



UNIVERSIDAD DE JAÉN
Facultad de Ciencias de la Salud

Trabajo Fin de Grado

**Efectividad de la Electroestimulación
Transcraneal de Corriente Directa en
Distonías Focales. Una Revisión
Sistemática**

Alumno: Pareja Martínez, Fco José

Tutor: Prof. D. Juan Jiménez Anula
Dpto: Ciencias de la Salud

Mayo, 2017

ÍNDICE

1. Resumen
2. Introducción
 - I. Distonías
 - A. Definición de Distonía
 - B. Fisiopatología de las Distonías
 - C. Clasificación de las Distonías
 - D. Distonías Focales
 - E. Tratamiento
 - II. Estimulación Transcraneal de Corriente Directa
 - A. Definición y Exposición de la Técnica
 - B. Mecanismo de Acción
3. Objetivo
4. Material y Métodos
 - I. Estrategia de Búsqueda
 - II. Criterios de Inclusión
 - III. Criterios de Exclusión
 - IV. Evaluación de Calidad Metodológica
5. Síntesis de los Resultados
 - I. Selección de Estudios
 - II. Resultados
 - A. Uso de tDCS como Única Terapia
 - B. tDCS Combinado con Otras Técnicas
6. Discusión
7. Limitaciones del Estudio
8. Conclusión
9. Tablas y Esquemas
10. Bibliografía



1. Resumen

OBJETIVO: el objetivo de esta revisión sistemática es analizar los estudios publicados desde el año 2004 que evalúan la efectividad de electroestimulación transcraneal de corriente directa (tDCS) sobre las distonías focales para dilucidar si es un tratamiento de efectividad en este tipo de patologías.

MATERIAL Y MÉTODOS: se realizó una búsqueda bibliográfica en Scopus, PubMed, PEDro y Cochrane en la cual se hallaron 8 artículos que cumplían con los criterios de inclusión. Fueron evaluados con la escala PEDro.

RESULTADOS: no está claro que el uso de tDCS sea efectivo en las distonías focales ya sea como única terapia o en combinación con otros tipos de tratamiento.

CONCLUSIÓN: no existe una evidencia lo suficientemente sólida como para aclarar si el uso de tDCS en distonías focales es realmente efectivo no.

PALABRAS CLAVE: “focal dystonia” “transcranial direct current stimulation” “focal task-specific dystonia” “writer cramp” “musician dystonia” “blepharospasm”

Abstract

AIM: The objective of this systematic review is to analyze the studies published since 2004 that evaluate the effectiveness of transcranial direct current stimulation (tDCS) on focal dystonias to elucidate whether it is an effective treatment in this type of pathologies.

METHODS: a bibliographic search was carried out in Scopus, PubMed, PEDro and Cochrane, in which 8 articles were found that fulfilled the inclusion criteria. They were evaluated with the PEDro scale.

RESULTS: it is not clear that the use of tDCS is effective in focal dystonias either as single therapy or in combination with other types of treatment.

CONCLUSION: There is no evidence strong enough to clarify whether the use of tDCS in focal dystonias is actually not effective.

KEYWORDS: “focal dystonia” “transcranial direct current stimulation” “focal task-specific dystonia” “writer cramp” “musician dystonia” “blepharospasm”

2. Introducción

I. Distonías

A. Definición de Distonía

Las distonías son un grupo de trastornos del movimiento cuya clínica se manifiesta habitualmente en forma de contracciones musculares sostenidas o intermitentes, movimientos anormales que suelen repetirse y posturas no fisiológicas.¹

El término fue acuñado por Oppenheim en su artículo de 1911 en el cual describía los síntomas extraordinarios de 4 niños judíos, aunque la patología ya había sido descubierta hacia 1830. Definió la enfermedad por el nombre de “Dystonia Musculorum Deformans”.²

La distonía puede afectar a cualquier área corporal y sus formas generalizadas tienen un origen genético, manifestándose durante la infancia. Aunque las más frecuentes son las distonías focales y las segmentarias.

B. Fisiopatología de las Distonías

La fisiopatología de las distonías no está clara y viene siendo motivo de estudio desde su descubrimiento.

Existen evidencias científicas sobre la relación entre las distonías y la aparición de patrones de organización topográfica anormales. Algunos de los estudios realizados sugieren que los movimientos de repetición que se dan por ejemplo en distonías ocupacionales, serían capaces de producir anomalías centrales en el proceso sensorial y, por ende, en el rendimiento motor. Estudios experimentales con primates sustentan dicha teoría.³

Algunos catalizadores de este fenómeno serían: posturas incómodas, dolor y atención al movimiento, etc. Todos factores importantes en la modulación de un estímulo sensitivo.

Evidencia en estudios neurofisiológicos y estudios funcionales de imágenes apuntan en mismo sentido. Un estudio de flujo cerebral con tomografía por emisión de positrones en pacientes con distonía focal de la mano, confirmó que se produce un incremento en la actividad neuronal de la corteza sensitivo/motora contralateral. Y otro estudio neurofisiológico con estimulación transcraneal reportó un crecimiento de la representación cortical motora de pequeños músculos en pacientes con la misma distonía.⁴

Algunos hallazgos confirman la existencia de actividad neuronal relacionada con la distonía en el globus pallidus de los ganglios basales. Estos estudios exponen que un patrón alterado de la actividad neuronal está asociado con la aparición de las distonías. Si se demostrara con suficiente evidencia que esto es así, las distonías se ajustarían al modelo de trastornos del movimiento hiperkinético o discinesias.⁵

Levy et al.⁶ comprobaron en su estudio que una disminución de los niveles de ácido γ -aminobutírico (GABA) cortical se correlaciona con estudios fisiológicos de reducción de la inhibición intracortical. Concluyen que la disminución de la GABA en determinadas zonas de los ganglios basales da como resultado un déficit de la actividad neuronal que incurre en los fallos motores propios de la distonía. De hecho, algunos estudios farmacológicos experimentales previos realizados en hámsteres indican que una inhibición de la GABA puede ser responsable de la distonía.⁷ Así mismo, los fármacos que aumentan la actividad del GABA, como benzodiazepinas mejoran la sintomatología de la distonía y la aplicación de la bicuculina, inhibidora de la GABA, puede conducir a movimientos de tipo distónico. Aunque estos estudios solo se han realizado en animales.⁸

Otra línea de estudios ha investigado cuál es el papel del tálamo y, más concretamente, del núcleo ventrolateral en esta patología. Al parecer, las neuronas de la región se descargan con una actividad neuronal semejante a la frecuencia de la distonía o con una actividad rápida que daría lugar a la aparición de la misma.⁹

C. Clasificación de las Distonías

Clasificaremos las distonías siguiendo los siguientes criterios: su distribución y su etiología, si bien pueden clasificarse también atendiendo a la edad en que se manifiestan o al curso clínico que siguen.¹⁰

➤ **SEGÚN SU DISTRIBUCIÓN**

- ❖ **Focal:** afecta a un solo músculo o a un grupo muscular.
- ❖ **Segmentaria:** afecta a varios músculos de regiones contiguas.
- ❖ **Multifocal:** se da en dos o más regiones corporales que no son contiguas.
- ❖ **Generalizada:** uno o ambos miembros inferiores y otro segmento corporal
- ❖ **Hemidistonía:** miembro superior y miembro inferior homolateral.

