

Spastična disfonija

Barišić, Lucija

Master's thesis / Diplomski rad

2024

Degree Grantor / Ustanova koja je dodijelila akademski / stručni stupanj: **University of Zagreb, Faculty of Education and Rehabilitation Sciences / Sveučilište u Zagrebu, Edukacijsko-rehabilitacijski fakultet**

Permanent link / Trajna poveznica: <https://um.nsk.hr/um:nbn:hr:158:177545>

Rights / Prava: [In copyright](#) / [Zaštićeno autorskim pravom.](#)

Download date / Datum preuzimanja: **2025-01-09**



Repository / Repozitorij:

[Faculty of Education and Rehabilitation Sciences - Digital Repository](#)



Sveučilište u Zagrebu
Edukacijsko-rehabilitacijski fakultet

Diplomski rad
Spastična disfonija

Lucija Barišić

Zagreb, rujan 2024.

Sveučilište u Zagrebu
Edukacijsko-rehabilitacijski fakultet

Diplomski rad
Spastična disfonija

Lucija Barišić

izv. prof. dr. sc. Ana Bonetti

Zagreb, rujan 2024.

Zahvale

Zahvaljujem mentorici izv. prof. dr. sc. Ani Bonetti na savjetovanju i usmjeravanju pri izradi ovog diplomskog rada.

Posebno hvala mojoj obitelji i svima ostalima koji su mi bili podrška tijekom studiranja i pisanja ovog diplomskog rada.

Izjava o autorstvu rada

Potvrđujem da sam osobno napisala rad **Spastična disfonija** i da sam njegova autorica. Svi dijelovi rada, nalazi ili ideje koje su u radu citirane ili se temelje na drugim izvorima jasno su označeni kao takvi te su adekvatno navedeni u popisu literature.

Ime i prezime: Lucija Barišić

Mjesto i datum: Zagreb, rujan 2024.

SPASTIČNA DISFONIJA

Lucija Barišić

izv. prof. dr. sc. Ana Bonetti

Sveučilište u Zagrebu, Edukacijsko-rehabilitacijski fakultet

SAŽETAK

Poremećaji glasa često nepovoljno utječu na kvalitetu života pojedinca u različitim domenama, uključujući socijalne odnose, emocionalno stanje, sposobnost obavljanja različitih fizičkih aktivnosti te ispunjavanja profesionalnih obaveza. Jedan od poremećaja glasa koji znatno utječe na funkcioniranje osobe u svakodnevnom privatnom i profesionalnom životu je spastična disfonija.

Cilj ovog diplomskog rada je dati pregled recentnijih istraživanja na temu spastične disfonije, s posebnim naglaskom na definiranje, terminologiju i podjelu spastične disfonije, simptome koji ju obilježavaju, etiologiju i patofiziologiju poremećaja te dijagnostiku i terapiju.

Spastična disfonija je fokalna laringealna distonija koju obilježavaju nevoljne mišićne kontrakcije u području grkljana prilikom govora, a unutar opće klasifikacije poremećaja glasa ubraja se u skupinu neurogenih. Postoje dva osnovna tipa spastične disfonije, a to su aduktorni i abduktorni. Glavno obilježje aduktorne spastične disfonije je hiperadukcija glasnica te pojava napetih zastoja uz znatan **napor** prilikom govora, dok abduktornu spastičnu disfoniju obilježava hiperabdukcija glasnica uz pretjeranu šumnost, afonične prekide i također izražen napor. Iako točna etiologija spastične disfonije još uvijek nije poznata, dosadašnja istraživanja upućuju na multifaktorsku etiologiju ovog poremećaja, što uključuje različite neurološke, genetske i okolinske čimbenike. Dijagnostika spastične disfonije vrlo je izazovan proces, najviše zbog nedostatka znanstvenog konsenzusa o dijagnostičkim kriterijima, ali i zbog sličnosti spastične disfonije s drugim poremećajima glasa što znatno otežava diferencijalnu dijagnostiku. Zato se naglašava važnost međusobne suradnje stručnjaka različitih profila tijekom čitavog procesa. Postoji nekoliko mogućnosti u terapiji spastične disfonije, a to su injekcije botulinum toksina koje se godinama smatraju zlatnim standardom u terapiji spastične disfonije, zatim različite kirurške metode i tradicionalna vokalna terapija. S obzirom na posljedice koje spastična disfonija ostavlja na kvalitetu života pojedinca, ističe se važnost sveobuhvatnog pristupa dijagnostici i tretmanu.

Ključne riječi: poremećaj glasa, distonija, spastična disfonija

SPASMODIC DYSPHONIA

Lucija Barišić

izv. prof. dr. sc. Ana Bonetti

University of Zagreb, Faculty of Education and Rehabilitation Sciences

ABSTRACT

Voice disorders often negatively impact an individual's quality of life in various domains, including social relationships, emotional well-being, the ability to perform different physical activities, and fulfilling professional obligations. One voice disorder that significantly affects a person's functioning in daily private and professional life is spasmodic dysphonia.

The aim of this thesis is to provide an overview of recent research on the topic of spasmodic dysphonia, with a particular focus on defining, terminology, and classification of spasmodic dysphonia, the symptoms that characterize it, the etiology and pathophysiology of the disorder, as well as diagnosis and treatment.

Spasmodic dysphonia is a focal laryngeal dystonia characterized by involuntary muscle contractions in the larynx during speech. Within the general classification of voice disorders, it belongs to the group of neurogenic disorders. There are two main types of spasmodic dysphonia: adductor and abductor. The main feature of adductor spasmodic dysphonia is hyperadduction of the vocal cords, leading to strained voice breaks and significant effort during speech, while abductor spasmodic dysphonia is marked by hyperabduction of the vocal cords, resulting in excessive breathiness, aphonic breaks, and also significant effort. Although the exact etiology of spasmodic dysphonia is still unknown, current research suggests a multifactorial etiology for this disorder, involving various neurological, genetic, and environmental factors. Diagnosing spasmodic dysphonia is a highly challenging process, primarily due to the lack of scientific consensus on diagnostic criteria, as well as the similarity of spasmodic dysphonia to other voice disorders, which significantly complicates differential diagnosis. Therefore, the importance of interdisciplinary collaboration among specialists throughout the entire process is emphasized. There are several treatment options for spasmodic dysphonia, including botulinum toxin injections, which have been considered the gold standard in the treatment of spasmodic dysphonia for years, various surgical methods, and traditional voice therapy. Given the impact that spasmodic dysphonia has on an individual's quality of life, the importance of a comprehensive approach to diagnosis and treatment is highlighted.

Keywords: voice disorder, dystonia, spasmodic dysphonia

SADRŽAJ

1	UVOD	1
2	PROBLEMSKA PITANJA.....	2
3	DEFINIRANJE I KLASIFIKACIJA SPASTIČNE DISFONIJE	3
4	EPIDEMIOLOŠKI PODACI	6
5	SIMPTOMATOLOGIJA SPASTIČNE DISFONIJE	8
5.1	Aduktorna spastična disfonija	9
5.2	Abduktorna spastična disfonija	10
6	ETIOLOGIJA I PATOFIZIOLOGIJA SPASTIČNE DISFONIJE.....	11
6.1	Faktori rizika	13
6.2	Mutacije gena i spastična disfonija	14
6.3	Neurološki mehanizmi u pozadini spastične disfonije.....	15
7	DIJAGNOSTIKA SPASTIČNE DISFONIJE.....	19
7.1	Trorazinski model procjene spastične disfonije	20
7.2	Model interdisciplinarne procjene spastične disfonije	22
7.3	Razlikovanje spastične disfonije i mišićne tenzijske disfonije	25
7.4	Razlikovanje spastične disfonije i vokalnog tremora.....	26
8	TERAPIJA SPASTIČNE DISFONIJE	28
8.1	Injekcije botulinum toksina	28
8.2	Kirurške metode	31
8.3	Vokalna terapija	34
9	UTJECAJ SPASTIČNE DISFONIJE NA SVAKODNEVNI ŽIVOT	38
10	ZAKLJUČAK	40
	LITERATURA.....	41

1 UVOD

Glas ponekad igra ključnu ulogu u govorenom jeziku – često nosi puno veće značenje nego riječi koje se izgovaraju pa u mnogim situacijama poruku ne prenosi ono što izgovorimo, već kako to izgovorimo (Boone, McFarlane, Von Berg i Zraick, 2014). Od ranog djetinjstva pa kroz cijeli životni vijek, glas neke osobe odražava i njezino unutarnje emocionalno stanje (Boone i sur., 2014), a često otkriva i druge osobne karakteristike poput društvenog statusa ili crta osobnosti (Zhang, 2016). Boone i sur. (2014) navode kako normalan glas mora ispunjavati pet važnih kriterija. Prvo, treba biti dovoljno glasan da ga se dobro čuje u različitim svakodnevnim situacijama kad je čovjek izložen okolinskoj buci iz različitih izvora. Drugo, treba se proizvoditi na siguran način, dakle bez posljedične vokalne traume ili lezija na glasnicama. Treće, treba biti dobre kvalitete kako ne bi odvlačio pažnju sugovornika od onoga o čemu se govori. Četvrto, treba biti dovoljno fleksibilan kako bi mogao izraziti širok spektar emocija. Peto, treba vjerno predstavljati govornika, odnosno biti usklađen s njegovim spolom i dobi. Uzimajući u obzir sve karakteristike koje bi jedan glas trebao imati te njegovu ulogu u emocionalnom i jezičnom izražavanju, nije neobično što bilo kakav poremećaj glasa može znatno utjecati na svakodnevno funkcioniranje. Poremećaji glasa bitno ograničavaju pojedinca u obavljanju širokog spektra aktivnosti čime značajno narušavaju različite aspekte kvalitete života (Watts i Vanryckeghem, 2017).

Ljudska sposobnost govora je iznimno kompleksna i regulirana specijaliziranim mehanizmima koji koordiniraju više kortikalne funkcije, reflekse moždanog debla i periferne živce (Mor, Simonyan i Blitzer, 2018). Različite razine mozga nadziru vokalizacije različitih stupnjeva složenosti, a što se više penjemo po toj hijerarhiji dolazimo do najviše kortikalne razine koja koordinira više od sto mišića, uključujući i one ključne za fonaciju (Mor i sur., 2018). Sasvim je logično da i najmanja disfunkcija unutar tako složenog mehanizma može narušiti urednu proizvodnju glasa i dovesti do poremećaja. Jedan od poremećaja za koji se smatra da potiče upravo iz abnormalnosti na razini središnjeg živčanog sustava je i spastična disfonija, iako točna etiologija nije do kraja razjašnjena (Schuering, Heijnen, Sjögren i Langeveld, 2020).

2 PROBLEMSKA PITANJA

Cilj ovog diplomskog rada je pružiti sveobuhvatan pregled recentnih istraživanja o spastičnoj disfoniji, s posebnim fokusom na njezinu definiciju, terminologiju i klasifikaciju, simptome koji ju obilježavaju, etiologiju i patofiziologiju te dijagnostičke i terapijske pristupe.

U radu se prikazuje kako se mijenjala terminologija spastične disfonije od njezinog prvog spominjanja pa sve do današnjeg dana. Također se iznose specifičnosti u pogledu simptomatologije kod aduktorne i abduktorne spastične disfonije. Prikazuje se i problematika vezana uz djelomično razumijevanje etiologije i patofiziologije ovog poremećaja te nepostojanje jasnih dijagnostičkih kriterija i standardiziranih protokola. Predstavljaju se dostupne terapijske mogućnosti i njihova učinkovitost, kao i utjecaj spastične disfonije na različite domene svakodnevnog života.

Ovim radom nastoji se dati cjeloviti prikaz spastične disfonije sa svim ključnim informacijama vezanima uz ovaj poremećaj, što bi moglo biti od koristi stručnjacima u ovom području, ali i laicima koji se susreću sa spastičnom disfonijom, pomažući im da bolje razumiju sami poremećaj te njegov utjecaj na pojedinca u svakodnevnom životu.

3 DEFINIRANJE I KLASIFIKACIJA SPASTIČNE DISFONIJE

Spastična disfonija (SD, *engl. spasmodic dysphonia*) je relativno rijedak poremećaj glasa koji proizlazi iz laringealne distonije (Boone i sur., 2014). Termin distonija se odnosi na neurološko stanje karakterizirano abnormalnim nevoljnim pokretima ili položajima uzrokovanih dugotrajnim ili povremenim mišićnim kontrakcijama (Balint i sur., 2018). Takva neurološka disfunkcija motoričkih pokreta može biti generalizirana na krupne pokrete tijela ili se odnositi na fokalne poremećaje u određenim dijelovima, kao što su kapci (blefarospazam), vrat (spastični tortikolis) ili grkljan (spastična disfonija), te se smatra hiperkinetičkim poremećajem pokreta (Boone i sur., 2014). S obzirom na etiologiju distonija može biti primarna i u tom je slučaju ona jedini klinički znak te uključuje idiopatske ili genetske poremećaje bez ikakvih neuropatoloških abnormalnosti, a može biti i sekundarna te proizlaziti iz neurodegeneracije, stečenih uzroka poput lezija na mozgu ili genetskih stanja s progresivnim tokom (Fahn, Bressman i Marsden, 1998, prema Balint i sur., 2018). Balint i Bhatia (2015) predlažu i klasifikaciju distonije utemeljenu na kliničkoj fenomenologiji što dovodi do promjena u terminologiji. Prema tome, ukoliko je distonija jedino motoričko obilježje osim tremora, koristi se termin izolirana distonija umjesto primarna distonija koja je obuhvaćala i idiopatske i genetske poremećaje. S druge strane, ako postoji dodatni poremećaj pokreta, upotrebljava se termin kombinirana distonija koja osim heredodegenerativnih uključuje i dotad zvane distonija plus sindrome (npr. mioklonus-distonija). Ovisno o tome koja su područja tijela zahvaćena, distonija se još može podijeliti na fokalnu koja zahvaća jedno područje, segmentalnu koja zahvaća susjedna područja i generaliziranu koja zahvaća nekoliko područja tijela (Balint i sur., 2018). Distonija u početku može biti samo fokalna pa se proširiti i zahvatiti druge dijelove tijela ili čak postati generalizirana.

