvite. To omogoči telesna aktivnost, ki okrepi in prekrvavi mišice, izboljša držo, poveča gibljivost in čvrstost sklepov, poveča dihalni volumen, okrepi srce, izboljša delovanje živčevja ter pozitivno vpliva na kognitivne procese. Pomembno je tudi

raztezanje trupa in zgornjih udov pred in po igranju, saj dlani in prsti takrat opravijo zelo veliko dela (Bažon, 2015).

Zaradi ne-ergonomsko oblikovanih inštrumentov je glasbenik izpostavljen nefiziološkemu položaju telesa, kar lahko vodi v mišično-skeletne težave, nagnjen je tudi k nevrološkim, kožnim, slušnim in psihičnim težavam, ki onemogočajo igranje (Bažon, 2015). Ulnarna nevropatija je pogosta v levi roki godalcev, sindrom zapestnega prehoda pa v desni roki pianistov (Frucht, 2009). Pogoste so tudi senzorične motnje v predelu ularnega in medianega živca ter dermatomih C6, C7 ali C8, zato je pomemben natančen pregled intrinzičnih in ekstrinzičnih mišic roke ter natančna obravnava ob ugotovitvi težave (Frucht, 2009). Da bi se izognili težavam, je najbolj pomembno, da glasbenik že na začetku osvoji pravilno tehniko igranja na inštrument (Bažon, 2015). Učinkovite so tudi tehnike zavedanja telesa (Alexander tehnika, Feldenkreis, joga), ki pomagajo razviti optimalno tehniko igranja (Bažon, 2015). Za boljšo biomehaniko prstov roke je učinkovita tudi počasna izvedba vaj, ki vpliva na lažje zavedanje in kontroliranje prstov roke (Frucht, 2009).

1.2 Dejavniki tveganja in ugotavljanje distonije

K patogenezi nastanka prispevajo poškodbe zgornjega uda (predhoden padec na iztegnjeno roko), anatomske spremembe, ki preprečujejo abdukcijo prstov, supinacijo in pronacijo podlaketi ter rotacijo rame, mikrotravme zaradi preobremenitve, kompresija živca v zapestju, 'thoracic outlet sindrom' (utesnitveni sindrom žil in živce v zgornjem delu trupa), stenoza vretenčne odprtine (foramen spinale) ter ponavljajoči gibi povezani s posameznikovo pred-dispozicijo, okoljskimi in fiziološkimi dejavniki (Byl et al., 2000; Cogiமானiam et al., 2009). Tudi genetika ima vlogo pri nastanku distonije (Byl et al., 200) in se deduje avtosomno dominantno (Beumer et al., 2016). Eden izmed fenotipov, ki lahko napove distonijo, je okvarjen homeostatičen nadzor plastičnosti, kar pomeni, da je aktivnost postsinaptičnih nevronov že povečana, zato se zmanjša učinkovitost procesov, ki vodijo v dolgotrajno povečanje impulza – na primer dolgoletno igranje na inštrument (Quartarone et al., 2006) ter interhemisferična inhibicija, ki je pri pozitivni zgodovini distonije v družini zmanjšana, z igranjem na inštrument pa se poveča (Beumer et al., 2016).

V povprečju preteče 10 let od pričetka simptomov do diagnoze FHD (Richardson et al., 2017). Pri diagnostiki je pomembno, da dobimo informacije o zgodovini poškodb roke, prisotnosti distonije v družini (Aranguiz et al., 2015), predhodnih učiteljih, šolanju, količini vaje in težavah pri zahtevnejših skladbah (Frucht, 2009). V anamnezo zabeležimo naslednje informacije: na kateri stopnji igranja je (učenec, amater, profesionalc), kdaj so se začele težave (na začetku igranja ali med igranjem), kje se pojavijo težave (pri igranju lestvice, akorda ali trozvoka), ali pride do težave nenadoma ali postopoma, z nihanjem ali brez, v enem prstu in ali se širi na sosednje, ali je stanje boljše, če zmanjša težavnost oz. trajanje vadbe, ali vaja izboljša ali poslabša simptome ter ali so prisotne še druge težave kot so šibkost, bolečina parestezija, otrplost (Frucht, 2009).

1.3 Patofiziologija nastanka distonije

Patofiziologija distonije ni dobro pojasnjena (Rosenkranz et al., 2000), predvideva se, da je prisotnih več različnih in kompleksnih mehanizmov (Cogiamaniam et al., 2009). Bolezen se redko pojavi akutno, ampak se razvija postopoma preko tednov in mesecev (Frucht, 2009). Prišlo naj bi do motenj v motoričnih področjih, ki prejemajo senzorni priliv iz mišičnega vretena. V motorični skorji, ki prejema impulze iz roke, pride do povečanega proprioceptivnega priliva (Rosenkranz, et al., 2009), kar se kaže v obeh hemisferah kot povečanje motoričnega področja roke (Richardson et al., 2017). Pri tem pride do odsotnosti inhibicije med agonistom in antagonistom, kar je posledica nenormalnega pošiljanja informacij iz roke v motorično in somatosenzorično skorjo, bazalne ganglije in hrbtenjačo, kar moti fino motoriko (Byl et al., 2003). Berque in sodelavci (2013) navajajo, da na pojav distonije vplivajo tudi motnje bazalnih ganglijev, saj ti spodbujajo izbrane motorične pobude in inhibirajo ostale (Rosenkranz et al., 2000). Če je prisotno neravnovesje med facilitacijo in inhibicijo, pride do širše aktivacije somatosenzoričnih področij v skorji, ki se kaže v slabši natančnosti določenega področja in sosednjih področij (Rosenkranz et al., 2000). Simptomi FHD pogosto nihajo, redko pa popolnoma prenehajo (Frucht, 2009). Specifično za FHD je, da lahko simptome izzovemo s specifično nalogo, z določenimi senzoričnimi spodbudami pa zmanjšamo intenzivnost kontrakcij a le začasno (Frucht, 2009). Pričnejo se v enem prstu in se razširijo na sosednje prste, redko kdaj pa sosednji prst preskočijo. Vzorec se skozi čas

ne spreminja in se najpogosteje kaže kot fleksija enega ali več prstov, redkeje pa kot izolirana ekstenzija ali kombinacija fleksije in ekstenzije (Frucht, 2009).

1.4 Posledice distonije

Dolgotrajna obremenitev prstov zaradi večje težavnosti skladb in količine vaje vpliva na možgansko plastičnost (Quartarone et al., 2006). Gre za fiziološki pojav, ki se kaže kot sposobnost živčnega sistema, da zaradi dolgotrajne vadbe povzroči spremembe v centralnem živčnem sistemu, ki se kažejo v številu nevronskih povezav in strukturnih spremembah možganske skorje – zaradi vadbe pride do povečanega motoričnega področja in s tem večjega proprioceptivnega priliva vanj (Shumway-Cook, Woollacott, 2012, 84, 99). Prekomerne spodbude pa sprožijo plastične spremembe in nekontroliran sinaptični učinek, ki postane nestabilen in obremeni vse ostale prilivne sistema (Quartarone et al., 2006). Ker so fini gibi kontrolirani preko velikega števila kortikalnih in subkortikalnih poti z ter iz senzoričnih receptorjev na roki dobivajo natančne povratne informacije, je pri pacientih s FHD reakcijski čas normalen, je pa natančnost gibov zmanjšana, čas izvedbe pa daljši (Byl et al., 2003). Zaradi navedenih sprememb pride do izgube nadzora in koordinacije posameznih prstov (Berque et al., 2013), kar negativno vpliva na glasbenikovo kariero, lahko pa se kaže tudi pri nalogah, kjer je potrebna fina motorika (van Vugt et al., 2014).

1.5 Zdravljenje distonije

Za zdravljenje FHD obstajajo različne intervencije, ki jih je priporočljivo med seboj kombinirati (Cogiamaniam et al., 2009). Senzorični trening omogoči bolj selektivno mišično aktivacijo in s tem ponovno pridobitev normalne percepcije zgornjega uda v možganski skorji (Cogiamaniam et al., 2009). Na začetku apliciramo intenziven taktilen dražljaj da omogočimo primerno razločevanje, kasneje pa intenziteto dražljaja zmanjšujemo (Byl et al., 2003). Vplivanje na proces možganske plastičnosti mora biti previdno kontroliran, zato težavnost treningov postopoma stopnjujemo, da ne pride do prehitrega povečanja proprioceptivnega priliva v obravnavano motorično področje (Quartarone et al., 2006). Vadba, ki vpliva na možgansko plastičnost v možganih povzroči obojestranske spremembe

senzomotorične skorje (Frucht, 2009). Imobilizacija ne-distoničnega prsta spodbuja distoničnega k normalnemu gibanju (Cloud, Jinnah, 2010). Imobilizacija roke temelji na principu od neaktivnosti odvisna neuro-plastičnost, ki zmanjša pošiljanje motoričnih impulzov in s tem zmanjša količino aferentnega priliva (Cogiamaniam et al., 2009). Transkranična magnetna stimulacija (Transcranial magnetic stimulation - TMS) temelji na aplikaciji magnetnega toka zunaj lobanje, ki vzdraži nevrone in povzroči akcijski potencial (Cogiamaniam et al., 2009). Vibracija mišice pa povzroči facilitacijo agonista in inhibicijo antagonista (Rosenkranz et al., 2000). Vadba, ki jo izberemo za zdravljenje FHD naj bo čimbolj usmerjen v funkcijo in prilagojen posamezniku (Byl et al., 2003). Zajema naj kombinacijo različnih intervencij in se prične čimprej po prepoznavi simptomov (Cogiamaniam et al., 2009). Gre za dolgotrajen proces, zato bi bilo nenavadno, da bi ozdravitev dosegli v treh do šestih mesecih (Byl et al., 2000). Tudi trajanje učinkov zdravljenja še ni natančno znano (Quartarone et al., 2006).

