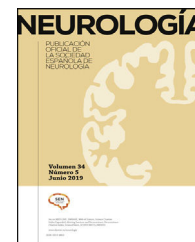




NEUROLOGÍA

www.elsevier.es/neurologia



ORIGINAL

Descripción de la afectación de la destreza y función manual en pacientes con distonía focal de la mano

E. Huertas-Hoyas^a, M.R. Martínez-Piédrola^a, P. Sánchez-Herrera-Baeza^{a,*},
S. Serrada Tejeda^a, N. Máximo-Bocanegra^a, C. Sánchez Camarero^a,
M. Pérez-de-Heredia-Torres^a y J.C. Martínez Castrillo^b

^a Departamento de Fisioterapia, Terapia Ocupacional, Rehabilitación y Medicina Física, Facultad de Ciencias de la Salud, Universidad Rey Juan Carlos, Madrid, España

^b Hospital Universitario Ramón y Cajal, Madrid, España

Recibido el 1 de octubre de 2019; aceptado el 29 de abril de 2020

PALABRAS CLAVE

Distonía focal;
Actividades de la vida
diaria;
Destreza
manipulativa;
Mano

Resumen

Introducción: La distonía focal de la mano es un trastorno del movimiento cuya sintomatología produce una alteración en el desempeño de tareas que requieren un nivel de destreza alto. Actualmente no se dispone de un modelo de interpretación de la enfermedad y son escasos los estudios que identifican las dificultades de las personas con distonía al desempeñar las actividades de la vida diaria (AVD). Por todo ello, el objetivo del estudio es describir la destreza manipulativa y su influencia en las AVD de los pacientes con distonía focal de la mano.

Material y método: Se realizó un estudio observacional, transversal, tipo casos y controles. Se reclutaron 24 participantes: 12 pacientes y 12 sujetos control. Los pacientes fueron derivados por el Servicio de Neurología del Hospital Ramón y Cajal. Se obtuvieron datos sociodemográficos y clínicos retrospectivos en el grupo de casos. Posteriormente, se administraron pruebas de evaluación, en el siguiente orden: *Nine Hole Peg Test* (NHPT), *Box and Blocks Test* (BBT), *Purdue Pegboard Test* (PPT) y *Jebsen-Taylor Test of Hand Function* (JTTHF).

Resultados: En la muestra del estudio participaron un total de 24 personas, siete mujeres y 17 hombres, con una media de edad de $50,79 \pm 14,40$ años. Del total de participantes con distonía focal se observó que, aunque la mitad de la muestra no identificó signos de afectación neuromuscular, ni problemas psicoemocionales, un menor porcentaje de estos pacientes identificaron dificultades asociadas con el hombro derecho (25%) y el estado ansioso (33,3%).

Conclusiones: Los hallazgos encontrados en el presente trabajo señalan que la distonía focal de la mano afecta a la destreza manipulativa de estos pacientes, presentando una peor ejecución y requiriendo más tiempo para su ejecución.

© 2020 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/>).

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: patricia.sanchezherrera@urjc.es (P. Sánchez-Herrera-Baeza).

<https://doi.org/10.1016/j.nrl.2020.04.020>

0213-4853/© 2020 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/>).

Cómo citar este artículo: Huertas-Hoyas E, et al. Descripción de la afectación de la destreza y función manual en pacientes con distonía focal de la mano. Neurología. 2020. <https://doi.org/10.1016/j.nrl.2020.04.020>

KEYWORDS

Focal dystonia;
Activities of daily
living;
Manipulative
dexterity;
Hand

Alterations in dexterity and manual function in patients with focal hand dystonia

Abstract

Introduction: Focal hand dystonia is a movement disorder whose symptoms cause alterations in the performance of tasks requiring a high level of dexterity. Currently, there is no model for interpreting the disease and few studies have identified the difficulties of patients with dystonia in carrying out activities of daily living (ADL). This study aims to describe manipulative dexterity and its influence on ADLs in patients with focal hand dystonia.

Materials and methods: We performed an observational, cross-sectional, case-control study including 24 participants (12 patients with focal hand dystonia and 12 controls). The patients were referred by the neurology department of Hospital Ramón y Cajal. We gathered sociodemographic data, as well as retrospective clinical data for patients. We subsequently administered evaluation tests, in the following order: Nine-Hole Peg Test (NHPT), Box and Blocks Test (BBT), Purdue Pegboard Test (PPT), and Jebsen-Taylor Test of Hand Function (JTTHF).

Results: The study sample included a total of 24 participants, 7 women and 17 men, with a mean age (standard deviation) of 50.79 (14.40) years. In the patient group, neuromuscular involvement or psycho-emotional problems were not detected in half of cases; smaller numbers of patients presented difficulties associated with the right shoulder (25%) and anxious state (33.3%).