Spastična disfonija je fokalna laringealna distonija s početkom u odrasloj dobi koju karakteriziraju nevoljne mišićne kontrakcije u području grkljana tijekom govora što dovodi do prekida i zastoja u glasu (Meyer i Blitzer, 2007, prema Benšić, Čulina i Maržić, 2021). U ovom slučaju disfonija je posljedica kroničnih nevoljnih kontrakcija unutarnjih laringealnih mišića koje uzrokuju smetnje u fonaciji (Chen i Ongkasuwan, 2018). Spastična disfonija je kronični neurološki poremećaj centralnog motoričkog procesiranja i karakterizirana je spazmima na razini glasnica koji su izazvani radnjom (Blitzer, Brin i Stewart, 1998). Drugim riječima, glasnice su u mirovanju normalne, no kada dođe do pokreta specifičnog za određeni

zadatak mišići se neadekvatno kontrahiraju što uzrokuje abnormalne pokrete i mišićne spazme. Većina rasprava o spastičnoj disfoniji od sredine 20. stoljeća upućuje na rad Ludwiga Traubea iz 1871. te mu pripisuje zasluge za prvo spominjanje ovog poremećaja u povijesti (Lorch i Whurr, 2016). On je upotrijebio termin spastična disfonija pokušavajući objasniti simptome „nervozne promuklosti“ kod mlade djevojke oboljele od tifusa. Ipak, Lorch i Whurr (2016) navode kako je Morrell Mackenzie još 1868. godine dao opis spastične disfonije koji se uklapa u današnju kliničku sliku definirajući ju kao spastičnost mišića tenzora koja uzrokuje prekomjerno i nepravilno stezanje glasnica što rezultira stvaranjem slabog, grčevitog, nestabilnog glasa čija se visina konstantno povećava. Moore je 1971. godine opisao spastičnu disfoniju kao isprekidano stiskanje glasnica koje narušava tok govora (Murry, 2014). U ranom 20. stoljeću se za osobe koje su pokazivale simptome spastične disfonije govorilo da imaju „mucanje glasnica“, obrasce govorenja u kojima se čini kao da pokušavaju govoriti dok se guše ili čak histerični konverzivni poremećaj, što ukazuje na tadašnje ograničeno razumijevanje samog poremećaja (Chen i Ongkasuwan, 2018). Još neki termini korišteni za opisivanje spastične disfonije u prošlosti su: funkcionalno grčenje grkljana, spastična afonija, laringealna neuroza, fonatorni glotalni spazam, lalofobija, spastični oblik fonastenije, psihofonastenija i slično (Aronson, Brown, Litin i Pearson, 1968).

Unutar opće klasifikacije poremećaja glasa, spastična disfonija pripada grupi neurogenih poremećaja glasa te je navedena kao jedan od najčešće viđenih neurogenih poremećaja glasa u klinikama, uz jednostranu i obostranu paralizu glasnica, esencijalni tremor i poremećaj glasa uzrokovan Parkinsonovom bolesti ili stečenom ozljedom mozga (Boone i sur, 2014). Klasifikacija poremećaja glasa podrazumijeva pripisivanje određenih problema s glasom specifičnoj grupi poremećaja te zahtijeva da se uzmu u obzir različita medicinska ili druga stanja koja bi mogla igrati ulogu u poremećaju glasa, kao i karakteristike glasovne funkcije koja može biti pod utjecajem tih stanja (Verdolini, Rosen i Branski, 2006). Kliničari se često oslanjaju na klasifikacijske kriterije pri stvaranju dijagnostičkog dojma ili preporučivanju i planiranju učinkovitog tretmana zbog čega je konzistentnost u terminologiji i klasifikacijskim kriterijima poremećaja glasa od izrazitog značaja (Payten, Chiapello, Weir i Madill, 2022). Prema Priručniku za klasifikaciju poremećaja glasa (*engl. Classification Manual for Voice Disorders*) spastična disfonija pripada grupi neuroloških poremećaja koji utječu na glas i podgrupi poremećaja pokreta koji utječu na grkljan te je podijeljena na tri vrste: aduktorna (ADSD), abduktorna (ABSD) i miješana spastična disfonija (Verdolini i sur, 2006), a o kojem se od ta tri tipa radi ovisi o tome koja je skupina mišića zahvaćena te kakvim prekidima u

fonaciji rezultira (Chen i Ongkasuwan, 2018). Dok su kod aduktorne spastične disfonije zahvaćeni samo mišići aduktori, tj. tiroaritenoidni, lateralni krikoaritenoidni te interaritenoidni mišići, kod abduktorne spastične disfonije zahvaćeni su samo mišići abduktori, a to su posteriorni krikoaritenoidni mišići (Hu, Hillel, Zhao i Meyer, 2018). Ukoliko su zahvaćene obje skupine mišića tada osoba ima miješani oblik spastične disfonije. Aronson i sur. (1968) su prvi identificirali dva oblika spastične disfonije te se ovi termini konzistentno koriste još od 1968. godine. Aduktornu spastičnu disfoniju odlikuje hiperadukcija glasnica te pojava napetih zastoja uz znatan napor prilikom govorenja, dok je glavno obilježje abduktorne spastične disfonije hiperabdukcija glasnica te šumni prekidi i stvaranje glasa sličnog šapatu (Benšić i sur., 2021). Miješana spastična disfonija, kao što se iz njezinog naziva može pretpostaviti, uključuje prisutnost spazama adukturnog i abduktornog tipa (Benšić, Arlović, Orlić i Maržić, 2022). Blitzer, Brin i Stewart (1998) spominju i dvije varijacije prethodno navedenih oblika spastične disfonije. Prva je kompenzacijska abduktorna disfonija i ona se javlja kod osoba s adukturnim oblikom koje proizvode šuman glas tako što šapuću ili ne priljubljuju glasnice, a sve to s ciljem sprječavanja spazma i prekida govornog toka. S druge strane, kompenzacijska adukturna disfonija može se uočiti kod osoba s abduktornim oblikom koje pokušavaju govoriti s čvrsto priljubljenim glasnicama kako bi izbjegle šumnost u glasu. Detaljniji opis osnovnih tipova spastične disfonije bit će pružen u poglavlju o simptomatologiji.

4 EPIDEMIOLOŠKI PODACI

Spastična disfonija je rijedak poremećaj, a njezina procijenjena prevalencija iznosi 1 na 100000 stanovnika te je nakon cervikalne distonije i blefarospazma treći najučestaliji oblik fokalne distonije (Castelon Konkiewitz i sur., 2002). Najčešći je aduktorni oblik spastične disfonije, dok je abduktorni relativno rijedak (Whurr i Lorch, 2016). Miješana spastična disfonija je posebno rijedak oblik ovog poremećaja (Hyodo i sur., 2021). Prema nekim istraživanjima 80% svih pacijenata sa spastičnom disfonijom ima aduktorni tip, dok preostalih 20% obuhvaća pacijente s abduktornim ili miješanim tipom (Blitzer, Brin, Fahn i Lovelace, 1988, prema Chen i Ongkasuwan, 2018).

Spastična disfonija najčešće pogađa žene (više od 65%) u srednjim godinama života (Hintze, Ludlow, Bansberg, Adler i Lott, 2017a), a prosječna dob pojave prvih simptoma je 45 godina (Schweinfurth, Billante i Courey, 2002). Patel, Bansberg, Adler, Lott i Crujido (2015) su analizirali demografske podatke prikupljene tijekom 25 godina kod 718 pacijenata sa spastičnom disfonijom. Njihovi su rezultati također pokazali da se spastična disfonija češće javlja kod žena nego muškaraca, i to u srednjoj životnoj dobi, te da je aduktorni oblik najučestaliji (u ovom slučaju 91.8% pacijenata).

Hyodo i sur. (2021) su istražili podatke o prevalenciji spastične disfonije u Japanu te ih usporedili s podacima iz drugih zemalja. Procijenjeno je da prevalencija iznosi 3.5 – 7.0 na 100000, što je više nego u istraživanju Castelon Konkiewitz i sur. (2002) u Njemačkoj te ostalim europskim zemljama, a to bi se moglo pripisati različitoj metodologiji i svjesnosti liječnika i pacijenata o samom poremećaju. Prevalencija je bila četiri puta veća kod žena nego muškaraca, a prosječna dob u kojoj se pojavila spastična disfonija bilo je 30 godina, što je 10 do 20 godina ranije nego u drugim zemljama. Moguća objašnjenja zašto je prevalencija bila veća kod osoba ženskog spola uključuju razlike u metodologiji, genetske razlike vezane uz pojavu spastične disfonije, kao i veću osjetljivost na poremećaje glasa među ženama. Što se tiče zastupljenosti pojedinog oblika spastične disfonije, dominirao je onaj aduktorni (90 do 95% osoba), dok je abduktorni oblik znatno rjeđi, što je u skladu s podacima iz literature drugih zemalja (Patel i sur., 2015).

Nerurkar i Banu (2014) su u svojoj studiji istražili demografske karakteristike spastične disfonije u indijskoj populaciji te su dobili rezultate koji se drastično razlikuju od onih iz međunarodnih studija. Pokazalo se da 80% osoba sa spastičnom disfonijom u Indiji čine muškarci, a ne žene kao što je slučaj u većini studija u svijetu. Autori smatraju da se takvi rezultati mogu pripisati društvenim i financijskim prinudama te da oni zapravo nisu prikaz realnog stanja. Naime, većinu radne snage u Indiji čine muškarci, dok nezaposlene žene možda neće imati dovoljno samopouzdanja za prijavu svojih teškoća ili neće dobiti odgovarajuću podršku od strane društva za rješavanje istih, što može dovesti do rezultata koji ne odražavaju istinsko stanje u populaciji.

5 SIMPTOMATOLOGIJA SPASTIČNE DISFONIJE

Spastična disfonija je fokalna laringealna distonija koju karakteriziraju nevoljne kontrakcije unutarnjih laringealnih mišića tijekom fonacije što rezultira prekidima u glasu te smanjenom kvalitetom proizvedenog glasa (Schuering i sur., 2020). Takvo neuromuskularno stanje utječe na sposobnost glasnica da adekvatno koordiniraju adukciju i/ili abdukciju tijekom govora što uzrokuje teškoće prilikom govora uz lošu kvalitetu glasa (Rosow i sur., 2015). Neke osobe navode kako se simptomi javljaju postupno te se u početku mogu primijetiti samo tijekom stresnih situacija ili izraženih vokalnih zahtjeva, dok druge govore o njihovoj iznenadnoj pojavi (Benšić i sur., 2021). Nakon što se pojave, simptomi uglavnom postupno napreduju kroz jednu do dvije godine, nakon čega stagniraju (Verdolini i sur., 2006). Osobe često navode kako su im simptomi posebno izraženi tijekom razgovora telefonom, kao i to da im je kvaliteta glasa nešto bolja u prijedodnevni satima ili nakon konzumacije alkoholnog pića (Benšić i sur., 2021). Spastična disfonija je distonija specifična za zadatak, tj. vezana je uz izvedbu određenog zadatka (u ovom slučaju pogađa govor) zbog čega su ostale laringealne funkcije poput disanja i gutanja očuvane (Hu i sur., 2018). Ista je situacija s vokalizacijama tijekom plakanja i smijanja (Verdolini i sur., 2006), a još su očuvani šapat, zijevanje, vikanje i pjevanje (Benšić i sur., 2021).

Guiry, Worthley i Simonyan (2019) su svojim istraživanjem dobile zanimljive podatke koji se donekle razlikuju od uobičajenog shvaćanja te šire simptomatologiju spastične disfonije koja je pretežno usmjerena na teškoće prilikom govora. Naime, one su ispitivale perspektivu pacijenata o njihovim simptomima i naporu koji ulažu tijekom različitih ponašanja, uključujući govor, pjevanje, vikanje, šaptanje, plakanje, smijanje i zijevanje. Rezultati su potvrdili da je govor zaista najviše narušen, no pokazalo se da pacijenti ulažu gotovo jednak napor prilikom pjevanja, dok su rezultati vezani uz napor tijekom vikanja bili varijabilni. Ostala ponašanja, poput plakanja, smijanja, šaptanja i zijevanja, nisu bila narušena. Autorice smatraju da je to rezultat selektivnih promjena unutar dijelova središnjeg živčanog sustava koji nadziru naučena vokalna ponašanja poput pjevanja i govorenja, no ne i ona urođena. Što se tiče pojave simptoma tijekom pjevanja, ovakvi rezultati nisu u skladu s dosadašnjim tvrdnjama kako je ovo ponašanje očuvano. Jedno od mogućih objašnjenja je to da pjevanje nije bitno za svakodnevnu komunikaciju kao što je govor i nisu svi pacijenti sa

spastičnom disfonijom profesionalni pjevači koji bi bili posebno zabrinuti oko simptoma ili o njima izvijestili pa ti simptomi ostaju prikriveni i neprijavljeni.

Ovisno o vrsti spastične disfonije, osobama je teže izgovarati određene riječi ili kombinacije riječi (Benšić i sur., 2021). S obzirom na to da se obilježja glasa osoba sa spastičnom disfonijom razlikuju ovisno o vrsti poremećaja, u nastavku će se opisati simptomi za svaki od dva osnovna oblika spastične disfonije posebno.

