

Distonía lingual: respuesta al tratamiento con toxina botulínica



Lingual dystonia: Response to botulinum toxin treatment

Sr Editor,

La distonía lingual es una distonía focal y, en concreto, es un subtipo de distonía oromandibular caracterizada por movimientos repetitivos de la musculatura lingual, siendo la protrusión lingual el movimiento descrito de forma más habitual^{1,2}. Se trata de una distonía muy poco frecuente. En su serie de casos, Esper et al.³ describieron una prevalencia del 4% entre todos los tipos de distonía valorados³. No obstante, se asocia a un importante deterioro de la calidad de vida, pudiendo producir limitaciones para actividades como comer o hablar⁴. Además, la respuesta a tratamientos orales suele ser limitada y parcial⁴. Por estos motivos, la toxina botulínica podría considerarse un tratamiento de elección, habiéndose descrito su uso en series de casos y en algunos casos aislados⁴⁻⁹. En cuanto a la seguridad de su administración, se han descrito efectos secundarios relevantes, tales como disartria, disfagia e incluso dificultad respiratoria y neumonías broncoaspirativas que podrían limitar su uso^{8,9}.

Se ha realizado la revisión de una serie de casos de forma retrospectiva de 6 pacientes diagnosticados de distonía lingual en seguimiento en la Unidad de Trastornos del Movimiento de un hospital terciario y que han recibido tratamiento con infiltración de toxina botulínica tipo A (Onabotulina e Incobotulina).

En nuestra serie, la mediana de edad fue de 60 años (IQR: 48,75-74,25 años). Cinco de las pacientes eran mujeres, y ninguno presentaba otros antecedentes personales neurológicos. En cuanto al tipo de distonía, 4 de 6 pacientes cursaron con distonías focales. Uno (1/6) presentaba una distonía generalizada y otro (1/6) asociaba una distonía del escribiente, tratándose por ello de una distonía multifocal. Al igual que en otras series descritas, el tipo de movimiento lingual más frecuente fue la protrusión lingual, estando presente en todos los pacientes. Además, 2 pacientes (2/6) asociaban también otro tipo de movimientos linguales: torsión lingual y lateralización de la lengua. Por otro lado, 4 pacientes asociaban un componente de distonía oromandibular con movimientos de apertura y lateralización mandibular (fig. 1). Otros trastornos del movimiento asociados aparecieron en la mitad de los casos: parkinsonismo en 2 pacientes y temblor cefálico y temblor postural de miembros superiores en un paciente.

La etiología de las distonías fue muy diversa: primaria en 2/6 casos, genética en 1/6, presentando una mutación del gen ATP1A3 (DYT12 o distonía-parkinsonismo rápidamente progresivo), neurodegenerativa por una atrofia multisistémica en 1/6, síndrome tardío en 1/6 y etiología funcional en 1/6.

En 4 pacientes la infiltración de la toxina botulínica se realizó guiada por ecografía, y en uno, guiada por ecografía y electromiografía. En un único paciente se llevó a cabo por guía anatómica. Las infiltraciones de toxina botulínica

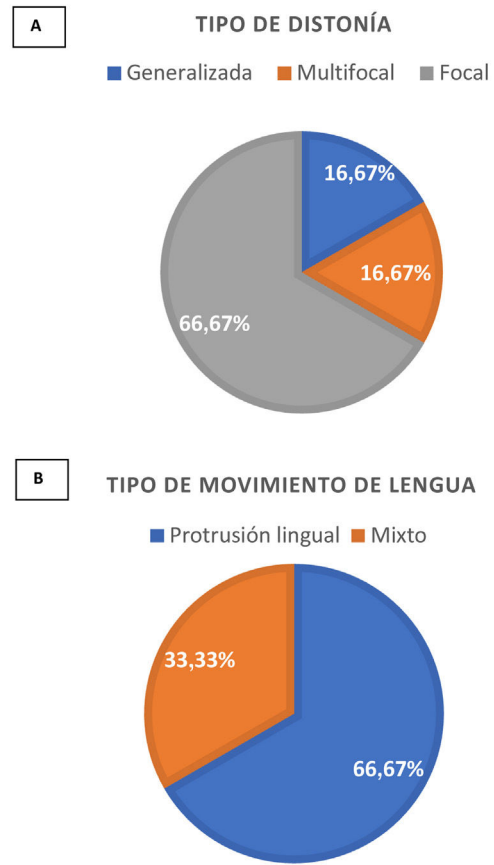


Figura 1 A) Clasificación según el tipo de distonía. B) Clasificación según el tipo de movimiento lingual.

se realizaron cada 3 meses en todos los pacientes. La mediana de dosis máxima de toxina botulínica en los músculos oromandibulares implicados fue de 45 unidades (IQR: 25-53,75 UI). La toxina botulínica fue infiltrada en los músculos genioglosos en 4 de los pacientes (4/6) y en el músculo hiogloso por vía submandibular en un paciente (1/6). Además, en uno de los pacientes (1/6) se realizó infiltración de los músculos intrínsecos de la lengua por vía intraoral, en concreto de los músculos transversos.