➤ **SEGÚN SU ETIOLOGÍA**

- ❖ **Primaria:** el único síntoma extrapiramidal es la propia distonía.
 - **Hereditaria:** suele ser generalizada.
 - **Esporádica:** focal o segmentaria.
- ❖ **Secundaria:** la distonía surge como un síntoma secundario a otra enfermedad que puede ser hereditaria, de causa infecciosa, metabólica o debida a una intoxicación.

D. Distonías Focales

Las distonías focales son aquellas que afectan a una parte del cuerpo aislada. Dentro de estas es necesario mencionar las distonías ocupacionales o distonías de tarea específica (task-specific dystonia) que suelen afectar a pacientes cuya



profesión requiere de la realización de un movimiento repetitivo que será el que origine la distonía (así, aparecen las distonías del escribiente, el músico, la bailarina, etc.)¹¹

Es, además, la más común de las distonías primarias, seguida de la segmentaria, la multifocal y la generalizada.

Las distonías focales se clasifican según la zona a la que afectan (de la mano, cervical, blefaroespasmos, etc.) o si son funcionales se las conoce por el oficio del paciente (del pistolero, del músico, de la bailarina, etc.

➤ **EPIDEMIOLOGÍA**

Se conoce que afecta mayoritariamente a varones y que su prevalencia en la población se estima entre las 7 y 69 personas por millón de habitantes¹² si bien existen grupos en los que la prevalencia es mayor como el conjunto de los judíos asquenazíes a los cuales algunos estudios atribuyen una prevalencia de 100 casos por millón.¹³

A. SINTOMATOLOGÍA

Los síntomas pueden ser muy sutiles. Al principio, puede haber sólo una pérdida percibida de destreza sin nada obvio en el examen de la región del cuerpo afectado que se identifica como torpeza por los pacientes. Suele progresar insidiosamente durante semanas o meses, y las fluctuaciones de los síntomas son comunes, pero las remisiones son raras. Es importante indicar como algunos pacientes solo encuentran dificultad al realizar una determinada tarea, esto es, escribir (a veces incluso una determinada letra) o al tocar un determinado instrumento aunque, con el tiempo, todos los pacientes reportan dificultad con otras habilidades motoras finas que disminuyen su propia calidad de vida. Es por este motivo que algunos autores hacen una diferenciación entre una distonía del escribiente y una distonía de la mano, por ejemplo, pero otros las identifican como la misma patología.¹³

B. FACTORES DE RIESGO

- ❖ **Genéticos:** existe una predisposición genética a padecer la enfermedad. Diferentes etnias tienen un mayor riesgo de que aparezca la patología.¹³ Además, algunos estudios analizan determinadas poblaciones en busca de las mutaciones que se relacionan con este tipo de distonías, como el de Wang et al.¹⁴ que encontró que las mutaciones TOR1A y THAP1 en la población china pueden dar lugar a la aparición de la enfermedad.
- ❖ **Ambientales:** nos referimos al tipo de tarea que se desarrolla y que da como resultado la aparición de la distonía. Así, deportistas de élite o músicos profesionales que llevan la calidad de esos movimientos específicos al extremo tienen mayor probabilidad de padecer una distonía focal.¹³

E. Tratamiento de las Distonías

Algunos de los tratamientos que se han venido realizando para paliar esta patología son:

➤ FARMACOLOGÍA

Los fármacos dopaminérgicos y gabaérgicos se han empleado empíricamente con cierto éxito incoherente para la distonía generalizada y distonía focal severa.

Los agentes anticolinérgicos como la primidona y la fenitoína se han intentado con respuestas incoherentes y efectos secundarios intolerables.² Aunque en un estudio realizado por Balash et al.¹⁶ se

descubrió que el trihexifenidilo podría ser efectivo en menores de 30 años.

➤ **TOXINA BOTULÍNICA**

De los 7 tipos de toxina botulínica que hay (del tipo A al G) solo se usan con fines clínicos los tipos A y B.¹⁴

La función de esta toxina en estos casos es la de inhibir la liberación de acetilcolina lo que provoca una quimiodenervación y la parálisis controlada de los músculos afectados evitando los movimientos involuntarios característicos de la patología.¹⁶

➤ **CIRUGÍA**

Una de las intervenciones más frecuentes desde los 50 eran las talamotomías ventro-orales del tálamo que demostraron ser efectivas en algunos estudios como el realizado por Taira et al.¹⁷ si bien actualmente se sopesan bien las opciones no invasivas antes de realizar la intervención.²

➤ **FISIOTERAPIA**

De Pauw et al.¹⁸ en una revisión sistemática de 2014 de 16 artículos detallan que la rehabilitación es una excelente forma de paliar y mejorar los síntomas de la distonía. Los tratamientos de más habituales incluyen entrenamiento de biofeedback con electromiógrafo (EMG), elongación muscular, ejercicios posturales y electroterapia.

➤ **ELECTROESTIMULACIÓN DE CORRIENTE DIRECTA**

Sobre esta técnica versará nuestro artículo en el que intentaremos dilucidar si su uso es realmente efectivo en esta patología o no.

II. Estimulación Transcraneal de Corriente Directa

A. Definición y exposición de la técnica

La estimulación transcraneal de corriente directa (tDCS) es un método de estimulación cerebral no invasivo (Non-Invasive Brain Stimulation; NIBS) que modula el potencial de campo local en el tejido neural y, en consecuencia, la excitabilidad cortical.¹⁹

La configuración tDCS convencional requiere un pequeño estimulador tDCS con una batería de 9 V, dos electrodos de esponja empapados en solución salina y una banda de goma para mantener los electrodos en su lugar en la cabeza pero existe un modelo más preciso conocido como HD-tDCS (o tDCS de alta definición) que consta de un casco e incluye varios electrodos pequeños adheridos a este.¹⁹

Los parámetros, que se modulan desde un programa informático, pueden variar ampliamente y dependerán del tamaño y el posicionamiento del electrodo, la intensidad, la duración de la estimulación y el número de sesiones por día.