Za farmakološko zdravljenje se najpogosteje uporablja Trihexyphenidil, ki spada med antiholinergike, ki so najučinkovitejši pri zdravljenju distonije in injekcije Botulin toksina, ki ga injiciramo v distonično mišico in tako odpravimo simptome, ne pa vzroka (Frucht, 2009; Cloud in Jinnah, 2010). Za ostale vrste distonije se uporablja še baklofen, benzodiazepin, dopaminergike (levodopa), klozapi, terabenazin (Cloud, Jinnah, 2010).

Če pri pacientu zdravila ne učinkujejo, se opravi operacijo, da ne bi poslabšanje distonije vodilo v zmanjšano gibljivost (Cloud, Jinnah, 2010). Globoka možganska stimulacija notranjega globusa pallidusa je najbolj uporabljen kirurški poseg, pri katerem se učinki pokažejo šele po nekaj tednih ali mesecih (Cloud, Jinnah, 2010). Učinkovita je tudi talamotomija ventralisa oralis anterior na kontralateralni strani od prizadete strani (Frucht, 2009). Selektivna periferna deinervacija je tudi varen in učinkovit poseg a le za določeno skupino oseb z distonijo vratu (Cloud, Jinnah, 2010).

2 NAMEN

Namen diplomske naloge je na podlagi pregleda literature predstaviti učinkovitost fizioterapevtskih in farmakoloških postopkov zdravljenja pri glasbenikih z žariščno distonijo prstov roke.

3 METODE DELA

Za diplomsko nalogo smo uporabili opisno metodo dela s pregledom literature. Članke, ki so vključeni v pregled literature smo iskali na podatkovni bazi PubMed. Pri člankih dobljenih v navedeni podatkovni bazi, pa smo uporabili metodo Snežne kepe za nadaljnjo iskanje primerne literature. Iskanje literature je potekalo med decembrom 2018 in septembrom 2019. Ključne besede, ki smo jih pri iskanju uporabili so: musicians, focal hand dystonia, retraining.

Vključitveni kriteriji:

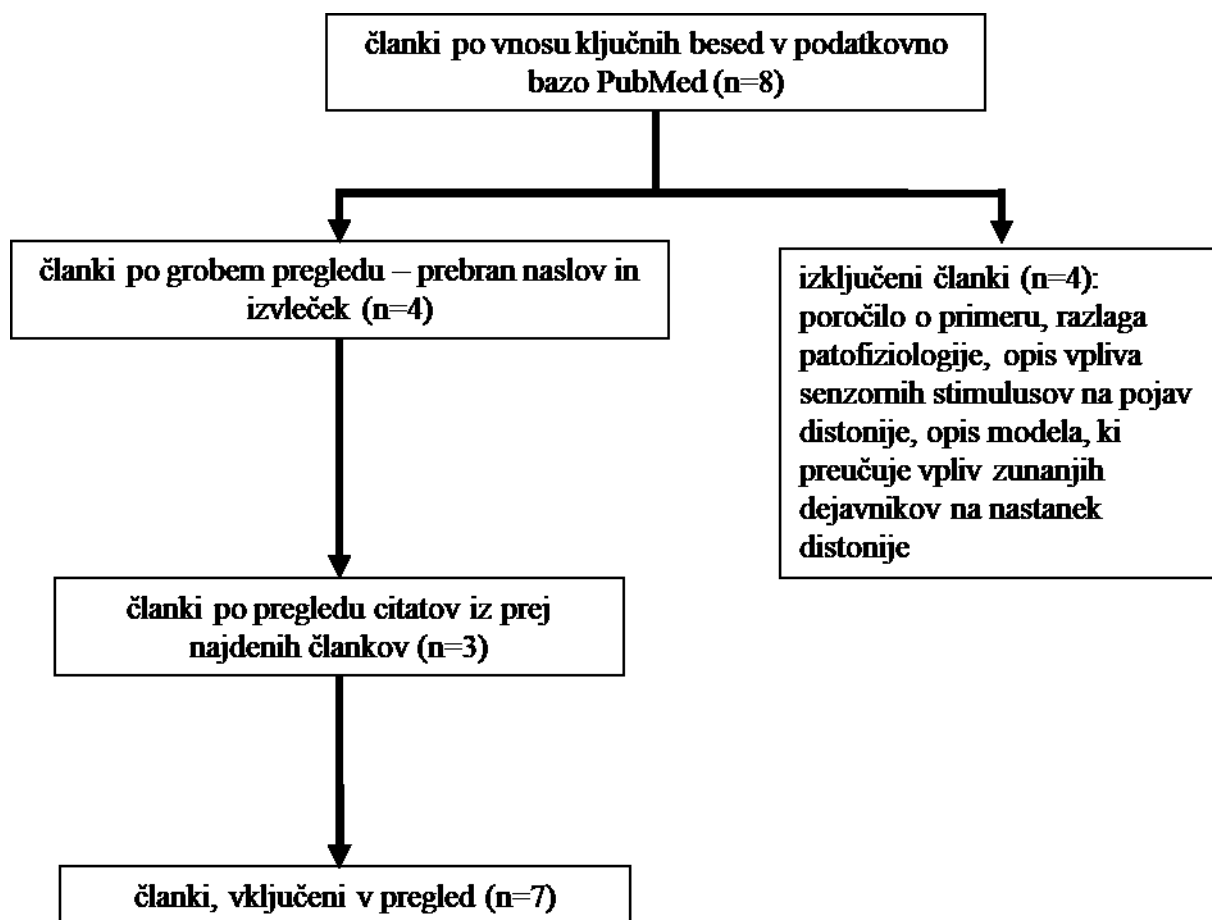
- članki v angleškem jeziku,
- članki izdani med letom 2002 do 2019,
- v članku so uporabljeni fizioterapevtski postopki in druge oblike zdravljenja v kombinaciji ali primerjani s fizioterapevtskimi postopki,
- v raziskavo so vključeni glasbeniki z žariščno distonijo.

Izključitveni kriteriji:

- članki starejši od leta 2002,
- poročilo o primeru ali pregled literature,
- v članku niso ovrednoteni fizioterapevtski postopki,
- v raziskavo so poleg glasbenikov vključene tudi osebe pri katerih žariščna distonija prstov roke ni posledica igranja na inštrument.

4 REZULTATI

Z navedenimi ključnimi besedami smo na podatkovni bazi PubMed dobili osem člankov. Glede na prebrane izvlečke, smo štiri članke izključili zaradi naslednjih razlogov: poročilo o primeru, razlaga patofiziologije, opis vpliva senzornih dražljajev na pojav distonije in opis modela, ki preučuje vpliv zunanjih dejavnikov na nastanek distonije. Od dobljenih štirih člankov (Berque et al., 2010 in 2013, Furuya et al., 2014, van Vugt et al., 2014) ni bil nobeden dostopen preko podatkovne baze PubMed, a smo jih preko Google brskalnika (vtipkali smo naslov članka in spredaj dodali kratico PDF) dobili dostopne na strani ResearchGate. Zaradi premajhnega nabora literature smo v dobljenih člankih pogledali koga so citirali ter na podlagi vključitvenih in izključitvenih kriterijev našli še tri članke. Iz članka Berquea in sodelavcev (2013) smo našli dva članka (Canadia et al., 2002 in Rosenkranz et al., 2009), iz članka van Vugta in sodelavcev (2014) pa en članek (Jabusch et al., 2005). Navedene članke smo iskali preko Google brskalnika, na enak način kot je navedeno zgoraj. Članek Rosenkranzove in sodelavcev (2009) je bil dostopen na spletni strani The Journal of Neuroscience, članek Canadia in sodelavcev (2002) ter Jabuscha in sodelavcev (2005) pa smo našli na spletni strani ResearchGate. Pridobivanje člankov je na kratko predstavljeno na Sliki 1, sinteza podatkov iz posameznega članka pa je navedena v prilogi.



Slika 1: Shema pridobivanja člankov za pregled

4.1 Značilnosti preiskovancev

Preiskovanci so bili stari od 30 do 61 let, trajanje simptomov je bilo v vseh raziskavah že kronično. Najkrajše trajanje simptomov je bilo dve leti, najdaljše pa skoraj 35 let. V raziskavi Rosenkranzove in sodelavcev (2009) ter Furuya in sodelavcev (2014) o trajanju simptomov niso poročali. Celotno število preiskovancev v analiziranih raziskavah je bilo 263, od tega 187 moških in 54 žensk. Skupaj smo zajeli 257 glasbenikov, od tega 239 z distonijo in 18 zdravih glasbenikov ter šest zdravih ne-glasbenikov. V raziskavi Jabucha in sodelavcev (2005) je imelo 20 preiskovancev distonijo na ustnicah. Glede na podatke, ki so bili na voljo v treh od sedem raziskav (Canadia et al., 2002; Rosenkranz et al., 2009 in Berque et al., 2010), je bilo več profesionalnih glasbenikov (32) kot amaterskih (1). Jabuch in sodelavci (2005) so edini, ki so svoje preiskovance razdelili glede na službeni status (solist, orkestraš, učitelj, študent). Med glasbeniki so bil najbolj zastopani pianisti (130) (značilnosti so prikazane v Tabeli 3), ki so bili prisotni v vseh raziskavah, razen v raziskavah Berquea in

sodelavcev (2010, 2013). Ostali inštrumenti so bili še kitara (4), flavta (4), oboa (2), harmonika (2), orgle (5) in škotske dude (1). Jabuch in sodelavci (2005) so v svoji raziskavi opredelili le klavir, ostalo so navedli kot nadpomenke: godala, brenkala, pihala in trobila. V treh raziskavah (Canadia et al., 2002; Berque et al., in van Vugt et al., 2014), niso vsi preiskovanci opravili celotnega postopka. Skupno je iz raziskav izpadlo 42 preiskovancev. Največji izpad je bil prisoten pri van Vughtu in sodelavcih (2014), kjer jih je 33 izpadlo iz objektivne analize, v subjektivni analizi pa so bili vključeni vsi. Povzetek značilnosti preiskovancev za posamezno raziskavo je prikazan v Tabeli 2.