Conclusions: Our results indicate that focal hand dystonia affects manipulative dexterity in these patients, who showed poorer performance and required more time to complete the tasks.

© 2020 Sociedad Española de Neurología. Published by Elsevier España, S.L.U. This is an open access article under the CC BY-NC-ND license (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Introducción

La distonía focal de la mano es un trastorno del movimiento que se caracteriza por la presencia de contracciones musculares sostenidas o intermitentes de la mano o el brazo y que causan movimientos repetitivos, posturas anormales o ambos¹.

Los síntomas más típicos son tensión en el brazo, rigidez en la escritura o fatiga cuando se realiza una actividad durante un tiempo prolongado. Aparece también disminución de la velocidad en algunos casos y puede acompañarse de temblor. Además, la distonía se suele asociar con un problema generalizado de la integración motora y sensorial, por lo que las personas que padecen esta enfermedad no son capaces de producir una fuerza de agarre eficiente, incluso a veces supone un aumento de la fatiga². Toda esta sintomatología se refleja en el desempeño de tareas específicas que requieren un nivel de destreza alto, como puede ser escribir o tocar un instrumento³.

Los movimientos de la mano son precisos y complejos en actividades tales como escribir. Esta tarea exige una excitación e inhibición de la musculatura implicada de manera coordinada. Requiere, además, una alta destreza manipulativa que está sujeta al contexto, todo ello hace que se produzca un repetitivo uso de patrones manuales. Las personas que desempeñan tareas manipulativas de forma repetitiva pueden desarrollar síntomas parecidos a la distonía, ya que existen factores de riesgo provenientes de defectos musculoesqueléticos que se combinan con movimientos repetitivos⁴. Doshi et al.⁵ observaron que las

personas con distonía focal de la mano aparte de tener problemas en la escritura, también, presentaban problemas en abotonarse, desabrocharse la camisa y comer.

En el campo de la investigación de las distonías focales, es necesario profundizar en la investigación sobre su conocimiento neuropatológico^{6,7}, así como en su pronóstico⁸ e incluso sus bases anatómicas⁹. Para poder establecer un modelo de interpretación de la enfermedad y lo que es más importante, el mejor abordaje terapéutico posible, es necesario partir de una base sólida de conocimiento. Son escasos los estudios en los que se aborda no sólo la destreza manual sino cómo esta afecta a la función de la mano, o incluso, a la participación en las actividades de la vida diaria (AVD).

Por todo ello, los objetivos del presente estudio son describir la destreza manipulativa de los pacientes con distonía focal de la mano frente a las personas sin distonía, así como analizar cómo influye esta en la destreza y función manipulativa en las AVD.

Material y método

Esta investigación presenta un diseño observacional y transversal de tipo de casos y controles. Metodológicamente, se siguieron las recomendaciones para el desarrollo de estudio de casos y controles establecido por la declaración STROBE¹⁰.

Se reclutaron 24 participantes: 12 pacientes y 12 sujetos control. Los pacientes fueron derivados por el Servicio de Neurología del Hospital Ramón y Cajal.

La muestra del grupo de pacientes se hizo mediante muestreo consecutivo no probabilístico, mientras que la del grupo control se obtuvo por conveniencia y emparejamiento.

Los criterios de inclusión del grupo de casos fueron los siguientes: pacientes con edades comprendidas entre 18 y 75 años, con diagnóstico de distonía ocupacional/distonía focal o segmentaria (según la clasificación realizada por el Comité de la Fundación para la Investigación Médica de la Distonía en 1984) con afectación del miembro superior con evolución superior a un año. Los participantes debían estar en tratamiento con infiltraciones periódicas de toxina botulínica, y sin ningún otro fármaco con efecto en el sistema nervioso central y haber recibido la última infiltración, al menos cuatro meses antes. Para asegurar una muestra más homogénea y así poder aumentar la probabilidad obtener resultados fiables, se determinó como criterio de inclusión ser diestro.

Los criterios de exclusión fueron: contar con diagnóstico de distonía secundaria, de alguna otra enfermedad neurológica o neurodegenerativa, así como presentar diagnóstico de enfermedad o traumatismo musculoesquelético, con afectación en los miembros superiores.

El estudio fue aprobado por el comité de ética de XXXXXXXXXXXX y de XXXXXXXX, de acuerdo a los principios éticos para las investigaciones médicas en seres humanos de la Declaración de Helsinki adoptada en la 18ª Asamblea de la Asociación Médica Mundial (AMM) (Helsinki, Finlandia, Junio 1964) y sus revisiones posteriores. Tras reclutar a los participantes del estudio, se procedió a la firma del consentimiento informado por su parte para la inclusión en la investigación.