El tamaño de los electrodos oscilará entre los 25 y 35 cm² y la intensidad entre los 0,5 y los 2 mA.²⁰

Constituye una herramienta de rehabilitación viable debido a sus limitados efectos secundarios y a su seguridad frente a la estimulación Transcraneal magnética.¹⁹

B. Mecanismo de Acción

El mecanismo primario de acción de la tDCS es una polarización del potencial de membrana en reposo²⁰ aunque investigaciones adicionales mostraron que también modifica el microambiente sináptico, por ejemplo, modificando la resistencia sináptica del receptor NMDA de forma independiente o alterando la actividad GABAérgica.²¹

Como un campo eléctrico constante desplaza a todas las moléculas polares y la mayoría de los neurotransmisores y receptores en el cerebro tienen propiedades eléctricas, el tDCS también podría influir en la función neuronal al inducir cambios neuroquímicos prolongados.²⁰

Aunque la mayoría de los estudios tempranos se han realizado en la corteza motora, debe tenerse en cuenta que el tDCS no sólo induce alteraciones duraderas de los potenciales evocados motores, sino que también afecta a potenciales somatosensoriales dependiendo del área que se estimule. Además, Winkler et al.²³ demostraron que la Tdcs modula la conducción a lo largo de la médula espinal y las vías reflejas segmentarias. Las técnicas NIBS como esta abren vías valiosas para la rehabilitación cuando se combinan con otras técnicas de fisioterapia.

3. Objetivo

El objetivo de esta revisión sistemática es valorar evidencia fehaciente de la efectividad del uso de la electroestimulación transcraneal de corriente directa en pacientes que padecen de distonía focal.

4. Material y Métodos

I. Estrategia de Búsqueda

La búsqueda de los artículos se realizó en bases de datos como PubMed y Scopus durante los meses de Enero a Mayo.

Los estudios seleccionados tienen una antigüedad máxima de 13 años, habiéndose publicado como mínimo en 2004.

Se usaron las mismas palabras clave o términos MESH en las bases de datos: 'transcranial direct current stimulation' y como se pretende evaluar la eficacia de dicha técnica en la distonía focal, se combinaron esos términos con 'focal dystonia'. **Ver Tabla 1**

II. Criterios de Inclusión

Se seleccionaron ensayos clínicos que estudiaban el uso de la estimulación transcraneal de corriente directa (a veces, combinada con otras terapias y/o comparándola con otras técnicas) sobre cualquier tipo de distonía focal y que reunieran estos requisitos:

- 1) Los estudios seleccionados están en inglés o español.
- 2) Todos los pacientes evaluados en los estudios son humanos diagnosticados con algún tipo de distonía focal.
- 3) Los artículos seleccionados fueron publicados al menos en 2004.
- 4) Una calidad metodológica de al menos 4 en la escala PEDro.

III. Criterios de Exclusión

Fueron excluidos de esta revisión:

- 1) Aquellos estudios cuya calidad metodológica no alcanzó un 4 en la escala PEDro.
- 2) Estudios experimentales con sujetos no humanos.
- 3) Artículos en cualquier idioma que no fuera inglés o español.
- 4) Artículos de antigüedad superior a 13 años.

IV. Evaluación de Calidad Metodológica

Los artículos que encontramos y seleccionamos para la realización de esta revisión fueron evaluados mediante la escala PEDro para determinar su calidad metodológica, esta escala es una escala específica para artículos científicos relacionados con la fisioterapia.²⁴

Consta de 11 ítems o criterios (que se evalúan como ausente o presente) de los cuales se evalúan 10. Cada criterio otorga un punto al estudio (la puntuación va de 0 a 10) para clasificarlo en la Physiotherapy Evidence Database o PEDro.

Los estudios con una puntuación igual o mayor a 5 en esta escala son calificados como de alta calidad metodológica y bajo riesgo de sesgo.²⁵

Las puntuaciones obtenidas por los estudios incluidos en esta revisión aparecen en la **Tabla 2**.

5. Síntesis de los Resultados

I. Selección de Estudios

Tras realizar la búsqueda en las bases de datos en las bases de datos PubMed y Scopus se hallaron un total de 101 estudios. También se realizaron búsquedas bibliográficas en PEDro y Cochrane sin éxito (por este motivo las hemos excluido de nuestro diagrama de flujo en la **Figura 1**). Tras aplicar los criterios descritos anteriormente y tener en cuenta la réplica de estudios en las distintas bases de datos, el número de estudios escogidos es de 8.

En PubMed encontramos un total de 44 artículos, de los cuales 20 corresponden a los términos MESH “focal dystonia” y “transcranial direct current stimulation”, 5 a las palabras “focal task-specific dystonia” y “transcranial direct current stimulation”, 14 a los términos “writer cramp” y “transcranial direct current stimulation” y 5 a las palabras clave “musician dystonia” y “transcranial direct current stimulation”. Tras escoger los ensayos clínicos (ECs) no repetidos y publicados después de 2004 en inglés o español quedaron 6.

La búsquedas búsquedas que realizamos en Scopus dieron como resultado 57 artículos, de los cuales 24 corresponden a los términos clave “focal dystonia” y “transcranial direct current stimulation”, 9 a las palabras “focal task-specific dystonia” y “transcranial direct current stimulation”, 8 a los términos MESH “writer cramp” y “transcranial direct current stimulation”, 10 a la búsqueda “musician dystonia” y “transcranial direct current stimulation” y 6 a las palabras “blepharospasm” y “transcranial direct current stimulation”. Cuando se aplicaron los mismos criterios de exclusión quedaron 9.

Así, quedaron 14 artículos entre ambas bases. Pero al excluir los repetidos en las dos, el número se redujo a 9.

Cuando evaluamos los artículos con la escala PEDro, uno de ellos no obtuvo una puntuación superior a 4 y por ello fue excluido de la revisión.

Así, el número de artículos adecuados para la revisión se redujo a 8.

II. Resultados

Los sujetos que participaron en los 8 estudios seleccionados están diagnosticados con algún tipo de distonía focal. Son hombres y mujeres con rangos distintos de edad. Se los evaluó como mínimo al principio y al final del estudio.

Las variables estudiadas varían según el estudio y el objetivo del mismo y, por tanto, varían los instrumentos utilizados para las mediciones pertinentes. Se repiten en algunos variables como la gravedad de los síntomas de la distonía en cada paciente que se mide mediante escalas como la ADDS?? o el potencial motor evocado que se suele medir mediante el uso de un electromiógrafo. El tiempo ha sido una variable con mucha presencia en los artículos seleccionados (frecuencia de carrera, tiempo de tecleo o los minutos de exposición a la técnica). Se han valorado también la fuerza, el umbral motor activo y el de reposo (medidos con EMG) y la velocidad al realizar una determinada acción (escritura, tecleo).