En aquellos con asociación de distonía de apertura y lateralización mandibular se infiltraron otros músculos oromandibulares, incluyendo digástricos (3 pacientes), pterigoideos (2 pacientes), milohioideos (2 pacientes), maseteros (2 pacientes) y platisma (un paciente).

La mediana del grado de mejoría subjetiva fue del 60% (IQR: 12,5-70%) y la mediana de duración del efecto fue de 1,5 meses (IQR: 0-2,5 meses). En cuanto a los efectos secundarios, aparecieron en 2 pacientes, siendo leves y transitorios. Los efectos secundarios descritos fueron disartria y disfagia leves. En ningún caso se objetivaron efectos secundarios severos o permanentes.

En conclusión, la distonía lingual es un subtipo de distonía secundaria a etiologías muy diversas y con escasa respuesta al tratamiento farmacológico⁴. La toxina botulínica podría ser un tratamiento seguro y eficaz en la distonía lingual. En nuestra serie, el grado promedio de mejoría fue superior al 50% y los efectos secundarios fueron leves, transitorios e infrecuentes. Consideramos que la realización de la infil-

tración con guía ecográfica y con electromiografía podría tratarse de un factor fundamental que aumenta la seguridad del tratamiento.

La principal limitación de nuestra serie de casos es el bajo tamaño muestral, siendo preciso realizar estudios prospectivos con un mayor tamaño muestral para poder estudiar los factores que influyen en la eficacia del tratamiento y establecer protocolos terapéuticos.

Financiación

No se ha obtenido financiación para la realización de este trabajo.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Albanese A, Bhatia K, Bressman SB, DeLong MR, Fahn S, Fung VS, et al. Phenomenology and classification of dystonia: A consensus update. *Mov Disord*. 2013;28:863–73.
2. Yoshida K. Clinical and phenomenological characteristics of patients with task-specific lingual dystonia: Possible association with occupation. *Front Neurol*. 2017;8:649.
3. Esper CD, Freeman A, Factor SA. Lingual protrusion dystonia: Frequency, etiology and botulinum toxin therapy. *Parkinsonism Relat Disord*. 2010;16:438–41.
4. Yoshida K. Botulinum neurotoxin therapy for lingual dystonia using an individualized injection method based on clinical features. *Toxins (Basel)*. 2019;11:51.
5. Cores-Bartolomé C, Paz-González JM, García-Antelo MJ, Santos-García D. Isolated speech-induced lingual dystonia successfully treated with botulinum neurotoxin. *Neurologia (Engl Ed)*. 2022;37:306–8.
6. Nastasi L, Mostile G, Nicoletti A, Zappia M, Reggio E, Catania S. Effect of botulinum toxin treatment on quality of life in patients with isolated lingual dystonia and oromandibular dystonia affecting the tongue. *J Neurol*. 2016;263:1702–8.
7. Kasravi N, Jog MS. Botulinum toxin in the treatment of lingual movement disorders. *Mov Disord*. 2009;24:2199–202.
8. Blitzer A, Brin MF, Fahn S. Botulinum toxin injections for lingual dystonia. *Laryngoscope*. 1991;101(7 Pt 1):799.
9. Schneider SA, Aggarwal A, Bhatt M, Dupont E, Tisch S, Limousin P, et al. Severe tongue protrusion dystonia: Clinical syndromes and possible treatment. *Neurology*. 2006;67:940–3.

A. Fernández Revuelta*, E. López Valdés y R. García-Ramos
Unidad de Trastornos del Movimiento, Servicio de Neurología, Hospital Clínico San Carlos, Madrid, España

* Autor para correspondencia.
 Correo electrónico: ana93fr@gmail.com
 (A. Fernández Revuelta).

<https://doi.org/10.1016/j.nrl.2023.08.001>
 0213-4853/ © 2024 Sociedad Española de Neurología. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).