Tabela 1: Značilnosti preiskovancev za v pregled vključene raziskave

Značilnosti	Canadia et al., 2002	Jabusch et al., 2005	Rosenkranz et al., 2009	Berquet et al., 2010	Berquet et al., 2013	Furuya et al., 2014	van Vugt et al., 2014
Starost (leta)	30-70	42 (pov.)	34 (pov.) ZP 31±2 ZG 33±3 GD	30-55	47-53	M: 39,6 Ž: 24-61	44,8±12,9
Spol (M/Ž)	9/2	116/28	/	7/1	3/1	12/8	40/14
Število preiskovancev	11	144	22	8	4	20	54
Trajanje simptomov (leta)	2-34	5,1 (pov.)	/	28-4	28-4	/	34,6±11,4
Inštrument	klavir, kitara, flavta, oboa	klavir, godala, brenkala, pihala, trobila	klavir	kitara, flavta, dude, oboa, harmonika	Kitara, flavta	klavir	klavir, orgle, harmonika
Profesionalec/ama-ter	10/1	74 solistov, 25 učiteljev, 24 orkestrašev, 21 študentov	16/0	6/2	/	/	/
Zdravi/ bolni	0/11	0/144	8/8	0/8	0/4	10/10	0/54
Glasbeniki/neglasbeniki	11/0	144/0	16/6	8/0	4/0	20/0	54/0
Izpad preiskovancev	7	0	0	3	0	0	33 iz objektivne analize

Legenda: (/ni podatka; ZP-zdravi posamezniki, ZG-zdravi glasbeniki, GD-glasbeniki s FHD, Ž-ženske, M-moški, pov.-povprečno)

Tabela 2: Značilnosti pianistov za posamezno raziskavo

	Canadia et al., 2002	Jabusch et al., 2005	Rosenkranz et al., 2009	Furuya et al., 2014	van Vugt et al., 2014
Število pianistov	6	40	16	20	48 (22)
Starost (leta)	39-70	//	31±2 zdravi 33±3 distonija	M: 39,6 Ž: 24-61	//
Spol (M/Ž)	4/2	//	/	12/8	//
Trajanje simptomov (leta)	3-34	//	/	/	//
Profesionalec/ amater	6/0	//	16/0	/	//
Zdravi/ bolni	0/6	0/40	8/8	10/10	0/48
Izidi	mehkejši in jasnejši gibi	//	<u>Zdravi glasbeniki</u> : pri vibraciji APB, zmanjšana inhibicija FDI in povečana v ADM (isto pri vibraciji FDI), pri vibraciji ADM, povečana inhibicija v APB in FDI; ni sprememb v igranju klavirja <u>Glasbeniki z distonijo</u> : oboji rezultati so podobni zdravim glasbenikom	ni razlik v zdravi roki, zmanjšana variabilnost ritma pri stimulaciji CaAu.	<u>Objektivna analiza</u> : izboljšanje pri 43%, brez sprememb pri 52%, poslabšanje pri 4,8%. <u>Subjektivna analiza</u> : //
Trajanje izboljšanja	/	/	Do 24 ur	71,2% po 4-ih dneh (testirali 4 pianiste)	/

Legenda: (/ni podatka, //-ne moremo določiti, M-moški, Ž-ženske, APB-abductor pollicis brevis, ADM-abductor digiti minimi, FDI-prvi interosseus dorsalles, CaAu-katoda na prizadeti strani, anoda na zdravi strani)

4.2 Spremljanje napredka

V vseh sedemih raziskavah so uporabili enega ali kombinacijo merilnih protokolov za merjenje napredka v kvaliteti igranja in pojavnosti simptomov. Raziskave so trajale različno dolgo. Najkrajša raziskava je trajala dva dni, ki so jo izvedli Rosenkranzova in sodelavci (2009), najdaljša pa je bila raziskava Berquea in sodelavcev (2013), ki je trajala štiri leta in je bila nadaljevanje raziskave iz leta 2010. Jabuch in sodelavci (2005) trajanja niso navedli, Furuya in sodelavci (2014) pa so navedli, da so preiskovanci opravili pet obiskov, z vmesnimi dvo tedenskimi premori. Število meritev je bilo izvedeno enkrat do osem-krat znotraj raziskave. Tri raziskave so za zbiranje podatkov uporabile vprašalnik, kjer so dobili podatke glede učinkovitosti terapije ali kombinacije le-teh, ki so jih izbrali (Jabuch et al., 2005; van Vugt et al., 2014). Van Vugt in sodelavci so zbrali tudi podatke glede simptomov in vpliva le-teh na vsakdanjik. Berque in sodelavci (2013) pa so iz vprašalnika dobili podatke glede količine vadbe vsakega posameznika. Lestvica za ocenjevanje distonije (angl. Dystonia evaluation scale; Canadia et al., 2002) ima štiri, Lestvica nezmožnosti distonične roke (angl. The arm dystonia disability scale _ ADDS; Berque et al., 2010, 2013) tri, Tubianova in Chamagnejeva lestvica (The Tubiana and Chamagne scale _ TCS; Berque et al., 2010, 2013) pa pet stopenj. Vse tri so v raziskavah uporabili za ocenjevanje kvalitete igranja glede na pojavnost simptomov (Berque et al., 2010, 2013; Canadia et al., 2002). Vizualna analogna lestvica ima deset stopenj in so jo v raziskavi Rosenkranzove in sodelavcev (2009) uporabili za subjektivno oceno sprememb pri igranju. Z Lestvico števila abnormalnih gibov (The frequency of abnormal movements; Berque et al., 2010, 2013) so ugotavljali kolikšno je število nenamernih gibov distoničnega prsta ter ostalih prizadetih prstov v eni sekundi, kar je spremljal eden izmed preiskovalcev (Berque et al., 2010, 2013). Tempo metronoma se je gibal med 60 in 200 utripov na minuto, število tonov na udarec pa med enim in štirimi toni. Canadia in sodelavci (2002) so začeli na 60 udarcih na minuto, nato pa tempo večali in postopoma manjšali. Berque in sodelavci (2010, 2013) so tempo prilagajali glede na pojav simptomov. V raziskavah Rosenkranzove in sodelavcev (2009), van Vugta in sodelavcev (2014) ter Furuye in sodelavcev (2014) je hitrost metronoma bila fiksna. Najhitrejši tempo je bil 200 udarcev na minuto (Rosenkranz et al., 2009), sledilo mu je 120 udarcev na minuto in štirje toni na udarec -šestnajstinke (van Vugt et al., 2014). Če preiskovanci te hitrosti niso zmogli, so tempo znižali na 80 ali 40 udarcev na minuto (van Vugt et al., 2014). Furuya in sodelavci so hitrost nastavili na 100 udarcev na minuto, preiskovanci pa so znotraj enega udarca morali zaigrati tri tone - triola. Preiskovanci v

raziskavi Berquea in sodelavcev (2010) so si sami izbrali dve skladbi (lažjo in težjo), pri katerih je prišlo do simptomov distonije. Osnovni tempo je bil originalen tempo skladbe, pri katerem so morali prvi dan raziskave igrati vsaj tri minute, kar so uporabili pri analizi. V ostalih raziskavah so preiskovanci zaigrali določeno zaporedje tonov samo s prizadeto roko (Rosenkranz et al., 2009), z obema rokama (Furuya et al., 2014), igranje samo z distoničnim prstom (Furuya et al., 2014) ali pa so zaigrali lestvico navzgor in navzdol (van Vugt et al., 2014). Rosenkranzova in sodelavci (2009) so uporabili še različni obliki glasnosti (srednje tiho - pp, srednje glasno - mf) in notnih zapisov (vezano - legato, ločeno - staccato), s katerim so preverjali prisotnost notnih prekrivanj. Canadia in sodelavci (2002) so za meritve spretnosti uporabili napravo za ocenjevanje spretnosti premikanja prstov roke (dexterity and displacement device), ki je zaznavala neenakomerne gibe med igranjem z dvema prstoma glede na tempo metronoma. Enakomernost igranja so merili s trajanjem prehajanja med toni (van Vugt et al., 2014; Rosenkranz et al., 2009). Raziskava Rosenkranzove in sodelavcev (2009) je izvedla tudi TMS, s katero so prožili impulze na distonično mišico *abductor policis brevis*. Z elektromiografijo (EMG) pa so merili električno aktivnost za mišico *abductor digiti minimi*, prvi *interosseus dorzales* in *abductor policis brevis*. S kratkimi enojnimi ali dvojnimi impulzi so izmerili kratko intervalno intrakortikalno inhibicijo (short-interval-intracortical inhibition - SICI). Med vibracijo ali brez prisotnosti vibracije mišice *abductor policis brevis*, *abductor digiti minimi* in prve *interosseus dorzales* so aplicirali impulze vsakih pet sekund. Vibracija je bila aplicirana na 1,5 sekunde, enojni impulz iz TMS-ja pa po eni sekundi trajanja vibracije. Med vibracijo so s pomočjo EMG-ja spremljali morebitne mišične kontrakcije. V Tabeli 4 so prikazani podatki glede spremljanja napredka za posamezno raziskavo.