En la **Tabla 3** se detalla un resumen de todos los artículos escogidos para la revisión.

A continuación analizaremos los resultados de los artículos dependiendo de si se usaba el tDCS combinado con otras terapias o como único tratamiento.

A. Uso de tDCS como única terapia:

En 4 de los 8 artículos de esta revisión se usa solo la tDCS tratamiento para la distonía focal.

Beguinner et al. realizaron un ensayo clínico aleatorizado (ECA) con 12 pacientes (edad media 57 años) diagnosticados de distonía focal de la mano. Todos habían recibido toxina botulínica y ninguno tomaba medicación. Recibieron 3 sesiones de tratamiento y fueron evaluados durante 2 semanas.

Los paciente fueron asignados de forma aleatoria a un grupo de control (n=6) que recibió tDCS falso y a un grupo experimental (n=6) que recibió una terapia real con tDCS.

Al grupo experimental se suministró tDCS catódico durante 20 minutos con una densidad de corriente de 0'22 mA/cm² en tres zonas diferentes del cráneo.

Al grupo de control se aplicó corriente continua de 1 mA durante 1- 2 minutos con el ánodo y el cátodo sobre la frente, cortocircuitados a través de la piel,

que generaban el mismo "hormigueo" que al grupo experimental pero sin efectos en el cerebro.

La aplicación de tDCS catódico no tuvo efectos sobre la discapacidad (ADDS) o la gravedad de la distonía. De hecho, el grupo de control reportó más mejoría que el experimental en la escala verbal aunque en la escala visual (VAS; Visual Analog Scale). El grupo experimental tampoco tuvo efectos sobre la cinemática de la mano pero se denotó una disminución de la velocidad en el grupo de control, lo que permitió una escritura más suave.

Dos de los sujetos del grupo de control abandonaron el estudio debido al empeoramiento de su clínica.

Furuya et al. publicaron un artículo en el que incluyeron a 20 pacientes, 10 personas sanas (edad media, 30'7 años y 10 diagnosticados con distonía focal del músico no bilateral (edad media 39'6 años) que no habían sido tratados con toxina botulínica.

Todos los pacientes se sometieron a 5 sesiones de tratamiento separadas por 2 semanas entre si donde se los evaluaba antes y después del test, que consistía en un entrenamiento específico que dividido en 8 subsesiones en las que se realizaba un juego bimanual de pulsación secuencial de una serie de teclas. Durante este entrenamiento se aplicaban distintos tipos de tDCS: CaAu (cathodal tDCS), CuAu (cathodal tDCS over the unaffected cortex and anodal tDCS over the affected cortex), falso tDCS y UniAu (anodal tDCS over the unaffected cortex and cathodal tDCS). También se aplicó NoRT (cathodal tDCS with no-retraining).

Se realizó una ANOVA (Analysis Of Variance) para confirmar que el rendimiento inicial antes del entrenamiento no difirió entre los protocolos. Se concretó que ni el efecto principal del entrenamiento no fue significativo para la variabilidad rítmica de las pulsaciones de tecla durante la prueba previa.

Para el grupo experimental (pacientes), la variabilidad rítmica para el protocolo CaAu fue menor que para los otros protocolos. Aunque los hallazgos indican que este tipo de estimulación provocó una mejora en la precisión rítmica de las pulsaciones de teclas con la mano afecta.

También se hallaron mayores efectos de la estimulación CaAu en la precisión rítmica de las pulsaciones de teclado para los pacientes con síntomas más graves de FD. Ninguno de los otros pares de protocolos produjo una diferencia significativa.

Para el grupo de control (sanos) no mejoró la precisión del movimiento con ninguno de los protocolos descritos.

Buttkus et al. presentan un EC en el que exponen 10 pacientes con distonía del músico diagnosticada (edad media 48'8 años) que no se medicaban, algunos de los cuales habían sido tratados con toxina botulínica con anterioridad.

Los pacientes fueron evaluados en cada sesión antes del tDCS, 1min. después de su aplicación y 60 min. tras su aplicación.

Se estimuló a todos los pacientes con tDCS catódico con una intensidad de 2 mA durante 20 minutos. También se les trató con tDCS falso con una intensidad de 0'2 mA durante 20 segundos. El electrodo estimulante se colocó sobre la corteza motora primaria izquierda y el electrodo de referencia se colocó sobre el área supraorbital derecha. Ambas sesiones fueron separadas por al menos 1 semana.

Además, los pacientes realizaron pruebas de guitarra antes y después de la aplicación de la tDCS y el placebo.

Ningún paciente se benefició de una estimulación real en contraste con la estimulación con placebo; Por el contrario, en algunos pacientes hubo deterioro en el control motor después de un tratamiento con tDCS.

Solo uno de los pacientes experimentó mejoría tanto en el control motor como en sintomatología.

Sadnicka et al. presentaron un estudio cuya muestra era de 10 pacientes con distonía del escribiente.

Recibieron una sola sesión y se los evaluó al principio y al final de la misma mediante EMG y TMS.

Los 10 pacientes fueron sometidos a tDCS de tipo anódico y a tDCS falso o placebo. Se evaluó el umbral motor en reposo, el umbral motor activo y el CSP (cortical silent period) para el abductor corto del pulgar de cada paciente.

En ambos escenarios de estimulación, se produjo una moderada mejora subjetiva en la escritura, lo que es probable que sea un efecto placebo. No se encontró ningún cambio significativo en la puntuación de Escala de Crampers del escritor o en las evaluaciones de escritura cronometrada en ninguna de las dos condiciones.

B. tDCS combinado con otras técnicas

Bradnam et al. publicaron un estudio en el que incluyeron a 16 personas: un grupo experimental de 8 pacientes que padecían distonía de la mano o del

músico (edad media 58'5 años) y un grupo de control con 8 personas sanas (edad media 63'5 años).

Se sometieron a tres sesiones experimentales separadas entre si por 5 días y se evaluaba su capacidad de escritura al principio y al final de cada sesión. Se realizaron las tareas de escritura en una tabla sensible a la presión donde debían dibujar también círculos superpuestos.

Se suministró TMS de un solo pulso (con 5 ms entre cada pulso) en la zona del cerebelo a una intensidad necesaria para llegar hasta el potencial motor evocado.