La fase de administración de las pruebas de evaluación se llevó a cabo en la XXXX durante cinco meses. Se obtuvieron datos sociodemográficos y datos clínicos retrospectivos. En el caso de las variables sociodemográficas relacionadas con la afectación musculoesquelética y las dificultades psicosociales y síntomas ansioso-depresivos, se realizó una evaluación subjetiva, mediante una entrevista semiestructurada con el objetivo de obtener información sociodemográfica y retrospectiva sobre el estado general del paciente.

Las pruebas administradas mantuvieron el siguiente orden: *Nine Hole Peg Test* (NHPT), *Box and Blocks Test* (BBT), *Purdue Pegboard Test* (PPT) y *Jebsen-Taylor Test of Hand Function* (JTTHF). Todas ellas se seleccionaron por sus propiedades psicométricas, tanto en términos de validez como de fiabilidad y sensibilidad para detectar alteraciones en la función manual en diferentes edades y condiciones clínicas como esclerosis múltiple y distonía ocupacional, entre otros¹¹⁻¹⁵.

La destreza manual fina se midió mediante el NHPT. Consiste en la colocación de nueve clavijas en sus agujeros correspondientes para, posteriormente, proceder a quitarlos lo más rápido posible. Se registra el tiempo que tarda la persona en poner y quitar las clavijas¹⁶.

El BBT evaluó la destreza manual gruesa unilateral. Es de fácil administración y breve duración. El sujeto debe mover, uno por uno, el número máximo de bloques de un comparación a otro en un plazo de 60 segundos, comenzando con el miembro superior no afectado. Las puntuaciones más altas son indicativas de una mejor destreza manual. Cuenta

con instrucciones estandarizadas para su administración y puntuación¹⁷.

Para medir la destreza motora de la mano, de manera unilateral o bimanual se administró el PPT. La prueba cuenta con un tablero con orificios y cuatro recipientes dispuestos con clavijas, arandelas y tubos. Los participantes deben realizar cuatro subpruebas: insertar con la mano dominante, insertar con la mano no dominante, con ambas manos simultáneamente y ensamblaje. Para cada una de ellas se dispone de 30 segundos excepto para el ensamblaje en el que cuenta con 60 segundos para su realización. Es de fácil administración y de breve duración (5 minutos)¹⁸.

En el JTTHF se evaluó una amplia gama de funciones manuales comúnmente usadas en AVD. Consta de siete subtest (escritura, pasar hojas de manera simulada, levantar objetos comunes de pequeño tamaño, alimentación simulada, apilar fichas, levantar objetos livianos de gran tamaño, levantar objetos pesados de gran tamaño), que se realizan primero con la mano no dominante, y luego con la mano dominante, cada una de ellas. La realización de dicha prueba se cronometra^{19,20}.

Análisis estadístico

Se calcularon los estadísticos descriptivos para las variables, en función de la edad, el sexo, el nivel de estudios, los años de duración de la enfermedad, la afectación neuromusculoesquelética y los problemas psicoemocionales (tabla 1). Para las variables cuantitativas con distribución normal, se calculó la media y la desviación estándar y para las variables con distribución no paramétrica, se calcularon la mediana y los cuartiles 25 y 75 (q1-q3).

En primer lugar, se realizó el análisis de normalidad de la muestra y submuestras mediante el estadístico Shapiro-Wilks, y se analizó la diferencia de medias de las puntuaciones entre ambos grupos, con los estadísticos *t* de Student y *U* de Mann-Whitney, en función de la distribución paramétrica o no de las variables. Para la estimación de las diferencias entre los grupos, se calculó el tamaño del efecto y se utilizó el estadístico *d* de Cohen para las variables con distribución paramétrica y el cálculo de la *r* de Rosenthal (*r*) para las distribuciones no paramétricas. La interpretación se basó en la guía que Cohen (1988) facilitó para la interpretación de los resultados (0,2 = «efecto pequeño», 0,5 = «efecto medio», y 0,8 o más alto = «efecto grande»)^{21,22}.

En segundo lugar, se analizaron posteriormente las posibles correlaciones entre las variables, en función del hemicuerpo dominante y no dominante, por medio de la prueba paramétrica de Pearson y la prueba no paramétrica de Spearman.

El análisis de las variables se realizó con el programa estadístico IBM SPSS Statistics para Windows, versión 22.0 (Copyright© 2013 IBM SPSS Corp.).