5.1 Aduktorna spastična disfonija

Kod aduktorne spastične disfonije glas je izrazito napet, s mnogim prekidima i frekvencijskim pomacima, uz značajan napor prilikom govora (Benšić i sur., 2021). Tipična obilježja dobivena akustičkom analizom uključuju aperiodične segmente, promjene frekvencije za 50 Hz ili više te fonatorne prekide dulje od 50 ms (Verdolini i sur., 2006). Hiperadukcija glasnica kod aduktorne spastične disfonije onemogućuje kontrolirani protok zraka i adekvatnu vibraciju glasnica pri proizvodnji vokala i zvučnih konsonanata (Benšić i sur., 2021). U slučaju snažne hiperadukcije dolazi do snižavanja glasnoće, a simptomi se u pravilu poboljšavaju povećanjem visine, pjevanjem ili vikanjem (Verdolini i sur., 2006). Međunarodna udruga za spastičnu disfoniju objašnjava kako prekidi utječu na proizvodnju glasova i riječi ovisno o tome na kojoj poziciji su se pojavili (National Spasmodic Dysphonia Association, bez dat.). Naime, ukoliko dođe do prekida na zvučnom glasu koji je na početku riječi, osoba se napreže kako bi prevladala spazam i započela riječ. U slučaju da se prekid pojavi na zvučnom glasu u sredini riječi, često dolazi do rastavljanja te riječi na dva dijela. Ukoliko se prekid dogodi na zvučnom glasu koji je na kraju riječi, osoba završava izgovor te riječi ranije nego što bi trebala i ostavlja dojam kao da „guta“ riječi. S obzirom na to da većina riječi i rečenica sadržava zvučne glasove, uglavnom je teško razumjeti osobu s aduktornom spastičnom disfonijom zbog spazama koji kontinuirano narušavaju normalan govorni tok, a u vrlo teškim slučajevima osobe s ovim oblikom spastične disfonije moraju uložiti ekstremni napor kako bi uopće proizvele ikakav glas.

5.2 Abduktorna spastična disfonija

U slučaju abduktorne spastične disfonije glas je pretjerano šuman, s afoničnim prekidima, uz napor prilikom govora (Benšić i sur., 2021). Što se tiče akustičkih karakteristika, one su iste kao kod aduktornog oblika, tj. prisutni su aperiodični segmenti, fonatorni prekidi dulji od 50 ms te promjene frekvencije za 50 Hz ili više (Verdolini i sur., 2006). Prema Međunarodnoj udruzi za spastičnu disfoniju (National Spasmodic Dysphonia Association, bez dat.), osobe s abduktornim oblikom ovoga poremećaja imaju teškoće prilikom proizvodnje bezvučnih glasova, tj. potrebno im je više vremena da ih dovrše, zato što spazmi abduktornih mišića drže glasnice otvorenima duže nego što bi to trebalo biti u slučaju uredne proizvodnje glasa, što rezultira pretjeranom šumnosti. Navode i to da se simptomi abduktorne spastične disfonije mogu javiti na bezvučnim glasovima u bilo kojoj poziciji unutar riječi, kao i to da se u težim slučajevima prekidi mogu javiti na svakom bezvučnom glasu, što uzrokuje izrazitu šumnost i stvaranje glasa sličnog šapatu. Također objašnjavaju kako osobe s abduktornom spastičnom disfonijom često opisuju da se tijekom govora osjećaju kao da ostaju bez daha, upravo zato što potroše previše zraka dok pokušavaju proizvesti glas. Prekidi abduktornog tipa najprimjetniji su tijekom pokušaja proizvodnje vokala nakon bezvučnog konsonanta, iz razloga što hiperabdukcija glasnica prilikom izgovora bezvučnog konsonanta dovodi do teškoća u pokušaju adukcije glasnica za izgovor vokala (Benšić i sur., 2021).

6 ETIOLOGIJA I PATOFIZIOLOGIJA SPASTIČNE DISFONIJE

Prije iznošenja novijih spoznaja o etiologiji spastične disfonije, važno je prikazati kako se shvaćanje ovog poremećaja mijenjalo kroz povijest. U prošlosti se spastična disfonija smatrala poremećajem nesigurnog podrijetla, prema mnogima psihogenog, zato što se pacijenti često koriste senzornim trikovima (poput zijevanja ili smijanja prilikom početka govorenja) kako bi poboljšali abnormalne pokrete (Blitzer i sur., 1998). Također iznose kako im se simptomi pogoršavaju uslijed emocionalnog stresa te da su nešto bolji ujutro nakon buđenja ili poslije konzumacije alkoholnog pića, kao i to da su uglavnom odsutni tijekom pjevanja i smijanja. Stručnjaci su vjerovali da je spastična disfonija funkcionalni poremećaj koji može biti izazvan stresom, anksioznosti ili depresijom (Hu i sur., 2018). U literaturi se gotovo 100 godina spastična disfonija svrstavala u poremećaje osobnosti te se smatralo da ju je potrebno tretirati savjetovanjem i vokalnom terapijom (Murry, 2014). Već je spomenuto u poglavlju o definiranju i klasifikaciji kako su se nekada simptomi koji odgovaraju spastičnoj disfoniji opisivali različitim terminima („nervozna promuklost“, psihofonastenija, histerični konverzivni poremećaj i slično) upravo zbog nepotpunog razumijevanja ovog poremećaja. U 80-im godinama 20. stoljeća došlo je do pomaka te se spastična disfonija više počela opisivati kao rezultat bioloških procesa nego psihološko stanje (Chen i Ongkasuwan, 2018). Zapravo se mnogo ranije počelo sumnjati u neurološku podlogu poremećaja, no i dalje je većina čvrsto vjerovala u povezanost s poremećajima osobnosti (Murry, 2014). Istraživanja anatomije, fiziologije i histologije doprinijela su shvaćanju da je spastična disfonija zapravo poremećaj pokreta grkljana, tj. fokalna distonija, a ne psihički poremećaj kako se dugo smatralo (Murry, 2014). Robe, Brumlik i Moore (1960) su proveli istraživanje u kojem je sudjelovalo 10 osoba s dijagnozom spastične disfonije i svaka je od njih pokazivala znakove disfunkcije na razini središnjeg živčanog sustava. To je autore navelo na zaključak da postoji određena smetnja upravo na razini živčanih putova uključenih u proizvodnju govora. Prema Murryju (2014), ovo je prva studija koja je iznijela dokaze o povezanosti spastične disfonije i neurološkog poremećaja. Dedo (1976) je pacijentima sa spastičnom disfonijom paralizirao povratni laringealni živac nakon čega se kod gotovo polovice pacijenata glas vratio u prvobitno stanje, što je također išlo u prilog teorijama o neurološkoj komponenti. Schaefer (1983) je nakon proučavanja funkcije moždanog debla kod osoba sa spastičnom disfonijom došao do zaključka da je spastična disfonija rezultat oštećenja upravo na razini moždanog debla, točnije na dijelovima njegovih somatskih i visceralnih puteva. Blitzer, Lovelace, Fahn, Brin i Fink

(1985) su proveli istraživanje u kojem je obavljen klinički pregled pacijenata sa spastičnom disfonijom te je izvedena laringealna elektromiografija. Nisu pronađene nikakve periferne lezije živaca ili mišića kod osoba sa spastičnom disfonijom zbog čega su autori zaključili da je ovo stanje vjerojatno posljedica oštećenja na razini središnjeg živčanog sustava. U istraživanju Davis, Boone, Darveniza, Carroll i Harrison (1988) su pronađeni neurološki deficiti kod 8 od 13 pacijenata s aduktornom spastičnom disfonijom, no unatoč istoj dijagnozi, postojale su razlike u fundamentalnoj frekvenciji, fonatornom protoku zraka te izgledu grkljana za vrijeme fonacije. Prema autorima, takve fiziološke razlike upućuju na složenu etiologiju poremećaja koja bi mogla uključivati međusobno djelovanje psiholoških i neuroloških čimbenika.

Točna etiologija spastične disfonije još uvijek nije poznata, no općenito se smatra da je njezino podrijetlo na razini središnjeg živčanog sustava (Schuering i sur., 2020). Ono što je dosadašnjim istraživanjima utvrđeno ukazuje na to da je spastična disfonija složen poremećaj koji najvjerojatnije ima multifaktorsku etiologiju, a ona obuhvaća neurološke, genetske i okolinske čimbenike (Hintze i sur., 2017a). Iako su točna etiologija i patofiziologija spastične disfonije još uvijek nejasne, pozitivna obiteljska anamneza na distoniju kod 16-20% pacijenata ide u prilog genetskim predispozicijama, dok podaci o učestalim infekcijama gornjih dišnih putova, virusnim infekcijama u djetinjstvu, psihološkom stresu te korištenju glasa u profesionalne svrhe upućuju na mogući doprinos okolinskih faktora (De Lima Xavier i Simonyan, 2019). Nadalje, korištenjem različitih tehnika oslikavanja mozga dobiveni su podaci o abnormalnoj aktivnosti senzomotoričkog korteksa, bazalnih ganglija, talamusa i malog mozga, što ukazuje na to da patofiziologija spastične disfonije vjerojatno uključuje međusobno djelovanje intrinzičnih (genetskih) i ekstrinzičnih (okolinskih) čimbenika koji zajedno dovode do abnormalnosti u funkcionalnoj organizaciji mozga (De Lima Xavier i Simonyan, 2019).

6.1 Faktori rizika

Rizični faktori su varijable koje su povezane s određenom bolesti ili poremećajem tako što se mnogo češće pojavljuju unutar populacije koja ima tu bolest ili poremećaj nego u općoj populaciji (Tanner i sur., 2012). Okolinski faktori mogu potaknuti razvoj spastične disfonije te biti okidač za njezinu pojavu kod nekih osoba, no takve čimbenike valja uzeti s oprezom s obzirom na to da korelacija ne znači uvijek i uzročna veza (Hintze i sur., 2017a). Iako rizični faktori predstavljaju povezanost, a ne nužno uzročnost, važni su jer daju bolji uvid u patogenezu bolesti ili poremećaja koji se proučava (Tanner i sur., 2012). Također, mogu pomoći pri utvrđivanju dijagnoze u onim slučajevima kad jasna slika možda ne postoji (Hintze i sur., 2017a).

Murry (2014) je izdvojio neke od rizičnih faktora za pojavu spastične disfonije koji su utvrđeni na temelju proučavanja velikih skupina pacijenata. U literaturi se često spominju:

- ženski spol
- srednja životna dob
- pozitivna obiteljska anamneza na distoniju, esencijalni tremor, meningitis i ostale neurološke bolesti
- infekcije gornjih dišnih puteva
- upale sinusa i grla
- cervikalna distonija
- zaušnjaci i ospice u dječjoj dobi
- intenzivna upotreba glasa
- nedavna izloženost stresnim događajima
- trudnoća i porođaj

Schweinfurth i sur. (2002) navode kako je u njihovom istraživanju 79% žena imalo spastičnu disfoniju te je prosječna dob u kojoj se poremećaj javio bilo 45 godina. Nadalje, 65% pacijenata je u dječjoj dobi preboljelo ospice ili zaušnjake, dok je njih 51% povezalo pojavu simptoma spastične disfonije s akutnom upalom gornjih dišnih puteva ili velikim stresnim događajem u životu. Postojala je i povezanost s esencijalnim tremorom gornjih ekstremiteta te spisateljskim grčem.

Childs, Rickert, Murry, Blitzer i Sulica (2011) su proveli istraživanje u kojem su analizirali percepciju pacijenata o faktorima koji su možda doveli do spastične disfonije kako bi utvrdili postoje li specifični okidači povezani s pojavom ovog poremećaja. Prema rezultatima, pacijenti su najčešće identificirali faktore poput stresa, infekcija gornjih dišnih puteva te trudnoće i porođaja, što pokazuje da bi određeni okolinski faktori mogli biti komponenta u patofiziologiji spastične disfonije.

Tanner i sur. (2012) navode kako su sljedeći faktori jedinstveno povezani sa spastičnom disfonijom: osobna anamneza cervikalne distonije, upale sinusa i grla, ospice, zaušnjaci, izloženost prašini, intenzivna upotreba glasa, pozitivna obiteljska anamneza na poremećaje glasa, pozitivna anamneza unutar uže obitelji na vokalni tremor i meningitis te pozitivna anamneza unutar šire obitelji na tremor glave i vrata, očne bolesti i meningitis. Autori zaključuju kako je spastična disfonija multifaktorski poremećaj povezan s različitim unutarnjim i vanjskim faktorima.

Othman, Daggumati, Patel, Ross i Sataloff (2020) navode kako upalni procesi te različite bolesti poput multiple skleroze, metaboličkih abnormalnosti i bolesti štitnjače mogu doprinijeti patogenezi i manifestirati se kao laringealna distonija.

6.2 Mutacije gena i spastična disfonija

Postoje tri gena povezana s različitim oblicima distonije, a to su TUBB4A, THAP1 i TOR1A (Hintze i sur., 2017a).

De Gusmao i sur. (2016) su proveli istraživanje u kojem je sudjelovalo 86 pacijenata sa spastičnom disfonijom kako bi ispitali postoje li ikakve mutacije na prethodno navedenim genima. Genetičko testiranje je pokazalo da nijedan pacijent nije imao mutacije na genima TUBB4A i TOR1A, dok su na genu THAP1 identificirane jedna mutacija i jedna varijanta nepoznatog kliničkog značenja. S obzirom na to da postoje samo slabi dokazi o povezanosti specifičnih gena i spastične disfonije, potrebno je posvetiti dodatnu pozornost ovakvim vrstama istraživanja u budućnosti.

6.3 Neurološki mehanizmi u pozadini spastične disfonije

Napredak u razvoju tehnika oslikavanja mozga, kao što su magnetska rezonancija, pozitronska emisijska tomografija, transkranijalna magnetska stimulacija te transkranijalna sonografija, doprinio je boljem razumijevanju proizvodnje glasa i govora, kao i povezanosti mozga i laringealne funkcije (Whurr i Lorch, 2016).

Čini se da postoje tri neurološka mehanizma uključena u patofiziologiju spastične disfonije, a to su gubitak kortikalne inhibicije, poremećaji senzornog unosa te neuroanatomske promjene (Hintze i sur., 2017a).