Se trató a los pacientes con tDCS de una intensidad de 2 mA durante 20 minutos a través de dos electrodos situados uno en el cerebelo lateral y el otro sobre el músculo buccinador derecho. Se usó también tDCS falso o placebo. Las medidas cinemáticas que diferenciaron los grupos fueron: La frecuencia media del movimiento durante la escritura a mano, el dibujo cíclico rápido y la presión media del bolígrafo durante el dibujo cíclico ligero.

Las medidas de la excitabilidad cortical tomadas por el TMS no fueron diferentes entre las personas con FHD y los controles.

El tDCS cerebeloso anódico redujo la frecuencia media del movimiento de escritura manual y la presión media de la pluma, y aumentó la velocidad y redujo la presión de la pluma durante el dibujo cíclico rápido.

Rosset Llobet et al. publicaron un ECA en el cual participaron 30 músicos diagnosticados con distonía focal de músico en la mano derecha (edad media 35'4 años).

El tratamiento duró 2 semanas y se evaluó a los pacientes al principio y al final de este.

Todos los pacientes fueron sometidos durante las dos semanas a SMR (Sensory Motor Retuning): se les colocaron uno o más dedos en una posición ligeramente diferente a la que se usaba para tocar el instrumento utilizando un férula adaptada a cada paciente con la que se podía bloquear cualquiera de los 5 dedos. De esta forma, se podía diferenciar qué dedos eran distónicos y qué dedos intentaban compensar la distonía. Así, se realizaban 7 tipos de ejercicios con los dedos compensatorios para que se cambiase la propiocepción de la mano del paciente.

La estimulación se realizó a través de dos electrodos de esponja (35 cm²) colocados en el cuero cabelludo sobre la corteza parietal y el cátodo se colocó en el lado contralateral. Se realizaron dos tipos de estimulación: activa catódica (2 mA; 20min) y falsa o placebo (30 sec).

Ambos grupos mejoraron significativamente su puntaje de gravedad de la distonía durante las 2 semanas. Las diferencias de puntuación fueron 88,23 (\pm 40,51) y 63,36 (\pm 30,57) para los grupos activos y simulados, respectivamente.

Kranz et al. realizaron un estudio con una muestra de 7 pacientes (edad media 62'2 años) diagnosticados con BEB (Blefaroespasma Esencial Benigno) que no se hubieran medicado en un plazo de 4 semanas.

Cada paciente acudió a 10 sesiones separadas entre sí por dos días y se los evaluó al principio y al final del estudio. Los puntos a tener en cuenta fueron el análisis médico, la evaluación del paciente y el reflejo de parpadeo.

Este estudio es pionero en el uso de las tres técnicas no invasivas, TMS, tDCS y TBS, en el blefaroespasma.

Se estimularon 4 áreas concretas: SMA (supplementary motor cortex), MC (motor cortex), PMC (premotor cortex) y AC (anterior cingulate).

La TMS se usó a una frecuencia de 0,2 Hz en un total de 180 estímulos (15 minutos por sesión). La intensidad de estimulación se estableció en una salida de estimulador de 90% del umbral motor en reposo (rMT) de la IED sobre MC para MC y PMC, y 90% para AC.

La TBS (3 pulsos TMS a 50 Hz, repetidos cada 200 ms) se aplicó en un paradigma continuo durante 40 segundos (600 pulsos ininterrumpidos). Y la tDCS se suministró de forma bipolar (1 mA durante 20 minutos) con los electrodos colocados sobre el MC / PMC izquierdo o SMA / AC (cátodo) y Oz (ánodo).

TMS dio lugar a una mejora significativa en todas las áreas del cerebro en la evaluación del médico, la de los pacientes, y el BRR (Blink Reflex Recovery), mientras que TBS y tDCS sólo mostraron tendencias para la mejora en la evaluación del médico.

Quartarone et al. usaron en su EC una muestra de 16 personas (edad media 46 años), 8 diagnosticadas con distonía del escribiente y sin ningún otro problema neurológico y 8 sanas. Todos los sujetos eran diestros.

Los pacientes fueron evaluados antes de la aplicación de la tDCS, después de la aplicación de estos y dos veces tras la aplicación de la TMS.

Todos los pacientes se sometieron a sesiones de TDCS anódicos, catódicos y falsos tras las cuales se les aplicaba una terapia con TMS.

Se encontró una débil tendencia de la TDCS a reducir la respuesta al protocolo de la plasticidad asociativa en sujetos sanos.

En los pacientes con calambres del escritor, tras el preconditionamiento con TDCS, el rTMS de 1 Hz no indujo cambios consistentes en la excitabilidad corticospinal.

6. Discusión

Este estudio pretende determinar si el uso de tDCS en distonías primarias de tipo focal es beneficioso, perjudicial o simplemente no es efectivo.

Se ha evaluado el uso de esta técnica como único tratamiento experimental o en combinación con otras técnicas no invasivas y/o ejercicios de tipo propioceptivo.

Tras realizar el análisis de los 8 artículos que se incluyeron en esta revisión, observamos que existe una discrepancia evidente acerca de la verdadera efectividad de la electroestimulación transcraneal en las distonías.

En 7 de los 8 estudios aparece la tDCS placebo comparada con una electroestimulación real. De esos 6 artículos:

- En 3 de ellos se aplica únicamente tDCS a un grupo experimental y placebo a un grupo control. De estos tres, uno afirma que el grupo placebo reportó mayor mejoría que el grupo de control (Benninger et al.), en otro coinciden en que no hay resultados ni en grupo control ni en grupo experimental e incluso de afirma que algunos pacientes empeoraron (Buttkus et al.) pero en otro se dice que tanto el placebo como la estimulación real tienen buenos resultados en pacientes con distonías (Sadnicka et al.)
- En 3 de ellos se combina algún otro tipo de tratamiento con tDCS, placebo o real. En uno de ellos se combinó con SMR y reportaron que tanto el grupo experimental como el de control experimentaron mejoría en los síntomas propios de la distonía (Rosset-Llobet et al.) y en el otro se combinó con pulsos de TMS y en él se afirma que el tDCS catódico mejora los movimientos y la velocidad de la escritura en pacientes con distonía del escribiente.

El tercero investiga la plasticidad de la mano al combinar tDCS con TMS reportando que en los pacientes con calambres del escritor, tras el preconditionamiento con TDCS, el TMS de 1 Hz no indujo cambios consistentes en la excitabilidad corticospinal (Quartarone et al.)

- Un artículo en el que se incluye el placebo compara entre sí distintos tipos de electroestimulación de corriente directa y concluye que la de tipo catódico si

es realmente efectiva a la hora de mejorar la sintomatología de la distonía. El grupo de control no experimentó ningún cambio tras la estimulación (Furuya et al.)