Resultados

En la muestra total del estudio, participaron un total de 24 personas, siete mujeres y 17 hombres, con una media de edad de 50,79 ± 14,40 años (tabla 1). La muestra de casos y controles no mostró diferencias significativas en

Tabla 1 Datos sociodemográficos de la muestra

	n = 24	Distonía (n = 12)	No distonía (n = 12)
Diagnóstico, distonía n (%) / no distonía n (%)	12 (50) / 12 (50)		
Edad, media (DE) (min-máx)	50,79 (14,40) (25-76)	51,50 (16,80) (25-76)	50,08 (12,25) (25-65)
Sexo, mujer n (%) / hombre n (%)	7 (29,2) / 17 (70,8)	3 (25) / 9 (75)	4 (33,3) / 8 (66,7)
Estudios, básico/medio/superior (%)	2 (8,3) / 5 (20,8) / 17 (70,8)	2 (16,7) / 5 (41,7) / 5 (41,7)	0 (0) / 0 (0) / 12 (100)
Años duración enfermedad, media (DE)(min-máx)	6,22 (11,95) (0-50)	13 (14,74) (1-50)	0 (0) (0-0)
Afectación musculoesquelética, cuello / hombro derecho / columna lumbar / nada n (%)	2 (8,3) / 3 (12,5) / 1 (4,2) / 18 (75)	2 (16,7) / 3 (25) / 1 (8,3) / 6 (50)	0 (0) / 0 (0) / 1 (9,1) / 10 (90,9)
Problemas psicoemocionales, ansiedad / frustración / combinación / nada n (%)	5 (20,8) / 1 (4,2) / 1 (4,2) / 17 (70,8)	4 (33,3) / 1 (8,3) / 1 (8,3) / 6 (50)	1 (8,3) / 0(0) / 0(0) / 11 (91,7)

DE: Desviación estándar; p: estadístico *t* de Student (diferencias entre grupos sí $p < 0,05$).

edad y sexo ($p > 0,05$); sin embargo, para el resto de las variables sociodemográficas, las diferencias sí fueron significativas ($p < 0,05$). Del total de participantes con distonía focal se observó que, aunque la mitad de la muestra no identificó signos de afectación neuromuscular, ni problemas psicoemocionales, un menor porcentaje de estos pacientes identificaron dificultades asociadas con el hombro derecho (25%) y el estado ansioso (33,3%) (tabla 1).

En la tabla 2 se muestran los estadísticos descriptivos de las evaluaciones administradas. Se observó que los pacientes con distonía focal precisaron de un tiempo de ejecución más elevado en las pruebas de destreza y función manual que los pacientes del grupo control, salvo en las pruebas del lado dominante del PPT y JTTHF de simulación de alimentación.

La diferencia de medias en la puntuación entre ambos grupos y la magnitud de dicha diferencia, mediante el cálculo del tamaño del efecto, se muestran en la tabla 2. Se observaron diferencias significativas entre grupos en la destreza manual del lado dominante del NHPT ($p = 0,01$) y en la prueba bilateral y de ensamblaje del PPT ($p = 0,00$; $p = 0,01$). Se evidenciaron diferencias significativas entre grupos en las variables analizadas de la función manual del lado dominante en las subpruebas del JTTHF de escritura ($p = 0,00$), pasar hojas ($p = 0,00$), y mover objetos livianos ($p = 0,00$) y diferencias en la función manual del lado no dominante de las subpruebas de coger objetos pequeños ($p = 0,02$), mover fichas (0,03) y mover objetos livianos ($p = 0,05$).

La estimación de la magnitud de las diferencias en la destreza manual entre el grupo de pacientes con distonía focal y el grupo control, detectó un tamaño del efecto grande en la subprueba de ensamblaje del PPT ($d = 1,28$). Las subpruebas del JTTHF del lado dominante, mostraron un tamaño del efecto medio ($0,5 \geq r \leq 0,8$), en comparación con las subpruebas del lado no dominante, que indicaron un tamaño del efecto pequeño ($r < 0,5$).

Respecto al análisis correlacional entre las variables dependientes (tabla 3), se puede observar cómo en el grupo

de pacientes con distonía focal se identificaron correlaciones significativas positivas en el hemicuerpo dominante entre la prueba de destreza manual del NHPT y las subpruebas de función manual del JTTHF de escritura, coger objetos pequeños, apilar fichas, mover objetos livianos y mover objetos pesados. De esta forma, a mayor rapidez en la realización de la prueba de destreza manual, menor tiempo de ejecución y mayor función de la mano.

En la prueba de destreza manual gruesa del lado dominante del BBT y las subpruebas del lado dominante del JTTHF apilar fichas, mover objetos livianos y mover objetos pesados, mostraron correlaciones negativas significativas en el mismo grupo de pacientes. Por tanto, a menor cantidad de cubos desplazados, mayor cantidad de tiempo y menor función manual (tabla 3).

En el grupo de pacientes con distonía focal se observaron correlaciones negativas significativas, en el hemicuerpo dominante, en las pruebas de destreza manual de lado dominante del PPT y las subpruebas del JTTHF de escritura, pasar hojas, simulación de alimentación, mover objetos livianos y mover objetos pesados, lo que indica que, a menor número de clavijas insertadas, mayor cantidad de tiempo y menor función manual (tabla 3).