6.3.1 Gubitak kortikalne inhibicije

Pokazalo se da je kod različitih tipova fokalne distonije prisutna smanjena kortikalna inhibicija što upućuje na to da bi patofiziološki mehanizam kod fokalnih distonija mogla biti disfunkcija GABA-ergičkih inhibicijskih interneurona u motoričkom korteksu (Hintze i sur., 2017a). Kortikalni period tišine je pouzdana mjera za intrakortikalnu inhibiciju u primarnom motoričkom korteksu povezanu s mišićem koji se proučava (Chen i sur., 2020).

Samargia, Schmidt i Kimberley (2016) su transkranijalnom magnetskom stimulacijom mjerili kortikalni period tišine za žvačni i prvi dorzalni interosealni mišić, a rezultati su pokazali da je on kod osoba s aduktornom spastičnom disfonijom u oba slučaja kraći u odnosu na kontrolnu skupinu. S obzirom na to da skraćeni kortikalni period tišine podrazumijeva smanjenu kortikalnu inhibiciju, ovakvi rezultati ukazuju na nešto rašireniju GABA-ergičku disfunkciju.

Chen i sur. (2020) su također proučavali kortikalni period tišine u motoričkom korteksu za mišiće grkljana kod osoba s aduktornim oblikom spastične disfonije. Rezultati istraživanja su pokazali da osobe s aduktornom spastičnom disfonijom imaju značajno kraći kortikalni period tišine u područjima korteksa koja nadziru tiroaritenoidni mišić. Autori zaključuju da kod aduktorne spastične disfonije kortikalna aktivacija tijekom fonacije možda nije na učinkovit način povezana s inhibicijskim procesima, što dovodi do mišićne disfunkcije.

6.3.2 Poremećaji senzornog unosa

Termsarasab i sur. (2015) navode kako pacijenti sa spastičnom disfonijom imaju viši prag temporalne diskriminacije vizualnih podražaja, tj. trebalo im je više vremena između dva bljeska LED svjetla kako bi ih percipirali kao odvojene podražaje, što ukazuje na narušenu senzornu obradu.

6.3.3 Neuroanatomske promjene

Simonyan i Ludlow (2012) su pomoću dvije metode analizirali slike dobivene magnetskom rezonancijom te ustanovili da je kod pacijenata sa spastičnom disfonijom povećan volumen sive tvari u mozgu, kao i kortikalna debljina. Također govore o povećanoj aktivnosti senzomotoričkog korteksa, donje čeone vijuge, gornje i srednje sljepoočne vijuge, supramarginalne vijuge, ali i strukture koja je obično abnormalna u drugim primarnim distonijama – malog mozga.

S obzirom na činjenicu da je transkranijalna sonografija pokazala abnormalnosti lećaste jezgre kod idiopatske segmentalne i generalizirane distonije, Walter, Blitzer, Benecke, Grossmann i Dressler (2014) su odlučili provesti takvo istraživanje kako bi provjerili postoje li slične abnormalnosti bazalnih ganglija i kod spastične disfonije. Rezultati su pokazali da je prisutna hiperehogenost lećaste jezgre i kod ovog poremećaja, što ukazuje na povezanost patologije koja je u podlozi spastične disfonije s onom koja je u podlozi raznih vrsta distonije.

Waugh i sur. (2016) su dvjema metodama analizirali slike dobivene magnetskom rezonancijom te ustanovili da je kod spastične disfonije, kao i cervikalne distonije, volumen talamusa značajno smanjen.

Kostić i sur. (2016) su pomoću magnetske rezonancije analizirali građu korteksa, bazalnih ganglija te mikrostrukturne promjene bijele tvari kod pacijenata sa spastičnom disfonijom. Rezultati su pokazali da postoje bilateralne promjene korteksa pretežno u područjima odgovornima za proizvodnju glasa i kontrolu govora, zatim uključenost desnog nucleusa caudatusa i putamena, kao i abnormalnosti u snopovima bijele tvari unutar desne hemisfere. Pronađene su promjene u područjima koja nadziru senzomotoričku obradu i kontrolu govora (primarni somatosenzorički korteks, primarni motorički korteks,

premotorički korteks, rolandički operkulum), kao i u područjima odgovornima za slušno monitoriranje (gornja sljepoočna vijuga) te percepciju jezičnih (angularna i supramarginalna vijuga) i vizualnih informacija (lingvalna vijuga). Autori su na temelju dobivenih rezultata zaključili da bi ulogu u patofiziologiji spastične disfonije mogle imati promjene u dijelovima središnjeg živčanog sustava koji su odgovorni za kontrolu glasa, i to na više razina, što uključuje ne samo područja za senzomotoričku integraciju, motoričko planiranje i izvedbu, već i ona za obradu auditivnih i vizualnih informacija tijekom govora.

Kirke i sur. (2017) govore o povećanoj aktivnosti senzomotoričkog korteksa, donje čeone vijuge, gornje sljepoočne vijuge, putamena i ventralnog talamusa kod pacijenata sa spastičnom disfonijom.

Bianchi i sur. (2017) su u svom istraživanju proučavali strukturne promjene u sivoj i bijeloj tvari s obzirom na različite fenotipe i genotipe spastične disfonije. Različiti fenotipi su se u ovom slučaju odnosili na aduktorni i abduktorni oblik spastične disfonije, dok su različiti genotipi predstavljali dvije skupine pacijenata: one kod kojih je došlo do sporadične pojave spastične disfonije te one koji su imali pozitivnu obiteljsku anamnezu na spastičnu disfoniju. Rezultati su pokazali da su fenotip-specifične abnormalnosti lokalizirane u lijevom senzomotoričkom korteksu, angularnoj vijuzi i snopu bijele tvari u gornjem desnom dijelu corone radiate, dok su genotip-specifične promjene smještene u lijevoj gornjoj sljepoočnoj vijuzi, dodatnom motoričkom području i lučnom dijelu lijevog gornjeg longitudinalnog fascikulusa. To navodi na zaključak da su fenotipske razlike povezane s primarnim i asocijativnim područjima za motoričku kontrolu, dok bi patofiziološki mehanizmi koji se odnose na genotip mogli biti povezani sa disfunkcijom područja koja kontroliraju senzornu i fonološku obradu. Navedene strukturne promjene karakteriziraju kliničku raznolikost spastične disfonije te potencijalno doprinose njezinoj patofiziologiji.

Istraživanje su na sličan način proveli Battistella, Fuertinger, Fleysheer, Ozelius i Simonyan (2016). Pacijenti su bili podijeljeni s obzirom na različite fenotipe, tj. aduktorni ili abduktorni oblik spastične disfonije, kao i na različite genotipe, tj. skupinu pacijenata kod kojih je došlo do sporadične pojave spastične disfonije te skupinu s pacijentima koji su imali pozitivnu obiteljsku anamnezu na spastičnu disfoniju. Rezultati su pokazali da postoje promjene u funkcionalnoj povezanosti unutar senzomotoričkih i frontoparijetalnih područja mozga te da se one razlikuju u opsegu s obzirom na različite fenotipe, tj. oblike spastične disfonije, što bi moglo biti pod utjecajem različitih genetskih faktora, ovisno o tome radi li se

o sporadičnoj pojavi poremećaja ili prisutnosti pozitivne obiteljske anamneze. Autori navode kako bi abnormalnosti u senzomotoričkim i parijetalnim područjima mogle poslužiti kao markeri za identifikaciju spastične disfonije te njezinu daljnju klasifikaciju na različite podtipove.

De Lima Xavier i Simonyan (2019) su pacijentima sa spastičnom disfonijom podijelili upitnike koji su sadržavali pitanja o općim biografskim podacima, povijesti bolesti i simptomatologiji distonije, nakon čega su analizirali te podatke s ciljem identifikacije ekstrinzičnih faktora rizika za ovaj poremećaj. Također je provedena analiza podataka dobivenih funkcionalnom magnetskom rezonancijom kako bi se utvrdilo koje su abnormalnosti u aktivaciji mozga povezane s tim faktorima. Rezultati su pokazali da ponavljajuće infekcije gornjih dišnih puteva, gastroezofagealni refluks i trauma vrata predstavljaju ekstrinzične faktore rizika koji mogu biti okidač za pokretanje manifestacije simptoma spastične disfonije. Utvrđeno je i to da kod osjetljivih pojedinaca ekstrinzični faktori imaju utjecaj na neuralne promjene u područjima potrebnima za senzomotoričku pripremu i integraciju. Sve navedeno ide u prilog multifaktorskoj patofiziologiji kod spastične disfonije.

Unatoč tome što je postignut značajan napredak u prepoznavanju promjena mozga vezanih uz spastičnu disfoniju, još uvijek je ograničeno razumijevanje međusobnog odnosa etiologije i patofiziologije ovog poremećaja te je i dalje nepoznato mogu li se te abnormalnosti smatrati markerima za predviđanje spastične disfonije ili dijagnostičko razlikovanje (Battistella i sur., 2016). Kako autori dalje navode, jedan od razloga za ovakvo stanje je to što je većina istraživanja usmjerena na mapiranje promjena u mozgu kod najčešćeg aduktornog oblika spastične disfonije, što otežava karakterizaciju poremećaja i određivanje potpunije patofiziološke slike.

7 DIJAGNOSTIKA SPASTIČNE DISFONIJE

Dijagnostika spastične disfonije može biti vrlo izazovna zato što ne postoji znanstveni konsenzus o dijagnostičkim kriterijima, a proces je dodatno otežan time što postoji sličnost spastične disfonije s nekim drugim poremećajima glasa, što nerijetko dovodi do zabune prilikom dijagnosticiranja (Hintze i sur., 2017b). O sličnosti spastične disfonije s drugim poremećajima, kao i o njihovim razlikama koje je važno poznavati prilikom postupka dijagnostike, reći će se nešto više u sljedećim poglavljima.

Timove stručnjaka zaposlenih u ustanovama koje pružaju usluge procjene i tretmana pacijenata sa spastičnom disfonijom najčešće čine otorinolaringolog-fonijatar, neurolog i logoped (Patel i sur., 2015). Nepostojanje sustavne metode za probir i dijagnostiku predstavlja veliko ograničenje u razumijevanju ovog poremećaja i rezultira dugotrajnim i kompliciranim procesom dobivanja dijagnoze, kao i slučajevima pogrešnog dijagnosticiranja različitih psihijatrijskih i psihosomatskih poremećaja (Creighton i sur., 2015). S obzirom na to da nije razvijen dijagnostički test za spastičnu disfoniju, dijagnoza uglavnom ovisi o stručnjacima različitih profila, uključujući otorinolaringologe-fonijatre, neurologe i logopede, koji su iskusni u prepoznavanju i terapiji spastične disfonije i njoj sličnih poremećaja (Ludlow i sur., 2018). U dijagnostici se najčešće kombiniraju perceptivna procjena glasa i govornih simptoma, nazolaringoskopija te neurološki pregled (Guiry i sur., 2019). Dijagnostički kriteriji na koje se stručnjaci trenutno oslanjaju su subjektivni i temelje se na njihovoj individualnoj interpretaciji prikupljenih informacija, zbog čega je važno imati na umu da nedostatak objektivnih dijagnostičkih kriterija iznimno otežava postavljanje dijagnoze, čak i iskusnim neurolozima i otorinolaringolozima (Creighton i sur., 2015).

Ludlow i sur. (2018) govore o problemu nedosljedne klasifikacije spastične disfonije i sličnih poremećaja među različitim stručnjacima i ustanovama, upravo zbog nedostatka standardiziranih kriterija. Naime, rezultati njihovog istraživanja pokazuju da se čak ni stručnjaci unutar istog tima nisu mogli usuglasiti prilikom procjenjivanja o kojem se poremećaju radi, a slaganje je bilo još manje među stručnjacima iz različitih ustanova. O problematici dijagnostike govore i Creighton i sur. (2015) koji su proveli istraživanje u kojem su pacijenti sa spastičnom disfonijom trebali ispuniti upitnike vezane uz njihova iskustva s ovim poremećajem i procesom dobivanja dijagnoze. Bila su uključena pitanja o tome kada su se javili prvi simptomi te koliko je vremena prošlo od prvog posjeta liječniku nakon

primjećivanja tih simptoma do konačnog dobivanja dijagnoze, kao i to koliko su različitih stručnjaka trebali prethodno posjetiti. Pokazalo se da postoji značajno kašnjenje u dobivanju dijagnoze spastične disfonije. Naime, pacijenti navode kako je prošlo prosječno 4.5 godina od prvog posjeta liječniku do postavljanja konačne dijagnoze, kao i to da su unutar tog vremenskog perioda posjetili gotovo 4 stručnjaka. Takvo kašnjenje je izrazito dugo, ne samo za pacijente koji gube dragocjeno vrijeme i suočavaju se s brojnim socijalnim i profesionalnim teškoćama, već i za javno zdravstvo na čije resurse to znatno utječe. Osim toga, pacijentima se često zbog neprepoznavanja pravog problema nepotrebno pripisuju lijekovi od kojih neki mogu imati ozbiljne nuspojave ili potencijal za razvoj ovisnosti. Autori ističu kako je potrebna dodatna edukacija stručnjaka o znakovima spastične disfonije, i to ne samo otorinolaringologa, nego i pružatelja usluga primarne zdravstvene zaštite te internista, kako bi usmjerili pacijente onim stručnjacima koji su im zaista potrebni, a sve to s ciljem poboljšanja brige o pacijentima i njihove sigurnosti, kao i racionalnog korištenja zdravstvenih resursa. Također se naglašava potreba za razvijanjem i uspostavljanjem objektivnih dijagnostičkih kriterija i postupaka kako bi se izbjegla ili barem umanjila kašnjenja u postavljanju adekvatne dijagnoze. Jedan od važnih preuvjeta za uspostavljanje točnih i objektivnih kriterija za dijagnozu spastične disfonije je detaljno poznavanje simptomatologije ovog poremećaja (Guiry i sur., 2019).