El artículo sobrante compara la aplicación de tres tipos de terapias no invasivas: TMS, TBS y TDCS y concluye que la TMS da mejores resultados que las otras técnicas. Así, observamos que hay tres artículos que avalan la eficacia de la técnica, tres que la rechazan a favor de otras terapias o del placebo y uno que iguala su eficacia al placebo.

Hemos de tener en cuenta que la mayoría de los artículos seleccionados muestran las siguientes limitaciones:

- Muestras demasiado pequeñas para extrapolarlas a la población.
- Falta de aleatorización a la hora de establecer los grupos de estudio.
- Falta de sesiones en algunos artículos.

7. Limitaciones de Estudio

La mayor limitación de nuestro estudio es que las muestras de los artículos incluidos en la revisión no cuentan con una muestra amplia de pacientes.

8. Conclusión

Aunque se evidencia en el diagrama de flujo que la evidencia al respecto es eminentemente escueta podemos afirmar que el trabajo reúne los pocos estudios que tratan el tema de nuestra revisión.

Algunos estudios en los que únicamente se usó tDCS son contundentes al afirmar que el uso de esta terapia no provoca un efecto terapéutico distinto del placebo (Buttkus et al.) pero otros no solo dan por hecho su eficacia, sino que comparan los distintos tipos de tDCS concluyendo que el catódico es el más beneficioso (Furuya et al.)

Al combinar este tipo de tratamiento con otras terapias algunos autores hacen evidente que hay una mejoría de los pacientes si se combina la tDCS con TMN o con SMR (Rosset-Llobet et al.), aunque otros afirman que no existe efecto alguno (Quartarone et al.)

Así pues, concluiremos afirmando que no hay una respuesta concreta a si la terapia es efectiva realmente o no en distonías focales y es necesaria la realización de estudios aleatorizados con muestras suficientes para aclararlo.

9. Tablas y Esquemas

Tabla 1: Resultados de la Búsqueda Bibliográfica

Base de Datos	Términos Usados	Resultados
PubMed	“focal dystonia” AND “transcranial direct current stimulation”	20
	“focal task-specific dystonia” AND “transcranial direct current stimulation”	5
	“writer cramp” AND “transcranial direct current stimulation”	14
	“musician dystonia” AND “transcranial direct current stimulation”	5
Scopus	“focal dystonia” AND “transcranial direct current stimulation”	24
	“focal task-specific dystonia” AND “transcranial direct current stimulation”	9
	“writer cramp” AND “transcranial direct current stimulation”	8
	“musicians dystonia” AND “transcranial direct current stimulation”	10
	“blepharospasm” AND “transcranial direct current stimulation”	6
Resultados	TOTAL	101