Discusión

Uno de los objetivos del presente estudio era describir la destreza y función manual de las personas con distonía segmentaria o focal de la mano. Según los resultados encontrados, en general las personas con distonía focal de la mano presentan peores valores en la destreza y función manipulativa comparado con las personas sin distonía, reflejando un tiempo de ejecución más elevado y peor ejecución. Estos datos se corroboran con lo ya explorado por Alemán et al.²³, en el que, a pesar de que el objetivo principal de su estudio era evaluar las implicaciones cognitivas de

Tabla 2 Estadísticos descriptivos de las muestras, diferencia de medias en la puntuación entre ambos grupos y el cálculo del tamaño del efecto

	Distonía (n = 12)	No distonía (n = 12)	p ¹	p ²	d	r
<i>Nine Hole Peg Test</i>						
NHPT_HEM.D, mediana (q1-q3)	24,56 (19,72-29,98)	18,94 (16,94-22,26)	—	0,01*	—	0,48
NHPT_HEM.ND, mediana (q1-q3)	21,49 (19,34-24,36)	21,13 (18,97-23,13)	—	0,72	—	—
<i>Purdue Pegboard Test</i>						
PPT.D, mediana (q1-q3)	13,50 (10,25-14)	15 (13-17)	—	0,06	—	—
PPT.ND, mediana (q1-q3)	12,50 (10,25-14)	13,50 (12,25-15)	—	0,09	—	—
PPT.BI, mediana (q1-q3)	10,50 (7,25-18)	18 (14,50-22)	—	0,01*	—	0,52
PPT.ENS, media (DE)	22,25 (4,73)	31,25 (8,70)	0,00*	—	1,28	—
<i>Box and Block Test</i>						
BBT.D, mediana (q1-q3)	62 (48,75-65)	62,50 (56,25-72,50)	—	0,49	—	—
BBT.ND, media (DE)	61,50 (7,47)	62,33 (12,21)	0,18	—	—	—
<i>Jebsen Taylor Test of Hand Function</i>						
JTTHF_ES.D, mediana (q1-q3)	19,93 (13,04-44,88)	10,08 (9,50-12,83)	—	0,00*	—	0,67
JTTHF_ES.ND, media (DE)	38,31 (16,33)	30,08 (12,50)	0,17	—	—	—
JTTHF_HOJ.D, mediana (q1-q3)	5,04 (4,31-6,97)	3,67 (3,39-4,09)	—	0,00*	—	0,63
JTTHF_HOJ.ND, mediana (q1-q3)	5 (3,85-6,17)	4,07 (3,63-4,65)	—	0,11	—	—
JTTHF_OPEQ.D, media (DE)	6,63 (1,24)	6,67 (2,32)	0,96	—	—	—
JTTHF_OPEQ.ND, mediana (q1-q3)	6,91 (6,25-7,79)	5,99 (5,83-6,58)	—	0,02*	—	0,46
JTTHF_ALI.D, mediana (q1-q3)	7,28 (5,79-15,05)	7 (5,12-9,78)	—	0,41	—	—
JTTHF_ALI.ND, media (DE)	9,96 (1,69)	10,22 (3,98)	0,83	0,83	—	—
JTTHF_FICH.D, mediana (q1-q3)	2,65 (1,84-5,32)	1,94 (1,55-2,30)	—	0,13	—	—
JTTHF_FICH.ND, mediana (q1-q3)	2,92 (2,42-4,53)	2,19 (1,74-3,07)	—	0,03*	—	0,43
JTTHF_OLIV.D, mediana (q1-q3)	3,88 (3,41-5,10)	3,26 (2,67-3,57)	—	0,00*	—	0,54
JTTHF_OLIV.ND, mediana (q1-q3)	4,07 (3,54-4,46)	3,50 (3,22-3,91)	—	0,05*	—	0,38
JTTHF_OPES.D, mediana (q1-q3)	3,44 (3,08-4,61)	3,38 (2,71-3,71)	—	0,43	—	—
JTTHF_OPES.ND, mediana (q1-q3)	3,65 (3,30-4,22)	3,52 (2,90-4,04)	—	0,37	—	—

p1: estadístico t de Student (diferencias entre grupos sí p < 0,05); p2: Estadístico U-Mann-Whitney (diferencias entre grupos sí p < 0,05); d: d de Cohen; r: R de Rosenthal.