7.1 Trorazinski model procjene spastične disfonije

Ludlow i sur. (2008) su na temelju zajedničkog konsenzusa predložili model procjene spastične disfonije koji je široko prihvaćen, a sastoji se od tri razine koje upućuju na moguće, vjerojatno ili definitivno postojanje spastične disfonije. Prelaskom s jedne razine na drugu postupno se smanjuje broj slučajeva koje je potrebno ispitati. Prva razina uključuje pitanja za probir koja mogu uputiti na mogućnost postojanja spastične disfonije. Slijedi druga razina koja se odnosi na perceptivnu procjenu glasa od strane specijalista koja može uputiti na vjerojatno postojanje spastične disfonije, dok treća razina uključuje i nazolaringoskopiju koja određuje definitivnu dijagnozu spastične disfonije. U nastavku je pružen detaljniji opis svake od triju razina.

Prva razina se sastoji od četiri probirna pitanja:

1. Ulažete li velik napor kako biste govorili?
2. Je li vam nekada lakše, a nekada teže govoriti?
3. Koliko već dugo traje period u kojem vam je teško govoriti?
4. Možete li normalno izvoditi neku od sljedećih aktivnosti? (vikanje, plakanje, smijanje, šaptanje, zijevanje)

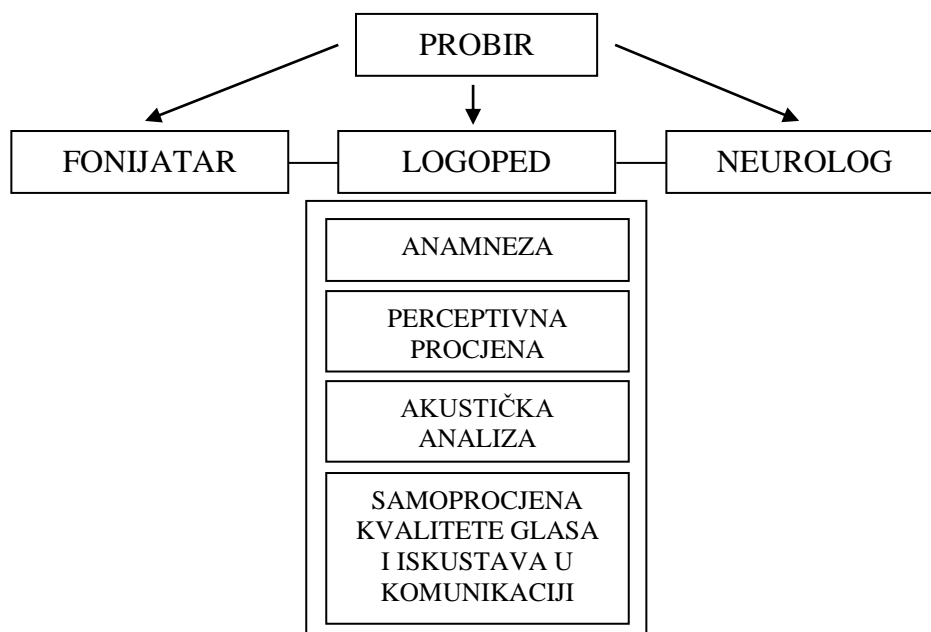
Da bi se donijela odluka o mogućnosti postojanja spastične disfonije, neophodan je potvrđan odgovor na prva dva pitanja, kao i teškoće govora u trajanju od tri ili više mjeseci (vezano uz treće pitanje). Potvrđan odgovor na četvrto pitanje može biti koristan, ali nije obavezan. Ukoliko se utvrdi mogućnost postojanja spastične disfonije, prelazi se na sljedeću razinu.

Druga razina se sastoji od zadataka koje pacijent mora izvršiti na nalog specijalista, a to uključuje ponavljanje rečenica koje naglašavaju prekide aduktornog odnosno abduktornog tipa, prolongiranu fonaciju, vikanje te brojanje od 1 do 10. Ukoliko pacijent tijekom govora ima izrazito napet glas uz značajan napor i prekide, a to se ne događa uslijed vikanja ili šaptanja, postoji vjerojatnost za spastičnu disfoniju. Autori navode kako pacijenti trebaju ponoviti zadane rečenice svojim uobičajenim glasom, umjerene visine i glasnoće, a onda i šapatom. Neophodno je pojavljivanje prekida u glasu jednom ili više puta u tri rečenice tijekom uobičajenog govora te nijednom tijekom šaptanja, a specijalist može zadati onoliko rečenica koliko je potrebno da bi sa sigurnošću potvrdio prisutnost specifičnih simptoma. Težina se određuje brojem prekida u deset rečenica. Dio druge razine se odnosi na diferencijaciju aduktornog i abduktornog oblika spastične disfonije i hiperfunkcionalne upotrebe glasa. Naime, pacijent treba ponavljati obje vrste rečenica kako bi se utvrdilo koja mu je skupina teža odnosno zahtijeva više napora. Pacijentima s aduktornim oblikom spastične disfonije veći će problem predstavljati rečenice koje naglašavaju prekide aduktornog tipa, dok će pacijenti s abduktornim oblikom spastične disfonije imati više teškoća s rečenicama koje naglašavaju prekide abduktornog tipa. Ukoliko pacijent ima podjednake teškoće s jednom i drugom skupinom rečenica, radi se o hiperfunkcionalnoj upotrebi glasa. Procjenom prolongirane fonacije uobičajenom visinom glasa u trajanju od pet sekundi može se identificirati i vokalni tremor koji s porastom visine slabi.

Treća razina podrazumijeva pregled metodom fiberoptičke nazolaringoskopije kako bi se isključila mogućnost postojanja neke druge patologije kao osnove prisutnih glasovnih simptoma te se njome može potvrditi dijagnoza spastične disfonije. Ne bi trebale postojati nikakve anatomske nepravilnosti kojima bi se mogao pripisati poremećaj glasa, što znači da bi se glasnice trebale uredno gibati za vrijeme disanja, kašljanja, pročišćavanja grla i zviždanja. Tijekom prolongirane fonacije i ponavljanja rečenica moguće je primijetiti tremor glasnica ili spazme. Za ovaj pregled se ne smije koristiti anestezija, a korisno je imati videozapis, iako nije obavezno. Pacijenti koji nakon ove razine ispitivanja ne dobiju definitivnu dijagnozu spastične disfonije vjerojatno imaju neki drugi poremećaj ili spastičnu disfoniju u kombinaciji s još nekim poremećajem glasa.

7.2 Model interdisciplinarne procjene spastične disfonije

S obzirom na važnost međusobne suradnje stručnjaka različitih profila u procesu donošenja odluke o konačnoj dijagnozi i planiranju terapije, Benšić i sur. (2021) su po uzoru na Ludlow i sur. (2008) predložile sličan model interdisciplinarne procjene spastične disfonije (Slika 1.).



Slika 1. Model interdisciplinarne procjene spastične disfonije

Naime, ukoliko se probirnim upitnikom utvrdi mogućnost postojanja spastične disfonije, pacijenta se treba uputiti na daljnju fonijatrijsku, neurološku i logopedsku obradu. Poremećaji glasa neurološkog podrijetla zahtijevaju procjenu od strane fonijatara i neurologa koji su iskusni u području distonije i vokalnog tremora (Esposito i sur., 2015). Fonijatri pomoću videolaringoskopije mogu vizualizirati glasnice i isključiti mogućnost postojanja neke druge patologije (Daraei i sur., 2014), kao i otkriti nepravilnosti u njihovoj pokretljivosti te konačno potvrditi dijagnozu spastične disfonije (Esposito i sur., 2015). Videolaringoskopija može pomoći u prepoznavanju vokalnog tremora koji nije lako identificirati samo na temelju auditivnih znakova (Daraei i sur., 2014). Neurolozi metodom laringealne elektromiografije mogu detektirati abnormalnosti mišićne aktivacije te identificirati specifične mišiće koji doprinose spastičnoj disfoniji (Hintze i sur., 2017b).

7.2.1 Logopedska procjena spastične disfonije

Benšić i sur. (2021) u svom radu izdvajaju četiri razine logopedske procjene spastične disfonije, a to su prikupljanje anamnestičkih podataka, perceptivna procjena glasa, akustička analiza te samoprocjena kvalitete glasa i iskustava u komunikaciji. U nastavku je pružen detaljniji opis pojedinih razina.

Prikupljanje anamnestičkih podataka služi za opisivanje varijabilnosti i trajanja simptoma, pri čemu se varijabilnost odnosi na razlike u pojavljivanju simptoma ovisno o zahtjevima komunikacijske situacije. Nadalje, u ovoj se fazi pokušavaju identificirati dodatni čimbenici, poput životnih navika, stresnih događaja ili popratnih dijagnoza, koji mogu utjecati na cjelokupnu kliničku sliku.

Perceptivna procjena glasa je najčešće korištena metoda i nerijetko se smatra zlatnim standardom za procjenu glasa, i to iz više razloga, uključujući taj da je kvaliteta glasa po svojoj prirodi perceptivna i ima veće intuitivno značenje nego različite objektivne mjere (Oates, 2009). GRBAS skala je najčešće korišten instrument za perceptivnu procjenu glasa, a procjenjuje pet parametara: generalni stupanj promuklosti, hrapavost glasa, šumnost u glasu, slabost glasa te napetost glasa (Hirano, 1981). Još jedan često upotrebljavan instrument je CAPE-V – vizualno-analogni instrument koji sadrži šest podskala, uključujući opću jakost poremećaja, hrapavost, šumnost, napetost, visinu i glasnoću, a svaka se od njih procjenjuje na

liniji dugoj 100 mm (Kempster, Gerratt, Verdolini Abbott, Barkmeier-Kraemer i Hillman, 2009). Iako su ove skale široko prihvaćene i često korištene u praksi, njihov je nedostatak to što u slučaju spastične disfonije ne omogućuju kvalitativnu i kvantitativnu analizu prekida u fonaciji, kao ni procjenu fonatornog tremora (Benšić i sur., 2021). Iz tog su razloga Schuering i sur. (2021) predložili da se za procjenu kvalitete glasa kod aduktorne spastične disfonije koristi GRBAS skala, ali još uz procjenu prekida u glasu te s manjim naglaskom na parametar slabosti. Pored svega navedenog treba uzeti u obzir i procjenu glasa tijekom izvođenja različitih zadataka koju su predložili Ludlow i sur. (2008) kao dio druge razine njihovog trirazinskog modela, što je već opisano u prethodnom poglavlju. Dakle, perceptivna procjena glasa kod osoba sa spastičnom disfonijom trebala bi se temeljiti na uzorku prolongirane fonacije, ponavljanju rečenica prilagođenih procjeni spastične disfonije, brojanju te uzorku spontanog govora (Benšić i sur., 2021).

Akustička analiza je kvantitativna neinvazivna metoda osjetljiva na smetnje u glasu, povezana je s perceptivnim parametrima te omogućuje donošenje indirektnih zaključaka o patofiziologiji poremećaja glasa (Patel i sur., 2018). Iako iskusan stručnjak i perceptivnom procjenom može pouzdano ocijeniti kvalitetu glasa, taj se postupak nastoji objektivizirati kako bi se lakše postavili dijagnostički kriteriji ili pratila učinkovitost terapije (Benšić i sur., 2021). Cannito, Doiuchi, Murry i Woodson (2012) izdvajaju neke akustičke manifestacije smetnji u glasu kod aduktorne spastične disfonije, a to su nepravilnosti u fundamentalnoj frekvenciji, narušenost strukture harmonika te produženo vrijeme artikulacije. Njihovo istraživanje je pokazalo da postoji povezanost između nekih akustičkih varijabli i perceptivnih obilježja glasa kod aduktorne spastične disfonije. Naime, postotci prekida u fonaciji, aperiodičnih segmenata i pomaka u frekvenciji te cepstralni vokalni vrhunac povezani su s perceptivnom mjerom hrapavosti, dok su sa šumnosti povezani samo postotak aperiodičnih segmenata i cepstralni vokalni vrhunac. Cannito i sur. (2012) predlažu analizu frekvencijskih i intenzitetskih oscilacija u procjeni spastične disfonije, dok Edgar, Sapienza, Bidus i Ludlow (2001) tome dodaju kvalitativnu i kvantitativnu analizu prekida te trajanja riječi i rečenica. Edgar i sur. (2001) također navode kako se pacijenti s abduktornom spastičnom disfonijom razlikuju od kontrolne skupine po vremenu uključivanja glasa kod bezvučnih konsonanata, što je savim očekivano s obzirom na činjenicu da je produljen izgovor bezvučnih glasova jedno od najuočljivijih obilježja kod ove skupine, pa je zato i ova mjera korisna u procjeni.

Benšić i sur. (2021) navode kako se procjena kvalitete glasa od strane stručnjaka može znatno razlikovati od doživljaja same osobe o njezinom poremećaju glasa te je stoga jako

važno uzeti u obzir i samoprocjenu kvalitete glasa i kvalitete života povezane s glasom, a u tu svrhu koriste se brojni upitnici samoprocjene, kao što su Vocal Handicap Index – VHI (Jacobson i sur., 1997), Voice-Related Quality of Life – V-RQOL (Hogikyan i Sethuraman, 1999), Voice Symptom Scale – VoiSS (Deary, Wilson, Carding i MacKenzie, 2003), Voice Activity and Participation Profile – VAPP (Ma i Yiu, 2001). Navedeni upitnici mogu se koristiti za inicijalnu procjenu ili praćenje napretka u terapiji, a odluka o tome koji će se od upitnika upotrijebiti uglavnom ovisi o preferencijama stručnjaka (Benšić i sur., 2021). Schuering i sur. (2021) su predložili korištenje VHI upitnika za samoprocjenu kvalitete glasa osoba sa spastičnom disfonijom, no autori naglašavaju kako VHI ipak ne pokriva sve aspekte poremećaja glasa kod spastične disfonije te se stoga preporučuje validacija dodatnog upitnika koji bi uključivao pitanja specifična za ovaj poremećaj.