Figura 1: Diagrama de Flujo

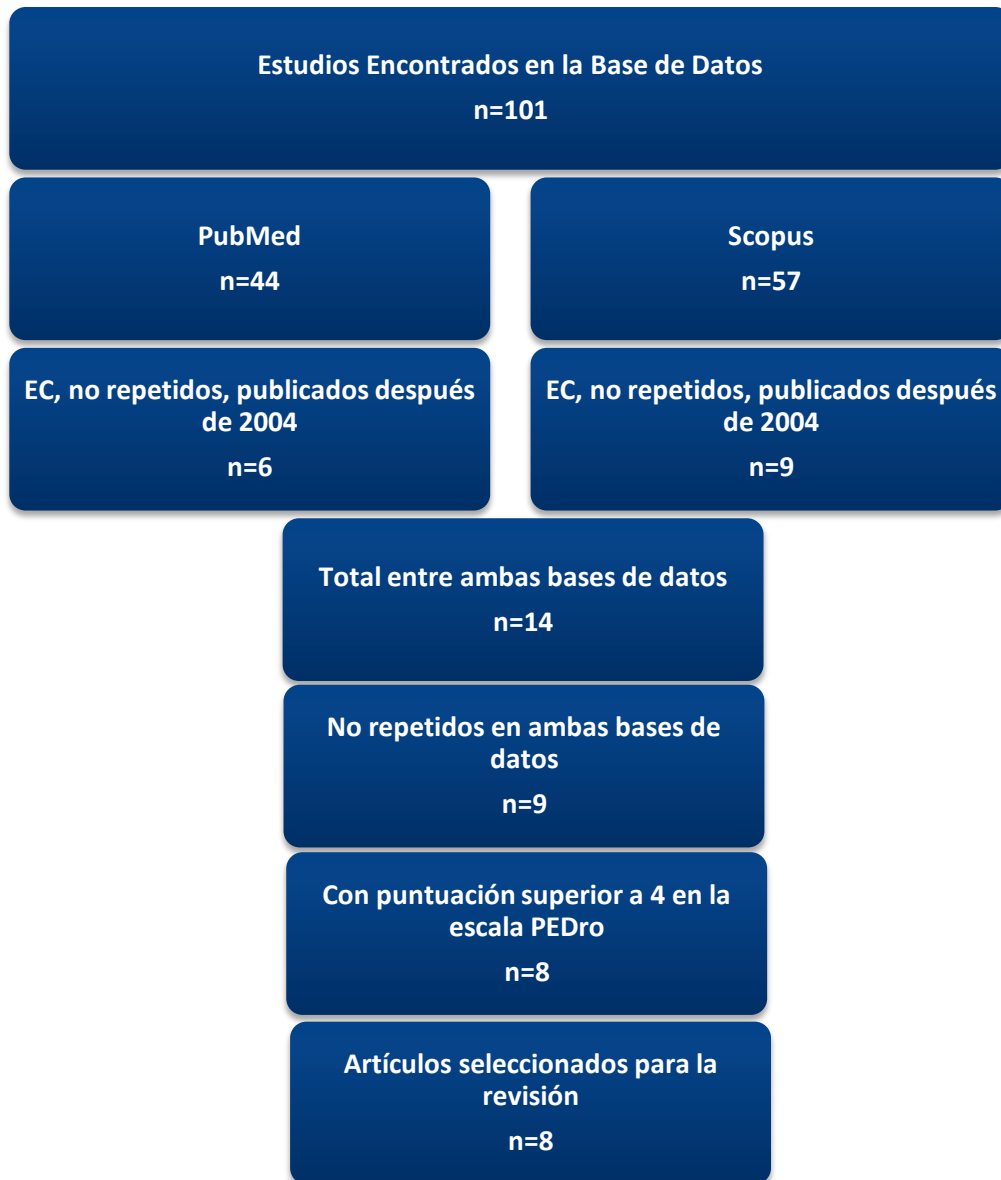


Tabla 2: Clasificación en la Escala PEDro

	Asignación Aleatoria	Ocultación de la Asignación	Grupos Homogéneos al Inicio	Cegamiento de Participantes	Cegamiento de Terapeutas	Cegamiento de Evaluadores	Seguimiento Adecuado	Análisis de Intención a Tratar	Comparación entre Grupos	Variabilidad y Puntos Estimados	Puntuación Total
Bradnam et al. (2015)	NO	NO	NO	SÍ	SÍ	SÍ	SÍ	SÍ	SÍ	SÍ	7
Benninger et al. (2011)	SÍ	SÍ	SÍ	SÍ	NO	SÍ	SÍ	SÍ	SÍ	NO	8
Furuya et al.	NO	SÍ	SÍ	SÍ	NO	SÍ	SÍ	SÍ	SÍ	SÍ	8
Rosset Llobet et al.	SÍ	SÍ	SÍ	SÍ	SÍ	NO	SÍ	SÍ	SÍ	SÍ	9
Kranz et al.	SÍ	SÍ	SÍ	NO	NO	SÍ	SÍ	SÍ	NO	SÍ	7
Buttkus et al.	NO	NO	NO	SÍ	SÍ	SÍ	SÍ	NO	SÍ	SÍ	6
Quartarone et al.	NO	NO	SÍ	NO	NO	NO	SÍ	SÍ	SÍ	SÍ	5
Sadnicka et al. (2014)	NO	NO	SÍ	SÍ	SÍ	SÍ	SÍ	SÍ	NO	NO	6

Artículo	Participantes	Diseño	Intervención	Variables	Instrumentos	Resultados
Bradnam et al. (2015)	<p>N=16</p> <p>Entre 37 y 80 años</p> <p>Debían padecer algún tipo de distonía focal de la mano o del músico valorada por la ADDS.</p>	<p>EC</p> <p>Dos Grupos</p> <p>Grupo 1: 8</p> <p>Grupo 2: 8</p> <p>Se los evaluó al principio y al final de cada una de las 3 sesiones.</p>	<p>Las sesiones fueron iguales en ambos grupos pero al grupo de control no se le administró TDCS. Se registraba la escritura y el dibujo de los pacientes y acto seguido se les introducían TMS.</p>	<p>Presión Media de la Pluma</p> <p>Frec. De Carrera</p> <p>Potencial Motor Evocado</p> <p>Severidad de la Distonía</p>	<p>EMG</p> <p>TMS</p> <p>VAS</p> <p>MovAlyzeR4.1</p> <p>NeuroscriptUSA</p>	<p>La frecuencia de carrera media y la presión media de la pluma se redujo.</p> <p>La inhibición del cerebelo no se da en la distonía de la mano.</p>
Begunner et al. (2011)	<p>N=12</p> <p>Se incluyeron pacientes con distonía del escribiente</p>	<p>ECA</p> <p>Dos Grupos</p> <p>Grupo 1: 6</p> <p>Grupo 2: 6</p> <p>Tres evaluaciones: Al principio y dos veces al acabar el tto</p>	<p>A uno de los grupos se le administró terapia con TDCS y a otro grupo una terapia simulada.</p>	<p>Velocidad de Escritura</p> <p>Nº de accidentes cerebrovasculares</p>	<p>PhoresorII-ModelPM850</p> <p>WC Rating Scale</p> <p>ADDS</p>	<p>La terapia con TDCS no tuvo efectos favorables sobre las escalas clínicas y no restableció la cinemática de escritura manual normal</p>

<p>Furuya et al. (2013)</p>	<p>N=20 Se incluyeron 10 pacientes con distonía focal del músico y 10 pacientes sanos.</p>	<p>EC Dos Grupos Grupo 1: 10 Grupo 2: 10 Dos evaluaciones: al principio y al final de cada sesión</p>	<p>Los pacientes asistieron a 5 sesiones en las que se los sometió a distintos tipos de TDCS mientras realizaban diferentes ejercicios de motricidad fina.</p>	<p>Intervalo de tiempo entre pulsación de teclas (ms) Severidad de síntomas (ms)</p>	<p>ANOVA</p>	<p>La estimulación catódica produjo mejoría durante y después de las sesiones. Sin embargo, la estimulación bihemisférica fracasó. El grupo de control no mejoró su precisión.</p>
<p>Rosset Llobet et al. (2015)</p>	<p>N=30 Los pacientes estaban diagnosticados de distonía focal del músico</p>	<p>ECA Dos grupos: Grupo 1: 15 Grupo 2: 15 Se los evaluó al principio y al final del tto.</p>	<p>Todos los pacientes se sometieron a una terapia de retuning sensorial motor junto con la TDCS real o falsa durante los primeros 30 minutos de cada sesión diaria.</p>	<p>Severidad de síntomas</p>	<p>SPSS version 13.0 Wilcoxon nonparametric test</p>	<p>Ambos grupos mejoraron significativamente su puntuación de gravedad de la distonía durante las 2 semanas. Aunque la mejoría del grupo activo fue significativamente mayor.</p>

<p>Kranz et al. (2009)</p>	<p>N=7 Los pacientes fueron diagnosticados con BEB.</p>	<p>ECA Un Grupo Se evaluaron al inicio y al final del estudio.</p>	<p>Todos los pacientes fueron sometidos a 3 técnicas no invasivas de estimulación en diferentes áreas cerebrales.</p>	<p>Recuperación del reflejo de parpadeo Evaluación del Paciente Evaluación del Médico</p>	<p>SPSS 15.0 ANOVA Mauchly Sphericity Test Greenhouse-Geisser Epsilon</p>	<p>Mejora significativa en todas las áreas del cerebro para las variables descritas. Se Concretó que la TMS fue más efectiva que la TDCS y la TBS.</p>
<p>Buttkus et al. (2010)</p>	<p>N=10 Todos los pacientes padecían distonía focal del músico.</p>	<p>EC Un Grupo Se evaluaban en cada sesión antes del TDCS, 1min. después de su aplicación y 60 min. tras su aplicación</p>	<p>Los pacientes se sometieron a sesiones de TDCS y TDCS falso y realizaron ejercicios de guitarra antes y después de la aplicación de la terapia.</p>	<p>Exposición a la técnica Condición</p>	<p>SPSS 16 Diversos ejercicios y escalas específicas para guitarristas.</p>	<p>La aplicación de TDCS no dio resultados favorables para la distonía focal de la mano. Sin embargo, un paciente con distonía focal del brazo presentó cierta mejoría al finalizar el estudio.</p>