NHPT_HEM.D: *Nine Hole Peg Test* lado dominante; NHPT_HEM.ND: *Nine Hole Peg Test* lado no dominante; PPT.D: *Purdue Pegboard Test* lado dominante; PPT.ND: *Purdue Pegboard Test* lado no dominante; PPT.BI: *Purdue Pegboard Test* bilateral; PPT.ENS: *Purdue Pegboard Test* ensamblaje; BBT.D: *Box and Block Test* lado dominante; BBT.ND: *Box and Block Test* lado no dominante; JTTHF_ES.D: *Jebsen-Taylor Hand Function Test*, escritura lado dominante; JTTHF_ES.ND: *Jebsen-Taylor Hand Function Test* escritura no dominante; JTTHF_HOJ.D: *Jebsen-Taylor Hand Function Test*, pasar hojas lado dominante; JTTHF_HOJ.ND: *Jebsen-Taylor Hand Function Test*, pasar hojas lado no dominante; JTTHF_OPEQ.D: *Jebsen-Taylor Hand Function Test*, objetos pequeños lado dominante; JTTHF_OPEQ.ND: *Jebsen-Taylor Hand Function Test*, objetos pequeños lado no dominante; JTTHF_ALI.D: *Jebsen-Taylor Hand Function Test*, similar alimentación lado dominante; JTTHF_ALI.ND: *Jebsen-Taylor Hand Function Test*, similar alimentación lado no dominante; JTTHF_FICH.D: *Jebsen-Taylor Hand Function Test*, apilar fichas lado dominante; JTTHF_FICH.ND: *Jebsen-Taylor Hand Function Test*, apilar fichas lado no dominante; JTTHF_OLIV.D: *Jebsen-Taylor Hand Function Test*, mover objetos livianos lado dominante; JTTHF_OLIV.ND: *Jebsen-Taylor Hand Function Test*, mover objetos livianos lado no dominante; JTTHF_OPES.D: *Jebsen-Taylor Hand Function Test*, mover objetos pesados, lado dominante; JTTHF_OPES.ND: *Jebsen-Taylor Hand Function Test*, mover objetos pesados lado no dominante.

la distonía añadieron también el análisis de su impacto en la función manual, sus datos concluyen un desempeño significativamente peor en los pacientes con distonía que en los controles. Asimismo, Allgöwer et al.¹² mostraron que los pacientes con distonía del escribiente presentaban problemas en tareas de coordinación motora fina con alta demanda de coordinación y componentes visuales. Esto iría en consonancia con diferentes estudios que apoyan la evidencia de que hay problemas de procesamiento sensorial en este trastorno y constatan la existencia de zonas cerebrales de representación somatosensorial que presentan anomalías en el tamaño y en la organización^{24,25}.

Según nuestros resultados no se encuentran diferencias significativas en todas las variables, pudiendo ser esto algo inesperado, pero el tamaño muestral seguramente sea una

de las causas principales de esta situación, no obstante, si atendemos al tamaño del efecto, encontraremos diferencia en algunas de las subpruebas. Allgöwer et al.¹² muestran resultados similares, ya que estos mismos autores no presentan diferencias significativas en dos pruebas de función manual a pesar de que los resultados son más bajos que el grupo control. Parece ser que esto estaría en consonancia con resultados anteriores, en los estudios de Horstink et al.²⁶ no se hallaron diferencias entre los pacientes con distonía focal y el grupo control en la prueba del PPT, y en el estudio de Bleton et al.²⁷, quienes, a pesar de encontrar déficit en la fuerza de agarre, no objetivaron déficits ni en la destreza ni en la función sensorial. Como hemos apuntado anteriormente, quizá esto se deba al número de participantes en los estudios, ya que ambos cuentan con un reducido

Tabla 3 Correlaciones entre variables dependientes

	Casos NHPT_HEM_DOM	Controles		Casos NHPT_HEM_ND	Controles
JTTHF_ES_D	0,659*	0,077	JTTHF_ES_ND	0,546	0,462
JTTHF_HOJ_D	0,330	0,450	JTTHF_HOJ_ND	0,434	0,004
JTTHF_OPEQ_D	0,643*	0,713**	JTTHF_OPEQ_ND	0,571	0,574
JTTHF_ALI_D	0,404	0,004	JTTHF_ALI_ND	0,235	0,350
JTTHF_FICH_D	0,712**	0,650*	JTTHF_FICH_ND	0,238	0,469
JTTHF_OLIV_D	0,846**	0,396	JTTHF_OLIV_ND	0,106	0,344
JTTHF_OPES_D	0,809**	0,411	JTTHF_OPES_ND	0,396	0,594*
	Casos BBT_D	Controles		Casos BBT_ND	Controles
JTTHF_ES_D	-0,501	-0,113	JTTHF_ES_ND	-0,600*	-0,417
JTTHF_HOJ_D	-0,145	-0,476	JTTHF_HOJ_ND	-0,336	-0,041
JTTHF_OPEQ_D	-0,552	-0,190	JTTHF_OPEQ_ND	-0,335	0,077
JTTHF_ALI_D	-0,450	0,007	JTTHF_ALI_ND	0,166	-0,039
JTTHF_FICH_D	-0,763**	-0,455	JTTHF_FICH_ND	-0,474	-0,024
JTTHF_OLIV_D	-0,698*	-0,708*	JTTHF_OLIV_ND	0,157	-0,452
JTTHF_OPES_D	-0,795**	-0,701*	JTTHF_OPES_ND	-0,419	-0,574
	Casos PPT_D	Controles		Casos PPT_ND	Controles
JTTHF_ES_D	-0,858**	-0,005	JTTHF_ES_ND	-0,307	-0,593*
JTTHF_HOJ_D	-0,664*	-0,447	JTTHF_HOJ_ND	-0,364	0,058
JTTHF_OPEQ_D	-0,569	-0,769**	JTTHF_OPEQ_ND	-0,404	-0,351
JTTHF_ALI_D	-0,620	-0,034	JTTHF_ALI_ND	-0,102	-0,242
JTTHF_FICH_D	-0,546	-0,757**	JTTHF_FICH_ND	-0,104	-0,477
JTTHF_OBJLIV_D	-0,821**	-0,623*	JTTHF_OBJLIV_ND	-0,010	-0,491
JTTHF_OBJPES_D	-0,795**	-0,574	JTTHF_OBJPES_ND	-0,007	-0,714**