Tabela 3: Značilnosti raziskave - spremljanje napredka

	Trajanje raziskave	Ocenjevalni protokoli	Število meritev
Canadia et al., 2002	8 dni; 1 leto (nadaljevanje)	DES, naprava za ocenjevanje spretnosti premikanja prstov, metronom (60 udarcev/min, postopno višanje in nižanje, 1 ton/udarec).	7 (1., 4., 8. dan; 1., 3., 4., 6. in po mesecu zadnjega testiranja)
Jabusch et al., 2005	/	Vprašalnik	1 (po izpolnitvi vprašalnika)
Rosenkranz et al., 2009	2 dni	VAL, čas trajanja prehajanja med toni (glasnost), prisotnost notnih prekrivanj (notni zapis), TMS, EMG, SICI, 10 ciklov vaj na klavir s 5-imi prsti, metronomom (200 udarcev/min, 1 ton/udarec).	2 (ob obisku in preko telefona)
Berque et al., 2010	1 leto	FAM, ADDS, TCS, 2 skladbi (lahka, težka), metronom (prilagajanje tempa glede na pojavnost simptomov).	8 (1. in 8. dan, nato pa vsaka 2 meseca)
Berque et al., 2013	4 leta po zaključku raziskave iz 2010	Enako kot pri raziskavi iz leta 2010 vprašalnik.	1 (po 4-ih letih)
Furuya et al., 2014	5 obiskov (na 2 tedna)	Izvedba zrcalnih gibov z obema rokama s kazalcem, sredincem, prstancem in mezincem 8 sekund; pritiskanje z distoničnim prstom na tipko 6 sekund, čas trajanja prehoda med toni, metronom (100 udarcev/min, 3 toni/udarec)	5 (vsak obisk)
van Vugt et al., 2014	3 mesecev	<u>Subjektivna analiza:</u> Vprašalnik <u>Objektivna analiza:</u> igranje C dur lestvice čez 2 oktavi navzgor in navzdol z metronomom, čas trajanja prehajanja med toni v obe smeri	2 (po vsaki izpolnitvi vprašalnika – na 3 mesece)

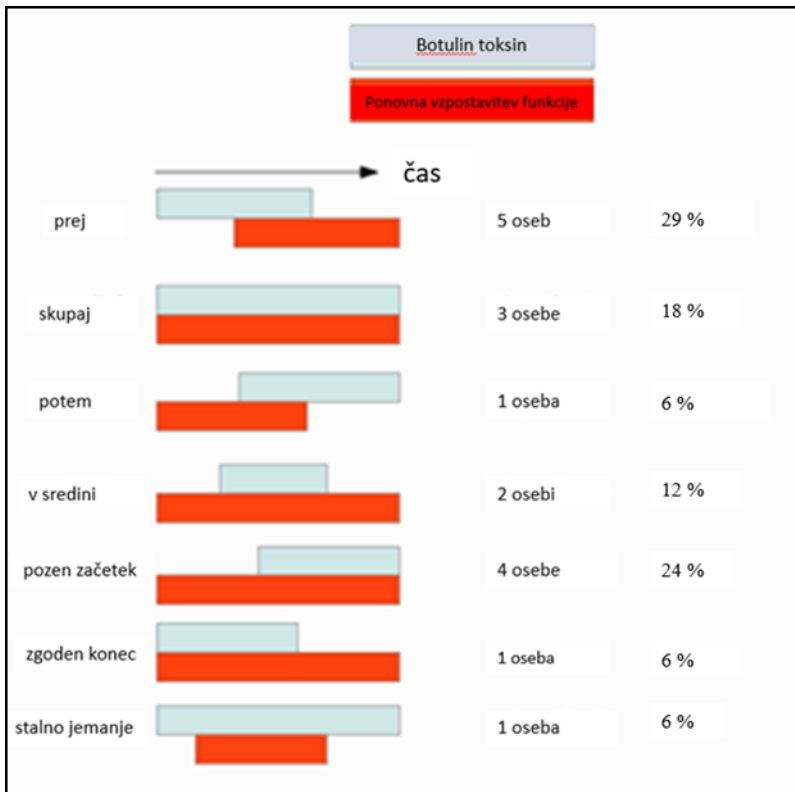
Legenda: (/ -ni podatka, DES- Lestvica za ocenjevanje distonije, VAL-Vizualna analogna lestvica, FAM- Lestvica števila abnormalnih gibov, ADDS- Lestvica nezmožnosti distonične roke, TCS- Tubianova in Chamagnejeva lestvica, TMS-traskranialna magnetna stimulacija, EMG-elektromiografija, SICI- kratek interval intrakortikalne inhibicije)

4.3 Intervencije

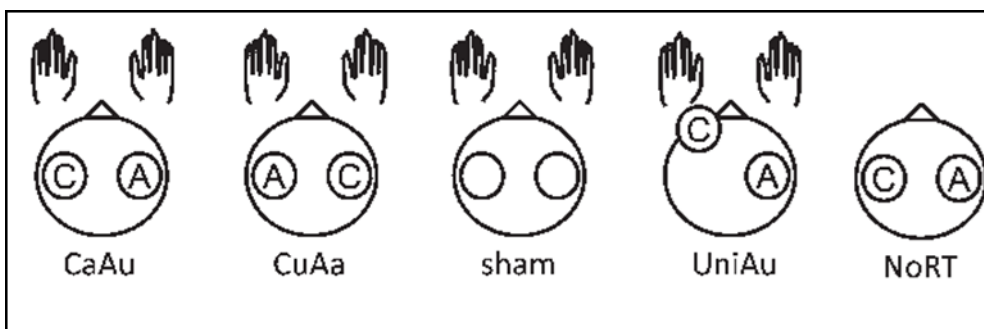
Raziskave zajemajo kombinacijo farmakološkega in ne-farmakološko zdravljenja. Štiri raziskave (Canadia et al., 2002; Jabuch et al., 2005; Berque et al., 2010 in 2013) so s pomočjo

imobilizacije kompenzatornega prsta omogočile distoničnemu prstu normalno gibanje in s tem igranje na inštrument (31). Canadia in sodelavci (2002) so za preiskovance pripravili pet kombinacij vaj z dvema ali tremi prsti (tudi distoničen prst) z vmesnimi dve minutnimi pavzami. Preiskovanci, ki so v inštrument morali pihati, tega med vajami niso počeli. Berque in sodelavci (2010) so prav tako pripravili pet kombinacij vaj, vsako po 10 minut z dve minutnimi odmori. Po prvi seriji je sledil 10 minutni odmor, nato pa nova serija petih kombinacij. Pri treh od petih vaj so preiskovanci pihali v inštrument, če je bila takšna njegova narava igranja. Jabuch in sodelavci (2005) so v svoji raziskavi imobilizacijo, počasno igranje in vidno simulacijo obravnavali kot ponovno vzpostavitev funkcije, medtem ko van Vugt in sodelavci (2014) ponovno vzpostavitev funkcije niso natančno opredelili. Berque in sodelavci (2010) so po enem tednu raziskave dodali še počasno igranje (slow down exercises), kjer so preiskovanci igrali skladbi, ki so ju izbrali pri maksimalni hitrosti, pri kateri še ni bilo prisotnih simptomov. Za večjo motivacijo pa so lahko igrali tudi druge skladbe v počasnem ali normalnem tempu. V raziskavi iz leta 2013 so ta postopek izvajali doma: 30 do 60 minut vaj z opornico, 30 minut počasnega igranja ter nekaj minut izvajanja drugih skladb. Pri treh raziskavah (Jabuch et al., 2005; Berque et al., 2010; Furuya et al., 2014) so pri izvajanju vaj uporabili tudi vidno stimulacijo. Preiskovanci v raziskavi Furuye in sodelavcev (2014) so izvajali zrcalne gibe tri-krat po osem minut z vmesnimi 30 sekundnimi pavzami s kazalcem, sredincem, prstancem in mezincem. Znotraj vaj so dodali pet različnih načinov transkranijske stimulacije z direktnim električnim tokom (transcranial direct current stimulation-tDCS) (Slika 3). Vrsten red stimulaciji je bil pri treh dvojno slep (katoda na prizadeti strani, anoda na zdravi strani; katoda na zdravi strani, anoda na prizadeti strani in posnemanje delovanje tDCS-ja s katodo na prizadeti strani in anodo na zdravi strani), pri dveh pa enojno slep (enostranska stimulacija, anoda je na zdravi strani, katoda nad levo orbito in obojestranska stimulacija brez treninga s katodo na prizadeti strani in anodo na zdravi strani). Med vajo so potekale stimulacije s katodo na prizadeti strani in anodo na zdravi strani; katodo na zdravi strani in anodo na prizadeti strani ter enostranska stimulacija, z anodo na zdravi strani in katodo nad levo orbito. Med pavzo pa je bilo prisotno posnemanje delovanja tDCS-ja s katodo na prizadeti strani in anodo na zdravi strani. Po končanih osmih serijah so še pet minut izvajali obojestransko stimulacijo brez treninga, s katodo na prizadeti strani in anodo na zdravi strani. Elektrode so postavili na lokacijo C3 in C4 (primarna motorična skorja), stimulacija je potekala čez celoten trening pri jakosti 2 mA. Štirje pianisti so ponovno opravili stimulacijo samo s katodo na prizadeti strani in anodo na zdravi strani, rezultate igranja so zabeležili pred, po in štiri dni po stimulaciji.