Benšić i sur. (2021) ističu kako je u daljnjim istraživanjima potrebno usmjeriti pozornost na utvrđivanje normativnih vrijednosti akustičkih parametara za procjenu glasa kod osoba sa spastičnom disfonijom i težiti otkrivanju mogućih leksičkih, kognitivnih i bihevioralnih čimbenika koji utječu na pojavu simptoma ovog poremećaja. Prepoznavanje tih čimbenika omogućuje planiranje individualizirane, pacijentu usmjerene terapije u mnogo širem komunikacijskom aspektu, što podrazumijeva usvajanje učinkovitih komunikacijskih strategija u različitim komunikacijskim kontekstima, ali i otvara potrebu za razvojem i prilagodbom mjernih instrumenata specifičnih za procjenu osoba sa spastičnom disfonijom.

7.3 Razlikovanje spastične disfonije i mišićne tenzijske disfonije

Mišićna tenzijska disfonija je funkcionalni poremećaj glasa karakteriziran hiperkontrakcijom odnosno prekomjernom napetosti unutarnjih i vanjskih laringealnih mišića (Chen i Ongkasuwan, 2018), uz pridružene hiperkinetičke obrasce vibracije glasnica i aktivaciju ventrikularnih nabora, što u konačnici dovodi do karakteristika glasa sličnima onima kod aduktorne spastične disfonije (Benšić i sur., 2022). Mišićna tenzijska disfonija može biti kompenzacijski mehanizam u slučaju spastične disfonije jer se osoba znatno napreže kako bi prevladala teškoće i proizvela glas (Chen i Ongkasuwan, 2018). Tako se kod osobe pored glavnih simptoma spastične disfonije mogu pojaviti i simptomi mišićne tenzijske

disfonije. Osim toga, navedeni poremećaji imaju slična perceptivna i akustička obilježja što često rezultira problemima pri diferencijalnoj dijagnostici (Benšić i sur., 2022). S obzirom na to da u kliničkoj praksi ne postoje objektivni dijagnostički kriteriji za razlikovanje spastične i mišićne tenzijske disfonije, diferencijalna dijagnostika može biti izrazito zahtjevna, čak i za vrlo iskusne kliničare (Roy, 2010). Iako se spastična disfonija lako može pomiješati s mišićnom tenzijskom disfonijom, postoje neke razlike između dvaju poremećaja. Kod aduktorne spastične disfonije učestalost i jačina glasovnih simptoma mogu varirati ovisno o vrsti vokalnog zadatka, npr. tijekom prolongirane fonacije vokala uočava se manje prekida i uložnog napora nego u povezanom govoru, dok su osobama s mišićnom tenzijskom disfonijom podjednako zahtjevni svi zadaci zbog konstantne hiperfunkcije laringealnih mišića (Roy, Mazin i Awan, 2014). Ludlow i sur. (2008) navode kako je kod mišićne tenzijske disfonije osobama podjednako teško ponavljanje rečenica koje naglašavaju prekide aduktornog odnosno abduktornog tipa te su simptomi podjednako izraženi na vokalima i bezvučnim konsonantima, a napetost je konzistentna u svim glasovima i ne ovisi o promjeni visine. Benšić i sur. (2022) navode četiri akustička parametra kojima se mogu odijeliti ova dva poremećaja, a to su trajanje riječi, trajanje rečenica, postotak prekida tijekom fonacije vokala /a/ i postotak prekida u riječi. Naime, pacijenti sa spastičnom disfonijom su imali statistički značajno veće vrijednosti svih navedenih varijabli što pokazuje da bi ti parametri mogli značiti u diferencijalnoj dijagnostici. Nadalje, osobe s mišićnom tenzijskom disfonijom dobro reagiraju na tradicionalnu bihevioralnu vokalnu terapiju, dok kod spastične disfonije to nije slučaj već se injekcijama botulinum toksina i drugim metodama može postići privremeno olakšanje simptoma (Samargia, Schmidt i Kimberley, 2014). Zato vrlo često dijagnoza jednog ili drugog poremećaja može biti potvrđena samo na temelju reakcije na odabrani tretman (Samargia i sur., 2016).

7.4 Razlikovanje spastične disfonije i vokalnog tremora

Približno jedna trećina pacijenata sa spastičnom disfonijom uz ovu dijagnozu ima i vokalni tremor, a zbog već spomenutog nedostatka objektivnih dijagnostičkih kriterija često dolazi do problema u diferencijalnoj dijagnostici (Guiry i sur., 2019). To može biti posebno otežano u slučajevima kad je stupanj tremora takav da izaziva prekide u fonaciji tijekom govora (Tanner i sur., 2012). Međunarodna udruga za spastičnu disfoniju izdvaja neka

obilježja koja razlikuju ova dva poremećaja (National Spasmodic Dysphonia Association, bez dat.). Naime, za razliku od spastične disfonije koju karakteriziraju nevoljne kontrakcije unutarnjih laringealnih mišića, vokalni tremor može zahvatiti i unutarnje i vanjske laringealne mišiće, a čak i dijafragmu, mišiće prsnog koša, abdomena, usta i grla. S obzirom na to da sve ove skupine mišića na neki način sudjeluju u govoru, tremor u bilo kojem od navedenih dijelova može utjecati na kvalitetu glasa te ga učiniti drhtavim. Kod spastične disfonije kontrakcije su obično nepravilne i ne pojavljuju se na svim vokalnim zadacima, dok su kod vokalnog tremora ritmične i prisutne tijekom svih vokalnih zadataka. Što se tiče tretmana, injekcije botulinum toksina su prvi izbor u terapiji spastične disfonije, no osobe s vokalnim tremorom isto mogu primijetiti poboljšanje u kvaliteti glasa nakon njihove primjene. Ipak, vokalni tremor ne reagira tako dobro na injekcije botulinum toksina kako spastična disfonija (Ludlow i sur., 2018).

8 TERAPIJA SPASTIČNE DISFONIJE

Tretman spastične disfonije znatno je evoluirao od vremena kad su se prvi put identificirali neurološki čimbenici ovog poremećaja do današnjeg dana. Znanstvenici su godinama provodili istraživanja s ciljem boljeg razumijevanja epidemiologije, patofiziologije i terapijskih metoda koje bi mogle poboljšati kvalitetu glasa kod osoba s ovim poremećajem (Murry, 2014). Terapijske mogućnosti za osobe sa spastičnom disfonijom u današnje vrijeme uključuju injekcije botulinum toksina u unutarnje laringealne mišiće, različite kirurške metode te vokalnu terapiju (Boone i sur., 2014).

8.1 Injekcije botulinum toksina

Prvo ubrizgavanje botulinum toksina u glasnice izvedeno je 1984. godine i od tog se vremena unošenje botulinum toksina pod vodstvom elektromiografije smatra zlatnim standardom u tretmanu aduktorne spastične disfonije (Kim, Park, Park i Lee, 2014). Njegovim unošenjem dolazi do relaksacije mišića i smanjenja prekomjerne adukcije glasnica (Esposito i sur., 2015), tj. postiže se privremena kemijska denervacija što rezultira „gladim“ govorom s manje prekida u glasu (Simpson, Lee, Hatcher i Michalek, 2016). Primarni izbor u tretmanu aduktorne spastične disfonije su injekcije botulinum toksina u tiroaritenoidni mišić, dok osobama s abduktornom spastičnom disfonijom mogu pomoći injekcije u posteriorni krikoaritenoidni mišić (Patel i sur., 2015). Simpson i sur. (2016) su pokazali da može biti učinkovito i supraglotičko unošenje botulinum toksina, što se odnosi na njegovo unošenje u lažne glasnice umjesto u tiroaritenoidni mišić. Naime, većini pacijenata se nakon takvog tretmana značajno poboljšao glas te nisu iskusili šumnost i pogoršanje glasa nakon primanja injekcije, što je inače uobičajeno. Takvi nedostaci će kasnije biti detaljnije opisani.

Injekcije botulinum toksina su najučinkovitije u slučaju aduktorne spastične disfonije, dok su kod pacijenata s abduktornim oblikom rezultati varijabilni (Chen i Ongkasuwan, 2018). Pokazalo se da 90% pacijenata s aduktornom spastičnom disfonijom dobije 90% benefita od tretmana, dok u slučaju abduktorne spastične disfonije samo 10% pacijenata dobije benefit od 70% (Whurr i Lorch, 2016). Česta nuspojava oslabljenih abduktornih mišića nakon primanja injekcije je šumnost u glasu i gubitak volumena zbog nepotpunog otvaranja

glotisa (Simpson i sur., 2016), dok denervacija abduktornih mišića dovodi do nedovoljnog otvaranja glotisa što rezultira stridorom i problemima s disanjem (Chen i Ongkasuwan, 2018). Unilateralno ubrizgavanje i promjene u doziranju mogu ublažiti nuspojave u oba slučaja (Chen i Ongkasuwan, 2018). Schuering i sur. (2020) spominju osnovne mane tretmana botulinum toksinom, uključujući period lošije kvalitete glasa nakon primanja injekcije, potrebu za ponavljanjem tretmana, posljedično financijsko opterećenje, često izostajanje s posla te putne troškove. Kako navode Paniello, Barlow i Serna (2008), nakon primanja injekcije botulinum toksina prvo slijedi faza u kojoj je glas šuman i lošije kvalitete, što čini otprilike jednu trećinu ciklusa. U središnjem dijelu pacijenti doživljavaju primjetnije poboljšanje i postižu optimalnu kvalitetu glasa, dok u zadnjoj trećini ciklusa opet dolazi do postupnog pada u kvaliteti glasa zbog slabljenja efekta botulinum toksina što dovodi do potrebe za ponavljanjem tretmana svaka tri do četiri mjeseca.

Standardna tehnika unošenja botulinum toksina u tiroaritenoidni mišić je ona pod nadzorom elektromiografije, iz razloga što se tom tehnikom dobiva povratna informacija o položaju igle unutar tiroaritenoidnog mišića u vidu akcijskog potencijala motoričke jedinice tijekom fonacije, no takva oprema nije dostupna svim otorinolaringološkim odjelima zbog iznimne skupoće pa se kao alternativa često bira unošenje botulinum toksina pod vodstvom fiberendoskopije (Kim i sur., 2014). Pozitivna strana ove tehnike je to što za njezino izvođenje nije potreban elektromiograf, moguće je vizualizirati glasnice tijekom postupka i dobiti potvrdu o položaju igle, no nedostatak je potreba za aplikacijom lokalnog anestetika u ždrijelo kako bi se olakšalo uvođenje fiberendoskopa što pacijentu može predstavljati nelagodu (Kim i sur., 2014). Odabir tehnike unošenja, osim o dostupnosti potrebne opreme, ovisi i o preferencijama ili uvježbanosti kirurga s obzirom na važnost posjedovanja znanja i iskustva u rukovanju takvim uređajima (Kim i sur., 2014).

Iako je tretman botulinum toksinom prihvaćen široko u svijetu, ne postoji standardizirani protokol s jasnim smjernicama, stoga on često varira među stručnjacima, a te varijacije se odnose na okruženje u kojemu se postupak izvodi, korišteni pristup, unilateralnu ili bilateralnu primjenu te početnu dozu botulinum toksina (Shoffel-Havakuk, Rosow, Lava, Hapner i Johns, 2019). Važno je individualno prilagoditi doziranje, lateralnost i učestalost primanja injekcija te ovisno o reakciji pacijenta i mogućim nuspojavama mijenjati prethodno navedene varijable kako bi se ostvario optimalan ishod (Shoffel-Havakuk, Rosow i sur., 2019).

Esposito i sur. (2015) su pratili učinkovitost injekcija botulinum toksina u tretmanu aduktorne spastične disfonije nakon svakog od četiriju uzastopnih tretmana. Pokazalo se da je došlo do poboljšanja u karakteristikama glasa nakon svakog tretmana što se moglo zaključiti na temelju povećanih vrijednosti maksimalnog vremena fonacije i omjera harmoničnog i šumnog dijela spektra, kao i smanjenja rezultata VHI upitnika. Osim toga, videolaringoskopija je pokazala odsutnost spazama kod većine pacijenata što potvrđuje korisnost primjene botulinum toksina u terapiji spastične disfonije.

Rezultati istraživanja Faham, Ahmadi, Silverman, Harouni i Dabirmoghaddam (2021) su pokazali da injekcije botulinum toksina imaju pozitivan utjecaj na kvalitetu života pacijenata s aduktornom spastičnom disfonijom, no te su promjene kratkoročne jer se osobama primanjem injekcije samo privremeno olakšaju simptomi, a učinak botulinum toksina nakon tri ili četiri mjeseca „izblijedi“.

Jedan od glavnih izazova u terapiji aduktorne spastične disfonije je optimizacija tretmana injekcijama botulinum toksina, zbog čega je neophodno koristiti instrumente koji pružaju povratne informacije o njegovoj djelotvornosti kako bi se tretman mogao prilagođavati ovisno o potrebama pacijenta (Shoffel-Havakuk, Marks, Morton, Johns i Hapner, 2019). Vodeći se time, Shoffel-Havakuk, Marks i sur. (2019) su predstavili OMNI-VES skalu – instrument za mjerenje uspješnosti tretmana botulinum toksinom kod aduktorne spastične disfonije. OMNI-VES je validirana skala koja se sastoji od jednog pitanja u slikovnom obliku, a koristi se za mjerenje percipiranog napora povezanog s upotrebom glasa. Pokazalo se da može detektirati poboljšanje glasa percipirano od strane pacijenta nakon tretmana, čak i onda kad drugi validirani instrumenti to ne uspiju, a može se koristiti i za evaluaciju odgovora na tretman botulinum toksinom.