* p < 0,05.

** p < 0,01.

tamaño muestral, habiendo en el último estudio tan sólo seis pacientes afectados por distonía de la mano.

Otro de los objetivos planteados en el estudio era analizar la influencia de la distonía focal en la destreza y función manipulativa de las actividades de la vida diaria. En este sentido, en su diseño, uno de los propósitos del JTHFT fue valorar los patrones de la función manual que se utilizan generalmente para la ejecución de las actividades cotidianas¹⁹. Lynch et al., encontraron correlaciones entre el JTHFT y la escala Klein-Bell, en una cohorte de pacientes con lesión medular, por lo que el JTHFT puede ser útil para predecir el uso funcional de la mano en las AVD¹⁵. Según los resultados presentados en nuestra investigación, el tiempo de ejecución es uno de los grandes determinantes para la función manual, lo que se traduciría en una ejecución inadecuada de las AVD. La distonía focal afecta a diferentes tareas motoras de un modo más global de lo que *a priori* pudiera parecer. Este impacto en la función manual determinado por la velocidad que se encuentra en nuestros resultados es acorde a lo hallado en otros trabajos como el de Van Vugt et al.²⁸ en 2014. Su estudio estaba enfocado a pacientes con distonía del músico en pianistas y apuntaron que, además de presentar problemas en su actividad como músicos probablemente tenían dificultades con otras tareas motoras y la motricidad fina en otros contextos. En dicho trabajo no se

evaluaron específicamente estas tareas si no que se infirió por la mejora a través de las terapias empleadas.

En la misma línea, en la revisión de Stahl et al. en 2017²⁹ encontraron en los estudios analizados que, aunque la sobreactivación motora anormal se produzca durante la realización de una actividad específica (y esta se relacione con la ocupación de la persona), si los síntomas son graves afecta de un modo global a la vida del individuo, reduciendo su participación y desempeño en las AVD.

Como limitaciones del estudio encontramos que el tamaño muestral es muy reducido y además la procedencia de la muestra es de la misma zona geográfica, lo que supone una limitación al dificultar la extrapolación de los resultados. Sin embargo, dada la característica de «enfermedad rara» no es fácil obtener muestras homogéneas más elevadas.

Respecto a las implicaciones clínicas de los datos obtenidos, puesto que parece que las personas con distonía focal de la mano muestran déficit en la destreza manipulativa y su consecuente repercusión en las AVD, se sugiere una atención específica en entornos de rehabilitación del miembro superior, centrada en aspectos como el agarre, la velocidad, la coordinación fina y su funcionalidad en actividades cotidianas.

Conclusiones

Los hallazgos encontrados en el presente trabajo señalan que la distonía focal de la mano afecta a la destreza manipulativa de estos pacientes, presentando una peor ejecución y requiriendo más tiempo para su ejecución.

El desempeño de las AVD de los pacientes con distonía focal de la mano también se ve afectado en aquellas actividades que requieren mayor precisión y coordinación de la mano dominante.