Rosenkranzova in sodelavci (2009) so izvajali propioceptivni trening z vibracijo mišic *abductor policis brevis*, *abductor digiti minimi* in prve *interosseus dorzales*, ki so jih izbrali naključno. Amplituda vibracije se je gibala med 0,2 in 0,5 mm in trajala dve sekundi, sledili sta dve sekundi premora. Znotraj dveh sekund se je vibracije v zadnjih 300 ms spremenila iz 80 Hz na 67,5 ali 72,5 ali 77,5 Hz. Preiskovanec je med premorom povedal, ali je prišlo do spremembe v frekvenci impulza. Intervencije, ki so bile še uporabljene, so tehnike zavedanja telesa (Feldenkreis, dispokinezija, Aleksander tehnika), nespecifične vaje na inštrument, ergonomske prilagoditve, terapija roke, sprostivne tehnike, fizioterapija – postopek ni naveden, psihoterapija, akupunktura in menjava učitelja. V štirih raziskavah je bilo potrebno intervencije izvajati tudi doma. Canadia in sodelavci (2002) so preiskovancem naročili naj eno uro na dan vadijo z opornico, 10% časa celotne vaje pa brez opornice. Podobno so storili Berque in sodelavci v obeh raziskavah (2010, 2013), kjer so z opornico vsak dan vadili 30 do 60 minut ter 30 minut skladbe s počasnim igranjem in nekaj minut skladbe brez počasnega igranja. Rosenkranzova in sodelavci (2009) pa so preiskovancem naročili naj doma štiri ure in 24 ur po vibraciji ponovno izvedejo vajo s petimi prsti ter zaigrajo skladbo po lastni izbiri. V dveh raziskavah (Jabuch et al., 2005; van Vugt et al., 2014) so poleg ne-farmakološkega zdravljenja uporabili Trihexyphenidyl (97), s povprečnim dnevnim odmerkom med 2,7 g do 11 g in trajanjem jemanja med dva do 21,5 mesecev in z Botulin toksinom (98) kjer se je gibal odmerek med 24,1 do 128 enot, število injiciranj pa med 4,1 do 41 znotraj 16 do 38,2 meseca. Mišice v katere so Botulin najpogosteje aplicirali sta *flexor digitorum superficialis* in *flexor digitorum profundus* (Jabuch et al., 2005). V raziskavi van Vugta in sodelavcev (2014) je 17 preiskovancev poleg Botulin toksina izvajalo še ponovno vzpostavitev funkcije (Slika 2). 42% preiskovancev je pričelo z izvajanjem ponovne vzpostavitve funkcije in kasneje začelo z jemanjem Botulin toksina, 35% je najprej prejelo Botulin toksin in šele potem začelo s ponovno vzpostavitvijo funkcije, 24% pa je z obema intervencijama začelo istočasno (van Vugt et al., 2014). Jabuch in sodelavci (2005) niso navedli ali je zdravilo bilo uporabljeno kot samostojna metoda ali v kombinaciji z drugimi postopki. V prej navedenih raziskavah so si preiskovanci sami izbrali eno ali več različnih terapij, vendar natančnega podatka niso navedli. Za posamezno raziskavo so podatki o načinu izvajanja intervencij zbrani v Tabeli 5.



Slika 2: Podrobnejši prikaz časovnega zaporedja glede jemanja Botulin toksina v kombinaciji z izvajanjem ponovne vzpostavitve funkcije (n=17) (van Vugt et al., 2014)



Slika 3: Vrste transkranijske stimulacije z direktnim električnim tokom
 Legenda: (A-anoda; C-katoda; CaAu-katoda na prizadeti strani, anoda na zdravi strani; CuAa-katoda na zdravi strani, anoda na prizadeti strani; sham-samo posnema delovanje tDCS, postavitev enaka kot pri CaAu; UniAu-unihemisferična stimulacija, anoda je na zdravi strani, katoda nad levo orbito; NoRT-bihemisferična stimulacija brez treninga, postavitev enaka kot pri CaAu) (Furuya et al., 2014)

Tabela 4: Značilnosti raziskave - izvedba intervencij

	Intervencije	Vadba doma
Canadia et al., 2002	Imobilizacija kompenzatornega prsta, igranje z 2 ali 3 prsti navzgor in navzdol (5 kombinacij).	1 ura na dan vaje z opornico in 10% časa vaje brez opornice
Jabusch et al., 2005	Trihexyphenidyl (69), injekcije Botulin toksina (71), ponovna vzpostavitev funkcije (z omejevanjem spodbujajoča terapija, vidna stimulacija z ogledalom ali ekranom in tehnike zavedanja telesa) (24), ergonomske prilagoditve (51), izvajanje nespecifičnih vaj na inštrument (78).	/
Rosenkranz et al., 2009	Vibracija mišice APB, ADM in FDI.	Vaje s 5-imi prsti, skladba po lastni izbiri
Berque et al., 2010	Izvedba 5 kombinacij prstnih redov z mobilizacijo prstov, ki povzročajo nenamenske gibe; SDE brez opornice z ogledalom (dodana po 1 tednu), igranje drugih skladb počasi ali v normalnem tempu.	Vsakodnevna vaja kombinacij prstnih redov 30 do 60 min., skladbe s SDE 30 min. in brez SDE nekaj min.
Berque et al., 2013	Enako kot pri raziskavi iz leta 2010	Enako kot pri raziskavi iz leta 2010
Furuya et al., 2014	Izvajanje zrcalnih gibov z obema rokama s kazalcem, sredincem, prstancem in mezincem z metronomom 8-krat 3 minute s 30 sekundnimi pavzami; TCS (CaAu, CuAa, UniAu, sham, NoRT)	Niso izvajali
van Vugt et al., 2014	Ponovna vzpostavitev funkcija (47), botulin toksin (27), Trihexyphenidyl (28), terapija roke (23), sprostitvene tehnike (21), fizioterapija (16), psihoterapija (12), akupunktura (11), tehnike kot so Feldenkreis, Aleksander tehnika in Dispokinezija (11), menjava učitelja (5).	/

Legenda: (/ -ni podatka; številka v oklepaju -število preiskovancev, ki je prejelo določeno intervencijo; APB-abductor policis brevis; ADM-abductor digiti minimi; FDI-prvi interosseus dorsalles; tDCS- transkranijska stimulacija z direktnim električnim tokom; CaAu-katoda na prizadeti strani, anoda na zdravi strani; CuAa- katoda na zdravi strani, anoda na prizadeti strani; sham-samo posnema delovanje, postavitev enaka kot pri CaAu; UniAu-unihemisferična stimulacija, anoda je na zdravi strani, katoda nad levo orbito; NoRT-bihemisferična stimulacija brez treninga, postavitev enaka kot pri CaAu)

4.4 Predstavitev izidov po zgornjem pregledu

Jabuch in sodelavci (2005) so poročali o izboljšanju pri 33% preiskovancih, ki so prejeli Trihexyphenidyl. Pri 29% preiskovancev so znotraj dveh mesecev zdravljenje prekinili zaradi stranskih učinkov ali nezadovoljstva z rezultati. Večkratno injiciranje Botulin toksina je prejelo 75% preiskovancev. Z enkratnim odmerkom je do izboljšanja prišlo pri 49%, z večkratnim injiciranjem pa pri 42% preiskovancev. Pri aplikaciji Botulin toksina v podlaket in roko sta o izboljšanju poročala dva pianista, dva pihalca in trije kitaristi, vsi pa so imeli simptome distonije na desni roki (Jabuch et al., 2005). Pri takšnem načinu aplikacije ni prišlo do izboljšanja pri enem kitaristu in dveh godalcih, ki pa so imeli prisotne simptome na levi roki (Jabuch et al., 2005). Do izboljšanja ni prišlo tudi pri aplikaciji injekcije v nadlaket oz. ramo pri dveh preiskovancih in z aplikacijo injekcije samo v nadlaket pri dvanajstih preiskovancih (Jabuch et al., 2005). Raziskave, kjer so uporabljali imobilizacijo, je prišlo do mehkejših in jasnejših gibov pri pianistih in kitaristih, pri oboistu je prišlo do začasnega izboljšanja, pri flautistu izboljšanja ni bilo (Canadia et al., 2002). Jabuch in sodelavci (2005) so poročali o izboljšanju pri 12-ih preiskovancih, Berque in sodelavci (2010) pa so opazili zmanjšanje nenamernih gibov pri lažji in težji skladbi, hitrejšo izvedbo obeh skladb ter statistično značilne razlike na lestvici TCS in ADDS. Po štirih letih so Berque in sodelavci (2013) ugotovili, da razlika ni statistično značilna v številu nenamernih gibov (zmanjšano pri lažji, nespremenjeno pri težji skladbi), hitrosti metronoma (povečano pri lažji, zmanjšano pri težji skladbi) ter lestvicah TCS in ADDS med prvim in četrtem letom. Furuya in sodelavci (2014) v zdravi roki ter pri igranju distoničnega prsta niso ugotovili razlik, v distonični roki pa zmanjšano variabilnost ritma pri stimulaciji s katodo na prizadeti strani in anodo na zdravi strani. Štiri dni po stimulaciji samo s katodo na prizadeti strani in anodo na zdravi strani je bilo izboljšanje 71,2% glede na prvi dan. Van Vugt in sodelavci (2014) so z objektivno analizo ugotovili 43% izboljšanje, 4,8% poslabšanje in 52% nespremenjeno stanje. S subjektivno analizo pa so ugotovili, da so bili preiskovanci najbolj zadovoljni z rezultati ponovne vzpostavitve funkcije, najmanj pa s fizioterapijo. Rosenkranzova in sodelavci (2009) so pri zdravih posameznikih poročali o večji inhibiciji ne-vibriranih mišic in boljšem igranju klavirja. Pred treningom so pri zdravih glasbenikih ugotovili, da se pri vibraciji mišice *abductor policis brevis* zmanjša inhibicija mišice *abductor policis brevis* in prve *interosseus dorzales* ter poveča v mišici *abductor digiti minimi*, enako pri vibraciji mišice prvi *interosseus dorzales*. Po treningu pa so poročali o večji inhibiciji mišice prvi *interosseus dorzales* pri vibraciji mišice *abductor policis brevis* in mišice *abductor policis brevis* pri

vibraciji mišice prve *interosseus dorzales* ter povečani inhibiciji mišice *abductor policis brevis* in prve *interosseus dorzales* pri vibraciji mišice *abductor digiti minimi*. Pri zdravih glasbenikih ni bilo sprememb v igranju klavirja. Glasbeniki s FHD so pred treningom imeli zmanjšano inhibicijo v obeh ne-vibriranih mišicah, po treningu pa so se z rezultati proprioceptivnega treninga in igranja klavirja že približali zdravim glasbenikom, kar je trajalo tudi do 24 ur. Izboljšanje je doseglo tudi 32 preiskovancev z ergonomskimi prilagoditvami in 44 z nespecifičnimi vajami na inštrument. Izidi zdravljenja s fizioterapevtskimi in farmakološkimi postopki so predstavljeni v Tabeli 6.