8.2 Kirurške metode

Unatoč svim benefitima koje pružaju injekcije botulinum toksina, postoje i brojni nedostaci takvog tretmana zbog kojih se javila potreba za istraživanjem alternativnih metoda. Iako je potreba za lokalnom ili općom anestezijom manja kirurških metoda, one nude dugoročno poboljšanje glasa (ovisno o vještinama kirurga i reakciji pacijenta na tretman) u usporedbi s injekcijama botulinum toksina koje je potrebno primati svaka 3 do 4 mjeseca (Murry, 2014). Opisano je više kirurških metoda koje se mogu koristiti u tretmanu spastične disfonije, no većina novije literature govori o dva najčešće izvođena postupka, a to su tiroplastika tipa II i tiroaritenoidna miektomija (Schuering i sur., 2020).

8.2.1 Tiroplastika tipa II

Tiroplastika tipa II je kirurški postupak tijekom kojega se tiroidna hrskavica razdvaja po središnjoj liniji, a zatim fiksira na način da se između glasnica na razini njihove prednje komisure ugradi silikonski umetak ili titanski most čime se blago povećava njihov razmak i smanjuje pretjerano zatvaranje glotisa, što ublažava simptome aduktorne spastične disfonije (Schuering i sur., 2020). Ovaj postupak se može izvoditi pod lokalnom anestezijom kako bi se promjene u glasu mogle pratiti već tijekom same procedure (Sanuki, Yumoto, Kodama, Minoda i Kumai, 2014). Prednost tiroplastike tipa II je to što nije invazivna za glasnice, a postupak je reverzibilan, što znači da je u slučaju nezadovoljstva pacijenta postoperativnim glasom moguće ukloniti titanski most i vratiti glas u prvobitno stanje (Nomoto i sur., 2015).

Sanuki i Yumoto (2017) su koristeći validirane upitnike, uključujući VHI-10, proveli istraživanje s ciljem procjenjivanja dugoročnih ishoda vezanih uz kvalitetu glasa i života osoba s aduktornom spastičnom disfonijom nakon tiroplastike tipa II. Rezultati su pokazali da je nakon kirurškog zahvata došlo do dugoročnog poboljšanja glasa, ali i percepcije pacijenata o njihovim teškoćama, što upućuje na to da je tiroplastika tipa II učinkovita kirurška metoda koja može pružiti dugoročno olakšanje simptoma aduktorne spastične disfonije. Slične su rezultate nekoliko godina prije dobili Sanuki i sur. (2014), koji su osim analiziranja percepcije pacijenata pomoću VHI-10 upitnika koristili i akustičku analizu. Također se pokazalo da je nakon izvođenja tiroplastike tipa II došlo do značajnog poboljšanja kvalitete života povezane

s glasom, ali i poboljšanja akustičkih parametara glasa, što isto upućuje na dugoročne pozitivne ishode ovakve vrste tretmana.

8.2.2 Tiroaritenoidna miektomija

U odnosu na tiroplastiku tipa II za koju se koristi perkutani pristup, tiroaritenoidna miektomija uključuje oralno uvođenje laringoskopa pod općom anestezijom i nije reverzibilna (Nomoto i sur., 2015). Naime, ovakav zahvat podrazumijeva resekciju većeg dijela tiroaritenoidnog mišića, uklanjanje terminalnih dijelova živaca i neuromuskularne spojnice, čime se nastoji spriječiti regeneracija mišića te se potencijalno postižu dugoročni rezultati (Schuering i sur., 2020).

Gandhi, Remacle, Mishra i Desai (2014) su proveli istraživanje u kojem su koristeći GRBAS i VHI procjenjivali ishod tiroaritenoidne miektomije kod osoba s aduktornom spastičnom disfonijom. Pacijenti su procjenjivani na kontrolama 12, 24 i 48 mjeseci nakon operativnog zahvata. Rezultati su pokazali značajan napredak u kvaliteti glasa nakon tiroaritenoidne miektomije u vidu smanjenja prekida, napetosti i napora potrebnog za proizvodnju glasa. Bitno je istaknuti da je većina pacijenata imala promukao glas u kraćem razdoblju neposredno nakon operativnog zahvata, što bi se moglo pripisati blagim endolaringealnim edemima ili prolaznoj neurološkoj disfunkciji, no stanje se postupno poboljšavalo. Autori zaključuju kako je tiroaritenoidna miektomija kirurški postupak s dugoročnim pozitivnim rezultatima i da kao takva može biti dobra alternativa injekcijama botulinum toksina.

Nomoto i sur. (2015) su uspoređivali učinak tiroplastike tipa II i tiroaritenoidne miektomije. Pokazalo se da su obje metode učinkovite i korisne u tretmanu aduktorne spastične disfonije u vidu dobrih rezultata VHI-10 upitnika te parametara strangulacije, prekida, tremora, šumnosti i generalnog stupnja promuklosti. Ipak, pokazalo se da je tiroaritenoidna miektomija učinkovitija gledajući na prethodno navedene parametre, pogotovo u težim slučajevima aduktorne spastične disfonije, iz razloga što se takvim operativnim zahvatom izravno djeluje na uzrok problema, tj. uklanja se tiroaritenoidni mišić. S druge strane, veća je vjerojatnost da će se nakon tiroaritenoidne miektomije kao postoperativna komplikacija povećati šumnost u glasu. Zato autori naglašavaju kako je prilikom odlučivanja

između ove dvije vrste operativnog zahvata iznimno važno pružiti pacijentu detaljne informacije o jednoj i drugoj metodi te svim njihovim prednostima i nedostacima.

Schuering i sur. (2020) su u svom istraživanju uspoređivali dugoročne rezultate tiroaritenoidne miektomije i tretmana botulinum toksinom iz perspektive pacijenata s aduktornom spastičnom disfonijom koji su prošli obje vrste tretmana. Pokazalo se da su kod 55% pacijenata nakon tiroaritenoidne miektomije postignuti stabilni dugoročni rezultati, jednaki kao nakon tretmana botulinum toksinom, dok je kod 45% pacijenata nakon prvotno dobrih rezultata došlo do pogoršanja glasa, što je dovelo do potrebe za ponavljanjem operativnog zahvata. Rezultati ovog istraživanja daju uvid u vrijednost tiroaritenoidne miektomije kao potencijalnog tretmana aduktorne spastične disfonije, no autori naglašavaju kako su potrebna nova istraživanja koja bi trebala ispitati dugoročne ishode nakon ponovljenog operativnog zahvata.

8.3 Vokalna terapija

Vokalna terapija kod spastične disfonije sama po sebi ne daje dovoljan učinak (Nomoto i sur., 2015), no često se koristi kao pomoćni tretman u rješavanju neprikladne kompenzacijske mišićne aktivnosti ili mogućih koegzistirajućih poremećaja kao što je mišićna tenzijska disfonija, a provodi se od strane logopeda koji imaju ključnu ulogu u procesu dijagnostike i terapije poremećaja glasa općenito, pa tako i u slučaju spastične disfonije (Chen i Ongkasuwan, 2018).

Bihevioralni pristupi u terapiji aduktorne spastične disfonije nastoje poboljšati kvalitetu proizvedenog glasa sustavnim promjenama u načinu kako pojedinac koristi svoj glas (Pearson i Sapienza, 2003), a razvili su se na temelju često uočenog poboljšanja glasa tijekom specifičnih voljnih ponašanja, kao što su šaptanje, kašljanje i pročišćavanje grla, pjevanje, pjevušenje te promjene u visini tona (Bloch, Hirano i Gould, 1985). Prije nego što su se pojavili farmakološki i kirurški pristupi, bihevioralne metode su bile preliminarni način kako tretirati simptome spastične disfonije (Pearson i Sapienza, 2003). Iako se specifične terapijske aktivnosti razlikuju od klinike do klinike, uglavnom su usmjerene na prepoznavanje i usvajanje prirodne visine i opsega glasa, fokusiranje „unaprijed“ na proizvodnju glasa, poboljšanje govornog disanja te prijenos naučenih ponašanja u spontani govor (Pearson i Sapienza, 2003). Heuer (1992) navodi kako se bihevioralnim tehnikama pokušavaju promijeniti respiracijske, laringealne i rezonancijske navike s ciljem efikasnije upotrebe vokalnog mehanizma te proizvodnje kvalitetnijeg glasa, što zahtijeva motivaciju i disciplinu od strane pacijenta. Neke od tehnika koje spominje uključuju vježbe za poboljšanje govornog disanja, povećanje protoka zraka tijekom govora, meki početak fonacije, promjenu visine glasa, smanjivanje glasnoće i dahtavi glas. Harrison, Davis, Troughear i Winkworth (1992) opisuju slučaj pacijenta s aduktornom spastičnom disfonijom koji je šest godina koristio tehniku inhalacijske fonacije s ciljem prevladavanja komunikacijskih teškoća vezanih uz poremećaj. Ova tehnika je utemeljena na teoriji kako proces inspiracije (koji uključuje abdukciju glasnica uz aktivaciju inspiracijskih mišića) izravno suzbija djelovanje aduktornih mišića sklonih spazmu čime se postiže „nježnije“ približavanje glasnica. Pokazalo se da je kvaliteta tako proizvedenog glasa bila kvantitativno i perceptivno loša, no zbog poboljšane tečnosti i odsutnosti spazama to je bio preferirani način govora i za govornika i za slušatelje. S obzirom na to da se ovdje radilo o samo jednom pacijentu, autori napominju kako nije sigurno

može li se ova tehnika primijeniti u terapiji kod ostalih pacijenata sa spastičnom disfonijom. Također ističu kako bi pacijentima s izraženom distonijom ili koegzistirajućim vokalnim tremorom moglo biti teško naučiti novo motoričko govorno ponašanje potrebno za izvođenje spomenute tehnike. Roy, Ford i Bless (1996) su kod pacijentice s aduktornom spastičnom disfonijom primijenili tehniku manualnog smanjivanja napetosti laringealne muskulature. Prekomjerna mišićna napetost se može utvrditi palpacijom suprahoidne muskulature na temelju prisutnosti žarišnih bolnih točaka ili čvorova, određivanjem veličine tirohoidnog prostora te praćenjem promjena u glasu prilikom manualnog spuštanja grkljana preko gornjeg ruba ploče tiroidne hrskavice i cirkumlaringealne masaže. Anteriorno-posteriornim pritiskom grkljana preko donjeg ruba hioidne kosti smanjuje se pretjerana napetost, a time i stisnutost glasnica. Cirkumlaringealnom masažom se kružnim pokretima vrši pritisak preko vrhova hioidne kosti i unutar tirohoidnog prostora, a postupak se ponavlja preko stražnjih rubova tiroidne hrskavice i grkljan se lagano povlači prema dolje (povremeno se pomiče i lateralno). Čitava procedura započinje površinski, a dubina masaže se povećava ovisno o stupnju napetosti i toleranciji pacijenta. Tijekom prethodno navedenih postupaka od pacijenta se traži da produljeno fonira vokale kako bi kliničar mogao pratiti promjene u kvaliteti glasa. Smanjivanje boli i snižavanje grkljana, kao i poboljšanje kvalitete glasa, upućuju na popuštanje napetosti u laringealnom području. Čim se postigne glas dobre kvalitete, on se oblikuje od vokala pa sve do riječi, fraza i rečenica, a zatim i spontanog govora. Roy i sur. (1996) navode kako osobe sa spastičnom disfonijom mogu ostvariti kratkoročno poboljšanje uz pomoć manualnih tehnika, no oporavak nije potpun i teško je održati postignuto stanje. Pacijentica kod koje su proveli prethodno opisane postupke imala je samo umjereno i prolazno poboljšanje glasa koje se nije moglo stabilizirati i generalizirati, dok je nakon injekcija botulinum toksina postigla dojmrljive rezultate. Case (2002), prema Boone i sur. (2014), također govori o slabim rezultatima tradicionalne vokalne terapije kod pacijenata sa spastičnom disfonijom te navodi kako se kod nekih mogao primjetiti gotovo neznatan napredak tijekom proizvodnje manjih govornih jedinica, poput jednosložnih iskaza, ali rijetko u spontanom govoru.

Međunarodna udruga za spastičnu disfoniju govori o načinima na koje logoped može pomoći osobama sa spastičnom disfonijom provođenjem vokalne terapije (National Spasmodic Dysphonia Association, bez dat.). Navode kako vokalna terapija uključuje učenje osobe o tome kako da promijeni svoj način fonacije. U slučaju aduktorne spastične disfonije logoped može naučiti pacijenta strategijama efikasnijeg korištenja zračne struje prilikom

fonacije ili metodama za smanjivanje prekomjerne napetosti, dok se pacijenta s abduktornom spastičnom disfonijom može naučiti kako da supstituira bezvučne glasove zvučnima ili artikulira glasove na određene načine kako bi mu se olakšao govor. Ipak, opet se naglašava to da je vokalna terapija samo pomoćni dodatak ostalim vrstama tretmana koji se primarno koriste u terapiji spastične disfonije.