<p>Quartarone et al. (2005)</p>	<p>N=16 Se escogieron pacientes diagnosticados con distonía del escribiente (8) y pacientes sanos (8).</p>	<p>EC Dos Grupos Grupo 1: 8 Grupo 2: 8 Se valoró a los: antes del tto., después de la TDCS y dos veces tras la TMS.</p>	<p>Todos los pacientes se sometieron a sesiones de TDCS anódicos, catódicos y falsos tras las cuales se les aplicaba una terapia con TMS.</p>	<p>Exposición a la técnica</p>	<p>EMG NuCursor Software ANOVA The Greenhouse–Geisser method</p>	<p>Tras el tto. Con TDCS, la TMS no indujo cambios consistentes en la excitabilidad cortico espinal.</p>
<p>Sadnicka et al. (2014)</p>	<p>N=10 Debían padecer distonía del escribiente</p>	<p>EC Un Grupo Se los evaluó antes y después de la sesión.</p>	<p>Se aplicó a todos los pacientes una terapia con TDCS de tipo anódico y una TDCS falsa.</p>	<p>Umbral motor en reposo Umbral motor activo Potencial motor evocado</p>	<p>EMG TMS PAS25</p>	<p>Se encontró una débil tendencia de la TDCS a reducir la respuesta al protocolo de la plasticidad asociativa en sujetos sanos.</p>

- Siglas y Abreviaturas:

EMG: Electromiografía; **ADDS:** Arm Dystonia Disability Scale; **ANOVA:** Analysis Of Variance; **VAS:** Visual Analog Scale; **TDCS:** Transcranial Direct Current Stimulation; **TMS:** Transcranial Magnetic Stimulation; **BEB:** Blefaroespasma Esencial Benigno **SPSS:** Statistical Package for the Social Sciences; **TBS:** Theta Burst Stimulation

10. Bibliografía:

1. Rodríguez-Constela I, Rodríguez-Regal A, Cebrián-Pérez E. Distonías: epidemiología, etiología, diagnóstico y tratamiento. REV NEUROL. 2009;48:S61-9.
2. Stahl C, Frucht S. Focal task specific dystonia: a review and update. Journal of Neurology. 2016;.
3. Chaná-Cuevas P, Kunstmann-Rioseco C, Rodríguez-Riquelme T. Distonía del guitarrista: tratamiento con reeducación sensorial. REV NEUROL. 2003;37:637-40.
4. Chaná Pedro, Canales Glenda. Distonías ocupacionales. Rev. chil. neuro-psiquiatr. [Internet]. 2003 Ene [citado 2017 Abr 30] ; 41(1): 19-24.
5. Levy L, Hallett M. Impaired brain GABA in focal dystonia. Annals of Neurology. 2002;51(1):93.
6. Fredow G, Loscher W. Effects of pharmacological manipulation of GABAergic neurotransmission in a new mutant hamster model of paroxysmal dystonia. Eur J Pharmacol 1991;192:207–219
7. Siebner HR, Dressnandt J, Auer C, Conrad B. Continuous in-trathecal baclofen infusions induced a marked increase of the transcranially evoked silent period in a patient with generalized dystonia. Muscle Nerve 1998;21:1209 –1212
8. Matsumura M, Sawaguchi T, Oishi T, et al. Behavioral deficits induced by local injection of bicuculline and muscimol into the primate motor and premotor cortex. J Neurophysiol 1991;65:1542–1553.
9. Zhuang P, Li Y, Hallett M. Neuronal activity in the basal ganglia and thalamus in patients with dystonia. Clinical Neurophysiology. 2004;115(11):2542-2557.
10. Albanese A, Bhatia K, Bressman S, DeLong M, Fahn S, Fung V et al. Phenomenology and classification of dystonia: A consensus update. Movement Disorders. 2013;28(7):863-873.
11. Altenmüller E, Jabusch HC. Focal hand dystonia in musicians: phenomenology, etiology, and psychological trigger factors. J Hand Ther 2009;22:144–54; quiz 55.
12. Sadnicka A, Kassavetis P, Pareés I, Meppelink A, Butler K, Edwards M. Task-specific dystonia: pathophysiology and management. Journal of Neurology, Neurosurgery & Psychiatry. 2016;87(9):968-974.

13. Defazio G, Abbruzzese G, Livrea P, Berardelli A. Epidemiology of primary dystonia. *The Lancet Neurology*. 2004;3(11):673-678.
14. Wang L, Duan C, Gao Y, Xu W, Ding J, Liu V et al. Lack of association between TOR1A and THAP1 mutations and sporadic adult-onset primary focal dystonia in a Chinese population. *Clinical Neurology and Neurosurgery*. 2016;142:26-30.
15. Simpson LL (2004) Identification of the major steps in botulinum toxin action. *Annu Rev Pharmacol Toxicol* 44:167–193
16. Balash Y, Giladi N. Efficacy of pharmacological treatment of dystonia: evidence-based review including meta-analysis of the effect of botulinum toxin and other cure options. *European Journal of Neurology*. 2004;11(6):361-370.
17. Taira T, Hori T (2003) Stereotactic ventrooralis thalamotomy for task-specific focal hand dystonia (writer's cramp). *Stereotact Funct Neurosurg* 80(1–4):88–91
18. De Pauw J, Van der Velden K, Meirte J, Van Daele U, Truijen S, Cras P et al. The effectiveness of physiotherapy for cervical dystonia: a systematic literature review. *Journal of Neurology*. 2014;261(10):1857-1865.
19. Lefebvre S, Liew S. Anatomical Parameters of tDCS to Modulate the Motor System after Stroke: A Review. *Frontiers in Neurology*. 2017;8.
20. Brunoni A, Nitsche M, Bolognini N, Bikson M, Wagner T, Merabet L et al. Clinical research with transcranial direct current stimulation (tDCS): Challenges and future directions. *Brain Stimulation*. 2012;5(3):175-195.
21. Nitsche MA, Seeber A, Frommann K, et al. Modulating parameters of excitability during and after transcranial direct current stimulation of the human motor cortex. *J Physiol* 2005;568(Pt 1):291-303.
24. Accornero N, Li Voti P, La Riccia M, Gregori B. Visual evoked potentials modulation during direct current cortical polarization. *Exp Brain Res* 2007;178(2):261-266
23. Winkler T, Hering P, Straube A. Spinal DC stimulation in humans modulates post-activation depression of the H-reflex depending on current polarity. *Clin Neurophysiol* 2010;121(6):957-961.
24. Shiwa S, Costa L, Moser A, Aguiar I, Oliveira L. PEDro: a base de dados de evidências em fisioterapia. *Fisioterapia em Movimento*. 2011;24(3):523-533.
25. Moseley, A., Herbert, R., Sherrington, C., Maher, C. Evidence for physiotherapy practice: A survey of the Physiotherapy Evidence Database (PEDro). *Australian Journal of Physiotherapy* 2002, 43-49