Tabela 5: Značilnosti raziskave - izidi

	Izidi	Trajanje izboljšanja
Canadia et al., 2002	Mehkejši in jasnejši gibi pri pianistih in kitaristih, začasno izboljšanje oboista, brez izboljšanja pri flavtistih.	/
Jabusch et al., 2005	Izboljšanje: <ul style="list-style-type: none"> •Trihexyphenidyl: 23 •Injekcije botulin toksina: 35 (ena injekcija) 30 (več injekcij) •ergonomske prilagoditve: 32 •ponovna vzpostavitev funkcije: 12 •nespecifične vaje na inštrument: 44 	/
Rosenkranz et al., 2009	<u>Zdravi posamezniki</u> : povečana inhibicija ne-vibriranih mišic, izboljšanje igranja klavirja <u>Zdravi glasbeniki</u> : pri vibraciji APB, zmanjšana inhibicija FDI in povečana v ADM (isto pri vibraciji FDI), pri vibraciji ADM, povečana inhibicija v APB in FDI; ni sprememb v igranju klavirja <u>Glasbeniki z distonijo</u> : rezultati so podobni zdravim glasbenikom	Do 24 ur.
Berque et al., 2010	Zmanjšanje nenamernih gibov pri obeh skladbah, hitrejša izvedba obeh skladb, statistično značilne razlike na lestvici TCS in ADDS	/
Berque et al., 2013	Ni statistično značilnih razlik v številu nenamernih gibov (zmanjšano pri lažji skladbi, pri težji nespremenjeno), hitrosti metronoma (povečala pri lažji skladbi, pri težji pa zmanjšala) in lestvicah TCS in ADDS med 1. in 4. letom	/
Furuya et al., 2014	Ni razlik v zdravi roki, zmanjšana variabilnost ritma pri stimulaciji CaAu.	71,2% po 4-ih dneh (testirali 4 pianiste).
van Vugt et al., 2014	<u>Objektivna analiza</u> : izboljšanje pri 43%, brez sprememb pri 52%, poslabšanje pri 4,8%. <u>Subjektivna analiza</u> : manjše do precejšnje izboljšanje pri 81,5% in popolno izboljšanje pri 5,6%; najboljši rezultati pri ponovni vzpostavitvi funkcije, najslabši pri fizioterapiji.	/

Legenda: (/ni podatka, APB-abductor policis brevis, ADM-abductor digiti minimi, FDI-prvi interosseus dorsales, CaAu-katoda na prizadeti strani in anoda na zdravi strani, ADDS-Lestvica nezmožnosti distonične roke, TCS-Tubianova in Chamagnejeva lestvica)

5 RAZPRAVA

Zdravljenje FHD pri glasbenikih je slabo raziskano, kar močno omeji izbiro literature. Zajete raziskave imajo majhne vzorce, so heterogene in imajo neenakomerno razporeditev inštrumentov, zato ne moremo z gotovostjo trditi, katera terapija je manj ali bolj uspešna. Največ preiskovancev so v svoj vzorec zajeli Jabuch in sodelavci (2005) ($n = 144$) ter van Vugt in sodelavci (2014) ($n = 54$), vendar niso predstavili kombinacijo terapij, glede na vrsto inštrumenta, zato ne moremo vedeti, kateri način zdravljenja je dejansko pripomogel k izboljšanju. Glede heterogenosti vzorca sta izjemi raziskavi Rosenkranzove in sodelavcev (2009) ter Furuye in sodelavcev (2014), ki so v vzorec vključili samo pianiste. To sta edini raziskavi, ki sta imeli kontrolno skupino. Jabuch in sodelavci (2005) so edini, ki so v svoj vzorec zajeli vse skupine glasbil z izjemo tolkal, toda navedli so skupino glasbil, ne pa inštrumentov. Med preiskovanci so v vseh raziskavah glede na spol prevladovali moški ($n = 187$). Razlog za večje nagnjenje moških k nastanku FHD, so najverjetneje hormonalni vzroki in razlike glede odnosa do dela in spopadanja s stresom (Altenmueller et al., 2012). Pri solistih je možnost nastanka pogostejša, odvisna pa je tudi od inštrumenta in stopnje igranja (Aranguiz et al., 2015). Zaradi tega so profesionalni glasbeniki bolj nagnjeni k nastanku FHD kot amaterski, kar je potrdila tudi naš pregled literature.

Najpogosteje uporabljena merilna orodja so bila metronom, vprašalniki in lestvice. Preiskovalci so uporabili še igranje na inštrument in merjenje natančnosti igranja (čas trajanja prehajanja med toni, prisotnost notnih prekrivanj, naprava za merjenje spretnosti prstov). Vprašalnik je zajemal podatke glede vpliva simptomov na igranje ter učinkovitosti terapije (Jabuch et al., 2005; van Vugt et al., 2014). Rezultati so bili površno predstavljeni, saj iz njih ni razvidno, katere kombinacije terapij so povzročile izboljšanje. Berque in sodelavci (2013) so iz vprašalnika dobili informacije glede izvajanja intervencij znotraj štirih let, ki so jih primerjali z rezultati raziskave Berquea in sodelavcev (2010) ter ugotovili, da rezultati niso statistično značilni. Sklepajo, da je razlog majhen vzorec, poslabšanje enega preiskovanca (kitara) in majhna količina dnevnega izvajanja vaj. Lestvica za ocenjevanje distonije (Cabadia et al., 2002), ADDS (Berque et al., 2010, 2013) in TCS (Berque et al., 2010, 2013) namenjene oceni kvalitete igranja na inštrument, kar omogoča bolj specifične informacije. Vizualno analogno lestvico se uporablja za numerično izražanje intenzitete bolečine (Jakovljević, 2016, 112), Rosenkranzova in sodelavci (2009) pa so jo uporabili za oceno subjektivne spremembe pri igranju, kar daje dodaten vpogled v mišljenje

posameznika. Lestvice so dobro zanesljive z izjemo TCS (Berque et al., 2010, 2013), ki so jo uporabili zaradi večjega števila stopenj (Berque et al., 2010). Metronom se je izkazal kot uporabna meritev za spremljanje objektivnega napredka igranja na inštrument. Z njim so določili tempo igranja lestvice (van Vugt et al., 2014), skladbe (Berque et al., 2010, 2013) ali kombinacij prstnih zaporedij (Canadia et al., 2002; Rosenkranz et al., 2009; Furuya et al., 2014). Berque in sodelavci (2010, 2013) so za osnovni tempo določili originalen tempo skladbe, pri katerem so morali preiskovanci prvi dan raziskave igrati vsaj tri minute. Nato so tempo določili glede na pojavnost simptomov in od tam naprej izhajali. V raziskavi Canadie in sodelavcev (2002) je imelo sedem od enajstih preiskovancev težave pri počasnem, ne pa pri hitrem igranju, zato so tempo med igranjem postopoma višali, nato pa nižali. Furuya in sodelavci (2014) so takšen tempo in način igranja izbrali zaradi vzpostavitve živčnih povezav med obema hemisferama. Razlog za naveden tempo in način igranja nismo našli v raziskavi Rosenkranzove in sodelavcev (2009) ter van Vugta in sodelavcev (2014). Za ugotavljanje spretnosti igranja so merili čas trajanja prehoda med toni (Rosenkranz et al., 2009; van Vugt et al., 2014, Furuya et al., 2014), število notnih prekrivanj (Rosenkranz et al., 2009) ter z napravo za ocenjevanje spretnosti prstov (Canadia et al., 2002). Najnatančnejše meritve je dala naprava, ki je glede na metronom zaznala število nenamernih gibov in mehko igranja (Canadia et al., 2002). Najbolj podrobne meritve je izvedla Rosenkranzova in sodelavci (2009), ki je pri meritvah uporabila TMS s katerim je prožila impulze na distonično mišico *abductor polocis brevis*. Z EMG-jem je merila električno aktivnost mišic *abductor policis brevis*, prvi *interosseus dorsales* in *abductor digiti minimi*., s kratkimi enojnimi ali dvojnimi impulzi pa je izmerila tudi SICI. Količino izvedenih meritev težko primerjamo zaradi različne dolžine trajanja posamezne raziskave.

5.1 Primerjava protokolov zdravljenja

Vrste zdravljenja so potekale samostojno (Rosenkranz et al., 2009) ali v kombinaciji (Canadia et al., 2002; Berque et al., 2010, 2013; Furuya et al., 2014). Za dve raziskavi (Jabuch et al., 2005; van Vugt et al., 2014) pa ni bilo mogoče najti podatka o kombinacijah in postopkih zdravljenja. V nekaterih raziskavah je bilo potrebno vaje izvajati tudi doma in informacije glede stanja poročati preko telefona (Canadia et al., 2002; Rosenkranz et al., 2009) ali jih zapisovati v dnevnik (Berque et al., 2010, 2013). Za boljšo preglednost smo oblike zdravljenja razdelili na ne-farmakološko in farmakološko zdravljenje.

5.1.1 Ne-farmakološko zdravljenje

Najpogosteje uporabljen je bila imobilizacija prsta, ki želi s povečano dejavnostjo ublažiti simptome distonije, kar je omogočilo distoničnemu prstu normalno gibanje. Glede na vrsto inštrumenta in vzorec distonije je vsak preiskovanec prejel opornico, ki mu je omogočala naraven položaj roke in preprečila nenamerne gibe (Canadia et al., 2002; Jabuch et al., 2005; Berque et al., 2010, 2013). Med nošenjem opornice so igrali na inštrument različne vrste vaj, ki jih je bilo potrebno redno izvajati tudi doma (Canadia et al., 2002; Berque et al., 2010, 2013). Omenjeno terapijo so uporabljali tudi v kombinaciji s počasnim igranjem (Jabuch et al., 2005; Berque et al., 2010, 2013). Ta kombinacija je zahtevala prisotnost, stopnjevala težavnost in bila ponovljiva, kar je verjetno ? pripomoglo k večjemu ustvarjanju sprememb v možganih (Cogiamaniam et al., 2009). V kombinaciji z izvajanjem vaj na inštrument (zrcalni gibi z obema rokama, igranje z distoničnim prstom) so bile prisotne tudi različne vrste tDCS stimulacij, kot najučinkovitejša pa se je izkazala tista, pri kateri je bila katoda na prizadeti, anoda pa na zdravi strani glave (Furuya et al., 2014). Zanimiva je bila tudi raziskava Rosenkranzove in sodelavcev (2009), kjer so izvajali propioceptivni trening z vibracijo mišic *abductor policis brevis*, *abductor digiti minimi* in prve *interosseus dorsales* pri glasbenikih (zdravi in distonični) in zdravih ne-glasbenikih. Vibracija mišice povzroči facilitacijo agonista (vibrirana mišica) in inhibicijo antagonist (ne-vibrirane mišice), kar je bilo prisotno samo pri zdravih ne-glasbenikih (Rosenkranz et al., 2000). Razlika v inhibiciji ne-vibriranih mišic se je pojavila že pri zdravih glasbenikih, kjer sta se mišici *abductor policis brevis* in prvi *interosseus dorsales* ob vibraciji ene ali druge mišice vzdražili skupaj (Rosenkranz et al., 2000). Istočasno vzdraženje obeh mišic je posledica njenega neprestanega sodelovanja, kar pianistu omogoči hitrejše prehajanje med toni (Rosenkranz et al., 2009). Pri glasbenikih s FHD pa je zaradi odsotnosti prostorske diferenciacije prišlo do vzdraženja vseh mišic (Rosenkranz et al., 2000).