Dadas las limitaciones de nuestro estudio serán necesarios nuevos trabajos en esta línea para obtener resultados más concluyentes.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Albanese A, Bhatia K, Bressman SB, DeLong M, Fahn S, Fung V, et al. Phenomenology and classification of dystonia: A consensus update. *Mov Disord*. 2013;28:863–73.
2. Nowak DA, Rosenkranz K, Topka H, Rothwell J. Disturbances of grip force behaviour in focal hand dystonia: Evidence for a generalised impairment of sensory-motor integration? *J Neurol Neurosurg Psychiatr*. 2005;76:953–9.
3. Marsden CD, Sheehy MP. Writer's cramp. *Trends Neurosci*. 1990;13:148–53.
4. Leijnse JN, Hallett M. Etiological musculo-skeletal factor in focal dystonia in a musician's hand: A case study of the right hand of a guitarist. *Mov Disord*. 2007;22:1803–8.
5. Doshi PK, Ramdasi R, Karkera B, Kadlas D. Surgical Interventions for Task-specific Dystonia (Writer's Dystonia). *Ann Indian Acad Neurol*. 2017;20:324–7.
6. Sharma N. Neuropathology of Dystonia. *Tremor Other Hyperkinet Mov*. 2019;9:569.
7. Sadnicka A. Task-specific dystonia: pathophysiology and management. *J Neurol Neurosurg Psychiatr*. 2016;87:968.
8. Ham JH, Kim SJ, Song SK, Lyoo CH, Lee PH, Sohn YH, et al. A prognostic factor in focal hand dystonia: typist's cramp cases and literature review. *J Neurol Sci*. 2016;371:85–7.
9. Jinnah HA, Neychev V, Hess EJ. The Anatomical Basis for Dystonia: The Motor Network Model. *Tremor Other Hyperkinet Mov*. 2017;7(Oct.):506.
10. Von Elm E, Altman DG, Egger M, Pocock SJ, Gøtzsche PC, Vandenbroucke JP. The Strengthening the Reporting of Observational Studies in Epidemiology (STROBE) statement: Guidelines for reporting observational studies. *J Clin Epidemiol*. 2008;61:344–9.
11. Wang YC, Bohannon RW, Kapellusch J, Garg A, Gershon RC. Dexterity as measured with the 9-Hole Peg Test (9-HPT) across the age span. *J Hand Ther*. 2015;28:53–9.
12. Allgöwer K, Fürholzer W, Hermsdörfer J. Impaired performance of patients with writer's cramp in complex fine motor tasks. *Clin Neurophysiol*. 2018;129:2392–402.
13. Desrosiers J, Bravo G, Hébert R, Dutil E, Mercier L. Validation of the Box-and-Block test as a measure of dexterity of elderly people: reliability, validity, and norms studies. *Arch Phys Med Rehabil*. 1994;75:751–5.
14. Reddon JR, Gill DM, Gauk SE, Maerz MD. Purdue Pegboard: test-retest estimates. *Percept Mot Skills*. 1988;66:503–6.
15. Lynch KB, Bridle MJ. Validity of the Jebsen-Taylor Hand Function Test in predicting activities of 9 daily living. *OTJR*. 1989;9:316–8.
16. Feys P. The Nine-Hole Peg Test as a manual dexterity performance measure for multiple sclerosis. *Mult Scler*. 2017;23:711–21.
17. Mathiowetz V, Volland G, Kashman N, Weber K. Adult norms for the Box and Block Test of manual dexterity. *Am J Occup Ther*. 1985;39:386–91.
18. Buddenberg LA, Brief report. Test-retest reliability of the Purdue Pegboard Test. *Am J Occup Ther*. 2000;54:555–9.
19. Jebsen RH. An objective and standardized test of hand function. *Arch Phys Med Rehabil*. 1969;50:311.
20. Nobilia M, Culicchia G, Tofani M, De Santis R, Savona A, Guarino D, et al. Italian Version of the Jebsen-Taylor Hand Function Test for the Assessment of Hand Disorders: A Cross-Sectional Study. *Am J Occup Ther*. 2019;73:1–6.
21. Cohen J. *Statistical power analysis for the behavioral sciences*. Lawrence Erlbaum Associates, Publishers. 2013.
22. Rosenthal R. *Meta-analytic procedures for social research*. 2 nd ed. Newbury Park: CA: SAGE; 1991.
23. Alemán GG, de Erausquin GA, Micheli F. Cognitive disturbances in primary blepharospasm. *Mov Disord*. 2009;24:2112–20.
24. Kadota H, Nakajima Y, Miyazaki M, Sekiguchi H, Kohno Y, Amako M, et al. An fMRI study of musicians with focal dystonia during tapping tasks. *J Neurol*. 2010;257:1092–8.
25. Nelson AJ, Blake DT, Chen R. Digit specific aberrations in the primary somatosensory cortex in writer's cramp. *Ann Neurol*. 2009;66:146–54.
26. Horstink CA. Low striatal D2 receptor binding as assessed by [¹²³I]IBZM SPECT in patients with writer's cramp. *J Neurol Neurosurg Psychiatr*. 1997;62:672.
27. Bleton J-, Teremetz M, Vidailhet M, Mesure S, Maier MA, Lindberg PG. Impaired force control in writer's cramp showing a bilateral deficit in sensorimotor integration. *Mov Disord*. 2014;29:130–4.
28. Van Vugt FT, Boullet L, Jabusch H, Altenmüller E. Musician's dystonia in pianists: long-term evaluation of retraining and other therapies. *Parkinsonism Relat Disord*. 2014;20:8–12.
29. Stahl CM, Frucht SJ. Focal task specific dystonia: a review and update. *J Neurol*. 2017;264:1536–41.