5.1.2 Farmakološko zdravljenje

V dveh raziskavah omenjajo zdravljenje z Botulin toksinom in Trihexyphenidylom (Jabuch et al., 2005, van Vugt et al., 2014). Trihexyphenidyl spada med antiholinergike in je najučinkovitejše zdravilo za zdravljenje distonije (Cloud, Jinnah, 2010). Kot učinkovito se je izkazalo pri glasbenikih z distonijo roke, a so ga lahko jemali le preiskovanci brez

predhodnih kontraindikacij. Zelo pogosti so tudi stranski učinki, zaradi katerih je 20 preiskovancev po dveh mesecih zdravljenje prekinilo (Jabuc et al., 2005). Botulin toksin se lahko aplicira takrat, ko vemo kateri prst je distoničen, saj bomo v nasprotnem primeru stanje poslabšali (Frucht, 2009). Injekcija deluje tarčno in blaži simptome, ne zdravi pa vzroka, zato je pomembno pravilno doziranje, saj bo v nasprotnem primeru prišlo do zmanjšanja učinka (Cloud, Jinnah, 2010). V raziskavi van Vughta in sodelavcev (2014) je 17 preiskovancev imelo kombinacijo zdravljenja z Botulin toksinom in ponovno vzpostavitvijo funkcije, kar so pričenjali v različnih časovnih okvirjih. Največ preiskovancev je z injekcijami Botulin toksina začelo šele takrat, ko jim vadba ponovne vzpostavitve funkcije ni dala želenih rezultatov (van Vugt et al., 2014). Razlog za to je odsotnost poseganja v telo pri treningu ponovne vzpostavitve funkcije (van Vugt et al., 2014).

5.2 Primerjava izidov med glasbeniki

Na podlagi izsledkov analiziranih raziskav, ki so na voljo, so večje izboljšanje v igranju inštrumenta in pojavnosti simptomov dosegli preiskovanci z inštrumenti v katere ni potrebno pihati. Vzrok temu naj bi bila porušena koordinacija med usti in prsti (Berque et al., 2013). Gre za premajhen razmak motoričnih področij ustnic in prstov, ki so jih ugotovili pri glasbenikih z distonijo ustnic (Berque et al., 2010). Pri izvajanju vaj z opornico so poročali izboljšanju pri inštrumentih v katere se ne piha, pri ostalih inštrumentih pa je prišlo do začasnega izboljšanja ali poslabšanja (Canadia et al., 2002). V raziskavi Berquea in sodelavcev (2010) pa so poročali o izboljšanju pri vseh glasbenikih ne glede na vrsto inštrumenta. Razlog za to je morda bolj v funkcijo usmerjena intervencija, saj so preiskovanci pri treh od petih vaj v inštrument pihali, če je bila takšna njegova narava igranja ter kombinacija prej omenjene vaje s počasnim igranjem.

5.2.1 Primerjava izidov med pianisti

Klavir je bil najbolj zastopan inštrument, zato bomo v tem podpoglavju med seboj primerjali samo pianiste. Ti so bili prisotni v vseh raziskavah z izjemo dveh raziskav Berquea in sodelavcev (2010, 2013). V treh raziskavah (Canadia et al., 2002, Jabuc et al., 2005, van Vugt et al., 2014) podatkov o pianistih ni mogoče razbrati, zaradi prisotnosti različnih vrst

inštrumentov. Skupno smo v pregled literature zajeli 130 pianistov, , od tega 18 zdravih in 112 s FHD. Glede na podatke, ki so bili na voljo, smo v pregled zajeli 16 moških in 10 žensk. Pri izvajanju vaj z opornico je po osmih dneh prišlo do mehkejših in jasnejših gibov (Canadia et al., 2002). S kombinacijo izvajanja zrcalnih gibov na klavir in istočasnim proženjem različnih vrst impulzov tDCS-ja, je pri stimulaciji s katodo na prizadeti strani in anodo na zdravi strani prišlo do zmanjšane variabilnosti ritma (Furya et al., 2014). Pri igranju distoničnega prsta, pa ni bilo razlik med impulzi, iz česar so Furya in sodelavci (2014) sklepali, da gre za pomanjkljiv prenos informacij iz izvajanja vaj na klavir na netrenirano igranje samo z distoničnim prstom. Samo stimulacija s katodo na prizadeti strani in anodo na zdravi strani pri štirih pianistih je pokazala, da učinek traja vsaj štiri dni, saj se je obdržal na 71,2% (Furuya et al., 2014). S proprioceptivnim treningom je prišlo do večje inhibicije ne-vibriranih mišic v obeh skupinah pianistov (Rosenkranz et al., 2009). Ker so pri igranju klavirja pogosti veliki obsegi abdukcije, Jabuch in sodelavci (2005) ne priporočajo injekcij Botulin toksina. Te so se namreč izkazale kot učinkovite pri glasbenikih, ki pri igranju na inštrument ne izvajajo velikih obsegov abdukcije (Jabuc et al., 2005).

6 ZAKLJUČEK

S pregledom literature smo želeli predstaviti učinkovitost fizioterapevtskih in farmakoloških postopkov zdravljenja pri glasbenikih z žariščno distonijo prstov roke ter kakšni načini in kombinacije zdravljenja obstajajo pri glasbenikih s FHD.

Kot uspešne oblike zdravljenja, so se pokazale metode, ki vplivajo na možgansko plastičnost. Ugotovili pa smo, da obstajajo razlike v zdravljenju glede na vrsto inštrumenta, saj so glasbeniki, ki v svoj inštrument ne pihajo (godala, brenkala, glasbila s tipkami) dosegli boljše rezultate kot pihalci. To nakazuje na večjo kompleksnost nastanka in zdravljenja FHD-ja pri pihalcih. Zdravljenje FHD-ja je dolgotrajen proces, ki zahteva postopno stopnjevanje težavnosti in trajanja vadbe. Zaradi izvajanja hitrih, natančnih in ponavljajočih gibov, pride v možganski skorji do povečanega področja za prste roke in s tem večjega proprioceptivnega priliva v to področje, ki se lahko stopnjuje do stopnje, ko močno ogrozi glasbenikovo kariero. Zaradi tega bi bilo potrebno poleg ugotavljanja načinov zdravljenja, tudi delo na preventivi.

V bodoče bi prišli do bolj zanesljivih podatkov, če bi raziskava vsebovala kontrolno skupino ter večji vzorec glasbenikov. Če je ta heterogen, naj bo zastopanost inštrumentov znotraj vzorca enakomerno razporejena, meritve pa ločene glede na vrsto inštrumenta za lažjo primerjavo. Prav bi prišle tudi podrobnejše ugotovitve glede nastanka in zdravljenja FHD pri pihalcih ter distonije ustnic pri trobilcih.

7 LITERATURA

Altenmüller E, Baur V, Hofmann A, Lim VK, Jabusch HC (2012). Musician's cramp as manifestation of maladaptive brain plasticity: arguments from instrumental differences. *Ann N Y Acad Sci.* 1252: 259-65. doi: 10.1111/j.1749-6632.2012.06456.x

Aránguiz R, Chana-Cuevas P, Albuquerque D, Curinao X (2015). Focal dystonia in musicians: Phenomenology and musical triggering factors. *Neurologia* 30(5): 270-5. doi: 10.1016/j.nrl.2013.12.024

Bažon I (2015). Zdravstvena tveganja igranja na glasbeni inštrument dijakov in učiteljev umetniške gimnazije Koper. Diplomaska naloga. Koper: fakulteta za matematiko, naravoslovje in informacijske tehnologije.

Bäumer T, Schmidt A, Heldmannf M et al. (2016). Abnormal interhemispheric inhibition in musician's dystonia – Trait or state? *Parkinsonism Relat Disord.* 25: 33-8. doi: 10.1016/j.parkreldis.2016.02.018.

Berque P, Gray H, Harkness C, McFadyen A (2010). A Combination of Constraint-induced Therapy and Motor Control Retraining in the Treatment of Focal Hand Dystonia in Musicians. *Med Probl Perform Art.* 25(4): 149-61. doi: 10.13140/2.1.3382.0803

Berque P, Gray H, McFadyen A (2013). A Combination of Constraint-Induced Therapy and Motor Control Retraining in the Treatment of Focal Hand Dystonia in Musicians. A Long-term Follow-up Study. *Med Probl Perform Art.* 28(1): 33-46.

Byl NN, McKenzie A (2000). Treatment Effectiveness for Patients with a History of Repetitive Hand Use and Focal Hand Dystonia: A Planned, Prospective Follow-up Study. *J Hand Ther.* 13(4): 289-301. doi: 10.1016/s0894-1130(00)80021-6

Byl NN, Nagajaran S, McKenzie AL (2003). Effect of Sensory Discrimination Training on Structure and Function in Patients With Focal Hand Dystonia: A Case Series. *Arch Phys Med Rehabil.* 84(10): 1505-14. doi: 10.1053/S0003-9993(03)00276-4

Candia V, Schäfer T, Taub E et al. (2002). Sensory Motor Retuning: A Behavioral Treatment for Focal Hand Dystonia of Pianists and Guitarists. *Arch Phys Med Rehabil.* 83(10): 1342-8. doi: 10.1053/apmr.2002.35094

- Cloud LJ, Jinnah HA (2010). Treatment strategies for dystonia. *Expert Opin Pharmacother.* 11(1): 5-15. doi: 10.1517/14656560903426171
- Cogiamanian F, Barbieri S, Priori A (2009). Novel nonpharmacologic perspectives for the treatment of task-specific focal hand dystonia. *J Hand Ther.* 22(2): 156–61. doi: 10.1016/j.jht.2008.11.008
- Frucht SJ (2009). Focal task-specific dystonia of the musicians' hand – a practical approach for the clinician. *J Hand Ther.* 22(2): 136-42. doi: 10.1016/j.jht.2008.11.006
- Furuya S, Nitsche MA, Paulus W, Altenmüller E (2014). Surmounting Retraining Limits in Musicians' Dystonia by Transcranial Stimulation. *Ann Neurol.* 75(5): 700-7. doi: 10.1002/ana.24151.
- Jabusch HC, Zschucke D, Schmidt A, Schuele S, Altenmüller E (2005). Focal Dystonia in Musicians: Treatment Strategies and Long- Term Outcome in 144 Patients. *Mov Disord.* 20(12): 1623-6. doi: 10.1002/mds.20631
- Jakovljević M (2016). *Ocenjevalne metode v fizioterapiji*. Tretja dopolnjena izdaja. Ljubljana: Zdravstvena fakulteta, 112.
- Quartarone A, Siebner HR, Rothwell JC (2006). Task-specific hand dystonia: can too much plasticity be bad for you? *Trends Neurosci.* 29(4): 192-9. doi: 10.1016/j.tins.2006.02.007
- Pirio Richardson S, Altenmüller E, Alter K et al. (2017). Research Priorities in Limb and Task-Specific Dystonias. *Front Neurol.* 8: 170. doi: 10.3389/fneur.2017.00170
- Rosenkranz K, Altenmüller E, Siggelkova S, Dengler R (2000). Alteration of sensorimotor integration in musician's cramp: impaired focusing of proprioception. *Clin Neurophysiol.* 111: 2040-5. doi: 10.1016/s1388-2457(00)00460-0
- Rosenkranz K, Butler K, Williamon A, Rothwell JC (2009). Regaining motor control in musician's dystonia by restoring sensorimotor organisation. *J Neurosci.* 29(46): 14627–36. doi: 10.1523/JNEUROSCI.2094-09.2009

Rosset-Llobeta J, Candiab V, Fàbregas i Molasa S, Dolors Rosinés i Cubells D, Pascual-Leone A (2009). The challenge of diagnosing focal hand dystonia in musicians. *Eur J Neurol.* 16(7): 864-9. doi: 10.1111/j.1468-1331.2009.02610.x.

Shumway-Cook A, Woollacott MH (2012). *Motor control*. 4th ed. Philadelphia: Lippincott Williams & Wilkins, 84, 99.

van Vugt FT, Boulet L, Jabusch HC, Altenmüller E (2014). Musician's dystonia in pianists: Long-term evaluation of retraining and other therapies. *Parkinsonism Relat Disord.* 20(1): 8-12. doi: 10.1016/j.parkreldis.2013.08.009

8 PRILOGE

8.1 Povzetek značilnosti posameznih raziskav

ČLANEK	ŠTEVILO PACIENTOV IN VRSTA INŠTRUMENTA	OCENJEVALNI PROTOKOLI	INTERVENCIJE	IZIDI
Canadia et al., 2002	6 pianistov, 2 kitarista, 2 flavtista in oboist.	DES, naprava za ocenjevanje spretnosti premikanja prstov, metronom.	Imobilizacija kompenzatornega prsta, igranje z 2 ali 3 prsti navzgor in navzdol (5 kombinacij).	Mehkejši in jasnejši gibi pri pianistih in kitaristih, začasno izboljšanje oboista, brez izboljšanja pri flavtistih.
Jabusch et al., 2005	22 godalcev, 40 pianistov, 29 brenkalcev, 37 pihalcev in 16 trobilcev.	Vprašalnik	Trihexyphenidyl (69), injekcije Botulin toksina (71), ponovna vzpostavitev funkcije (z omejevanjem spodbujajoča terapija, vidna stimulacija z ogledalom ali ekranom in tehnike zavedanja telesa) (24), ergonomske prilagoditve (51), izvajanje nespecifičnih vaj na inštrument (78).	Izboljšanje: <ul style="list-style-type: none"> • Trihexyphenidyl: 23 • Injekcije botulin toksina: 35 (ena injekcija) 30 (več injekcij) • ergonomske prilagoditve: 32 • ponovna vzpostavitev funkcije: 12 • nespecifične vaje na inštrument: 44
Rosenkranz et al., 2009	6 zdravih posameznikov, 16 pianistov (8 zdravih, 8 s FHD).	VAL, hitrost pritiskanja s tipke na tipko (glasnost), prisotnost notnih prekrivanj (notni zapis), TMS, EMG, SICI, 10 ciklov vaj na klavir s 5-imi	Vibracija mišice APB, ADM in FDI.	<u>Zdravi ne-glasbeniki:</u> <ul style="list-style-type: none"> • povečana inhibicija ne-vibriranih mišic • izboljšanje igranja klavirja <u>Zdravi glasbeniki:</u> <ul style="list-style-type: none"> • pri vibraciji APB, zmanjšana

		prsti z metronomom.		<p>inhibicija FDI in povečana v ADM (isto pri vibraciji FDI), pri vibraciji ADM, povečana inhibicija v APB in FDI</p> <ul style="list-style-type: none"> ni sprememb v igranju klavirja <p><u>Glasbeniki z distonijo:</u> oboji rezultati so podobni zdravim glasbenikom</p>
Berque et al., 2010	2 kitarista, 2 flvtista, 2 igralca na dude, oboist in harmonikaš.	FAM, ADDS, TCS, 2 skladbi (lahka, težka), metronom.	izvedba 5 kombinacij prstnih zaporedij z imobilizacijo prstov, ki povzročajo nenamenske gibe; počasno igranje brez opornice z ogledalom (dodana po 1 tednu), igranje drugih skladb počasi ali v normalnem tempu.	Zmanjšanje nenamernih gibov pri obeh skladbah, hitrejša izvedba obeh skladb, statistično značilne razlike na lestvici TCS in ADDS
Berque et al., 2013	2 kitarista in 2 flvtista.	Enako kot pri raziskavi iz leta 2010 + vprašalnik.	Enako kot pri raziskavi iz leta 2010.	Ni statistično značilnih razlik v številu nenamernih gibov (zmanjšano pri lažji skladbi, pri težji nespremenjeno), hitrosti metronoma (povečala pri lažji skladbi, pri težji pa zmanjšala) in lestvicah TCS in ADDS med 1. in 4. letom

Furuya et al., 2014	20 pianistov (10 zdravih, 10 z distonijo)	Izvedba zrcalnih gibov z obema rokama s kazalcem, sredincem, prstancem in mezincem 8 sekund; pritiskanje z distoničnim prstom na tipko 6 sekund, čas trajanja prehoda med toni.	Izvajanje zrcalnih gibov z obema rokama s kazalcem, sredincem, prstancem in mezincem z metronomom 8-krat 3 minute s 30 sekundnimi pavzami; tDCS (CaAu, CuAa, UniAu, sham, NoRT)	Ni razlik v zdravi roki, zmanjšana variabilnost ritma pri stimulaciji CaAu. Učinek terapije se je obdržal na 71,2% po 4-ih dneh (testirali 4 pianiste).
van Vugt et al., 2014	48 pianistov, 5 organistov in 1 harmonikaš (subjektivna analiza); od tega 22 pianistov (objektivna analiza)	Vprašalnik (subjektivna analiza); igranje C dur lestvice čez 2 oktavi navzgor in navzdol z metronomom, čas trajanja prehajanja med toni v obe smeri (objektivna analiza).	Ponovna vzpostavitev funkcija (47), botulin toksin (27), Trihexyphenidil (28), terapija roke (23), sprostitvene tehnike (21), fizioterapija (16), psihoterapija (12), akupunktura (11), tehnike kot so Feldenkreis, Aleksander tehnika in Dispokinezija (11), menjava učitelja (5).	<u>Objektivna analiza:</u> Izboljšanje pri 43%, brez sprememb pri 52%, poslabšanje pri 4,8%. <u>Subjektivna analiza:</u> Manjše do precejšnje izboljšanje pri 81,5% in popolno izboljšanje pri 5,6%. Najboljši rezultati pri ponovni vzpostavitvi funkcije, najslabši pri fizioterapiji.

Legenda: (APB-abductor policis brevis; ADM-abductor digiti minimi; FDI-prvi interosseus dorsales; DES- Lestvica za ocenjevanje distonije, VAL-Vizualna analogna lestvica, FAM-Lestvica števila abnormalnih gibov, ADDS- Lestvica nezmožnosti distonične roke, TCS-Tubianova in Chamagnejeva lestvica, TMS-traskranialna magnetna stimulacija, EMG-elektromiografija, SICI- kratek interval intrakortikalne inhibicije; tDCS- transkranijska stimulacija z direktnim električnim tokom; CaAu-katoda na prizadeti strani, anoda na zdravi strani; CuAa- katoda na zdravi strani, anoda na prizadeti strani; sham-samo posnema delovanje, postavitev enaka kot pri CaAu; UniAu-unihemisferična stimulacija, anoda je na zdravi strani, katoda nad levo orbito; NoRT-bihemisferična stimulacija brez treninga, postavitev enaka kot pri CaAu)