Pitanje učinkovitosti vokalne terapije kod spastične disfonije je kontroverzno, no u literaturi se mogu naći podaci o uspješnosti vokalne terapije u smislu smanjivanja kompenzacijskih vokalnih ponašanja kod osoba s ranim i blažim simptomima spastične disfonije ili kombiniranju vokalne terapije s injekcijama botulinum toksina (Kodama, Sanuki, Miyamoto i Tashiro, 2024). Murry i Woodson (1995) su uspoređivali ishode tretmana aduktorne spastične disfonije između skupine pacijenata koja je primala samo injekcije botulinum toksina i skupine kod koje je uz to provedena vokalna terapija. Pristupi korišteni u sklopu vokalne terapije bili su usmjereni na meki početak fonacije, kontinuirani protok zraka tijekom fonacije i smanjenje napora tijekom artikulacije. Rezultati su pokazali da kombinirana terapija pruža dugoročno bolje ishode te da se kod te skupine pacijenata povećao interval između primanja dviju doza botulinum toksina. Autori su preporučili korištenje vokalne terapije u tretmanu aduktorne spastične disfonije kod pacijenata koji nemaju mnogo prekida u glasu, ali su nakon primanja injekcije botulinum toksina razvili hiperfunkciju glasa. Potaknuti Murryjev i Woodsonovim radom, slično su istraživanje proveli Silverman, Garvan, Shrivastav i Sapienza (2012). Naime, oni su pokušali ispitati učinak vokalne terapije provedene nakon primanja injekcije botulinum toksina kod osoba s aduktornom spastičnom disfonijom, analizirajući perceptivne i akustičke varijable, kao i varijable vezane uz trajanje učinka terapije i kvalitetu života. Vokalna terapija je bila usmjerena na minimiziranje vokalne hiperfunkcije kroz edukaciju o pravilnoj upotrebi glasa, relaksaciju, laringealnu masažu, vježbe za meki početak fonacije te odgovarajuće zadatke koji pospješuju generalizaciju naučenih vokalnih ponašanja u svakodnevni govor, a provodili su je logopedi iskusni u tretmanu aduktorne spastične disfonije. Pretpostavljalo se da će pacijenti koji su primili injekciju botulinum toksina, a zatim i vokalnu terapiju, postići značajno bolje rezultate na prethodno navedenim varijablama od pacijenata kojima nije pružena i vokalna terapija. Ipak, pokazalo se da vokalna terapija nije značajno utjecala ni na jednu varijablu istraživanja, odnosno nije bilo razlike u ishodu tretmana kod pacijenata koji su primili samo injekciju botulinum toksina i onih kojima je pružena kombinirana terapija, što se razlikuje od podataka koje su dobili Murry i Woodson (1995). Kodama i sur. (2024) su proučavali učinak vokalne

terapije u tretmanu mišićne tenzijske disfonije i spastične disfonije te ih međusobno usporedili. Provedena je objektivna i perceptivna procjena glasa prije vokalne terapije i poslije, a rezultati su pokazali kako je vrijednost različitih parametara (maksimalno vrijeme fonacije, strangulacija, prekidi, koeficijent perturbacije amplitude, omjer šumnog i harmoničnog dijela spektra) i VHI-10 upitnika bila značajno bolja kod skupine pacijenata s mišićnom tenzijskom disfonijom. S druge strane, učinak vokalne terapije na aduktornu spastičnu disfoniju bio je vrlo slab te nije došlo do poboljšanja u vidu smanjenja spazama i pretjerane adukcije.

Boone i sur. (2014) govore o svom iskustvu u terapiji spastične disfonije tijekom čitave karijere i naglašavaju kako je u većini slučajeva napredak postignut vokalnom terapijom u klinici bio samo prividan i kratkoročan te nije došlo do značajnog poboljšanja ili generalizacije naučenih vještina u svakodnevnom životu izvan klinike. S druge strane, pacijenti koji su dobro reagirali na vokalnu terapiju najčešće su zapravo imali mišićnu tenzijsku disfoniju koja se zbog sličnosti lako pomiješa sa spastičnom disfonijom. Autori također ističu važnost detaljne logopedске procjene s ciljem praćenja ishoda tretmana, kao i mogućnost kombiniranja vokalne terapije s farmakološkim (injekcije botulinum toksina) i kirurškim pristupima, prije i poslije intervencije.

9 UTJECAJ SPASTIČNE DISFONIJE NA SVAKODNEVNI ŽIVOT

Poremećaji glasa često nepovoljno utječu na kvalitetu života pojedinca i to obuhvaća različite domene, kao što je obavljanje fizičkih aktivnosti, socijalne interakcije, emocionalno stanje osobe te sposobnost ispunjavanja radnih obaveza (Watts i Vanryckeghem, 2017). Poremećaji glasa često su iscrpljujući jer ometaju osnovnu komunikaciju (White i sur., 2012), a zbog narušenog vokalnog mehanizma osoba s poremećajem glasa može naići na brojne društvene prepreke (Isetti i Meyer, 2014). Dobre komunikacijske vještine postale su ključne odrednice mogućnosti zapošljavanja u modernom dobu (Meyer, Hu i Hillel, 2013). Iako se poremećaji glasa uglavnom ne smatraju opasnim po život i najčešće se povezuju s normalnim funkcioniranjem, oni mogu značajno utjecati na svakodnevnu privatnu i poslovnu komunikaciju, pronalaženje i zadržavanje posla te izgradnju karijere (Smith i sur., 1998).

Spastična disfonija je kronično stanje koje ometa svakodnevnu komunikaciju i često rezultira socijalnom izolacijom te znatno utječe i na funkcioniranje pojedinca u poslovnom svijetu (Patel i sur., 2015). Liu i sur. (1998) su proučavali emocionalno stanje i kvalitetu života osoba sa spastičnom disfonijom. Rezultati istraživanja su pokazali da je kvaliteta njihovog života bila znatno manje zadovoljavajuća u odnosu na kontrolnu skupinu te da su imali više simptoma anksioznosti, depresije i somatizacije nego ispitanici iz kontrolne skupine. Baylor, Yorkston i Eadie (2005) su proveli kvalitativno istraživanje kako bi opisali biopsihosocijalne posljedice spastične disfonije iz perspektive osoba koje žive s ovim poremećajem. Rezultati su pokazali da posljedice spastične disfonije uključuju mnogo više od same promjene u karakteristikama glasa. Osobe su navele kako zbog narušene kvalitete glasa osjećaju sram i frustraciju, kao i tugu zbog nemogućnosti sudjelovanja u nekim aktivnostima koje su prije radile. Poremećaj glasa im je znatno narušio kvalitetu interakcije s drugim osobama te često doveo do izbjegavanja socijalnih situacija. Zbog nemogućnosti kontrole vlastite glasnoće teško prilagođavaju svoj govor bučnoj okolini što im otežava komunikaciju na takvim mjestima (automobili, prometne ulice, restorani, veliki poslovni prostori, sportski događaji i slično). Posljedica navedenog je često izbjegavanje govora zbog nemogućnosti predviđanja kvalitete glasa i straha da će ostati posramljeni. Također navode kako su ih problemi s glasom doveli do napuštanja poslova koje bi inače nastavili raditi ili odustajanja od potrage za novom karijerom. White i sur. (2012) navode kako osobe sa spastičnom disfonijom (ali i ostalim poremećajima glasa) imaju veću vjerojatnost pojave depresije i anksioznosti u

odnosu na opću populaciju. Pacijenti kojima nisu lako dostupne zdravstvene usluge mogu iskusiti frustraciju zbog nemogućnosti dobivanja adekvatne dijagnoze ili terapijskog plana (Johnson, Hapner, Klein, Pethan i Johns, 2014). Osobe sa spastičnom disfonijom navode kako nerijetko doživljavaju negativne emocionalne reakcije te poteškoće u govoru u određenim situacijama, kao što su razgovor preko telefona ili sa strancem, izgovaranje vlastitog imena ili glasova i riječi koje su prethodno bile problematične (Vanryckeghem i Ruddy, 2015). Watts i Vanryckeghem (2017) su proveli istraživanje u kojem su ispitali samopercepciju osoba sa spastičnom disfonijom vezano uz njihove emocionalne, bihevioralne i kognitivne reakcije tijekom komunikacije. Rezultati upućuju na to kako su pacijenti često anksiozni i doživljavaju probleme s glasom u specifičnim situacijama, zbog čega imaju negativno mišljenje o kvaliteti vlastitog glasa te koriste različite strategije kako bi pokušali prevladati te probleme. Osobe sa spastičnom disfonijom nerijetko pribjegavaju različitim izbjegavajućim ponašanjima kako bi prevladale fizičke manifestacije poremećaja, a neka od najučestalijih su izbjegavanje kontakta očima, gledanje u drugu stranu, pretvaranje da razmišljaju o odgovoru te supstitucija neke riječi drugom (Vanryckeghem i Ruddy, 2015).

Spastična disfonija ima znatan utjecaj na kvalitetu života pojedinca te produktivnost na radnom mjestu (Whurr i Lorch, 2016). Izdebski, Dedo i Boles (1984) su proveli istraživanje u kojem su pacijentima sa spastičnom disfonijom podijelili upitnike koji su između ostalog obuhvaćali i pitanja vezana uz utjecaj spastične disfonije na profesionalni život. Osim što je poremećaj glasa izazivao frustraciju u socijalnim odnosima, ozbiljno je utjecao na izvedbu na poslu. Neki su pacijenti čak naveli da su bili primorani promijeniti posao ili se premjestiti na nižu poziciju unutar poduzeća, što obično dovodi do financijskih gubitaka te negativno utječe na emocionalno stanje. U istraživanju Meyer i sur. (2013) pacijenti navode kako vokalne teškoće izazvane spastičnom disfonijom imaju značajan negativan utjecaj na produktivnost njihovog rada. Isetti i Meyer (2014) su proveli istraživanje prezentizma kod osoba sa spastičnom disfonijom. Ovaj termin se odnosi na smanjenu količinu i kvalitetu rada zbog odlaska na posao tijekom bolesti. Osobe u tom slučaju mogu biti fizički prisutne na radnom mjestu, no njihovo je funkcioniranje ograničeno zbog simptoma bolesti. Tako osobe s poremećajem glasa mogu biti uspješne u zadržavanju svog posla, ali kvaliteta njihovog glasa te napor koji govorenje zahtijeva često nepovoljno utječu na radnu učinkovitost. Ovo istraživanje je pokazalo da je osobama sa spastičnom disfonijom poremećaj glasa negativno utjecao na količinu i kvalitetu obavljenog posla, ali potrebne su nove ljestvice za procjenu kako bi se utvrdio točan mehanizam utjecaja.

Spastična disfonija pripada grupi neurogenih poremećaja glasa, relativno je rijetka, a proizlazi iz laringealne distonije – stanja koje obilježavaju abnormalni nevoljni pokreti ili položaji uzrokovani dugotrajnim ili povremenim mišićnim kontrakcijama. Tako se kod spastične disfonije za vrijeme govora javljaju nevoljne kontrakcije laringealnih mišića koje ovisno o vrsti zahvaćenih mišića određuju oblik spastične disfonije (aduktorni ili abduktorni) i specifične simptome. Bitno je naglasiti kako je spastična disfonija vrsta distonije vezane uz specifičan zadatak, u ovom slučaju govor, pa su funkcije poput gutanja i disanja očuvane. Pregledom literature može se uočiti kako se kroz povijest mijenjalo shvaćanje etiologije i patofiziologije ovog poremećaja, a samim time su se uvodili i različiti terapijski pristupi. Zahvaljujući znanstvenom napretku i razvoju različitih tehnika oslikavanja mozga, počele su se napuštati teorije o psihogenom podrijetlu spastične disfonije, a krenulo se u smjeru istraživanja neuroloških mehanizama u pozadini ovog poremećaja. Iako točna etiologija spastične disfonije još uvijek nije u potpunosti razjašnjena, većina istraživanja upućuje na multifaktorsku etiologiju odnosno međudjelovanje neuroloških, genetskih i okolinskih čimbenika. Veliki problem u dijagnostici spastične disfonije predstavlja nedostatak jasno definiranih dijagnostičkih kriterija zbog čega se dijagnoza često temelji na individualnoj interpretaciji svakog stručnjaka što rezultira dugotrajnim čekanjem dijagnoze, a nerijetko i pogrešnim dijagnosticiranjem sličnih poremećaja. U terapiji spastične disfonije najčešće se koriste injekcije botulinum toksina, no sve se više istražuju alternativne mogućnosti poput različitih kirurških metoda, dok se tradicionalna vokalna terapija uglavnom provodi u kombinaciji s drugim tretmanima jer sama po sebi nema značajnog učinka.

Opisana problematika ukazuje na potrebu za novim istraživanjima koja bi se trebala usmjeriti na razvoj objektivnih dijagnostičkih kriterija i standardizaciju protokola, što najprije zahtijeva detaljno poznavanje simptomatologije spastične disfonije, ali i njoj sličnih poremećaja. Također treba naglasiti važnost interdisciplinarnе suradnje u procesu dijagnostike i donošenja odluke o terapiji, a sve to kako bi se pacijentu pružio odgovarajući tretman u skladu s njegovim potrebama, uz minimiziranje negativnog utjecaja spastične disfonije na svakodnevno funkcioniranje u privatnom i poslovnom svijetu.

LITERATURA

Aronson, A. E., Brown, J. R., Litin, E. M. i Pearson, J. S. (1968). Spastic dysphonia. I. Voice, neurologic, and psychiatric aspects. *The Journal of speech and hearing disorders*, 33(3), 203–218. <https://doi.org/10.1044/jshd.3303.203>

Balint, B. i Bhatia, K. P. (2015). Isolated and combined dystonia syndromes - an update on new genes and their phenotypes. *European journal of neurology*, 22(4), 610–617. <https://doi.org/10.1111/ene.12650>

Balint, B., Mencacci, N. E., Valente, E. M., Pisani, A., Rothwell, J., Jankovic, J., Vidailhet, M. i Bhatia, K. P. (2018). Dystonia. *Nature reviews. Disease primers*, 4(1), 1–23. <https://doi.org/10.1038/s41572-018-0023-6>

Battistella, G., Fuertinger, S., Fleysher, L., Ozelius, L. J. i Simonyan, K. (2016). Cortical sensorimotor alterations classify clinical phenotype and putative genotype of spasmodic dysphonia. *European journal of neurology*, 23(10), 1517–1527. <https://doi.org/10.1111/ene.13067>

Baylor, C. R., Yorkston, K. M. i Eadie, T. L. (2005). The consequences of spasmodic dysphonia on communication-related quality of life: a qualitative study of the insider's experiences. *Journal of communication disorders*, 38(5), 395–419. <https://doi.org/10.1016%2Fj.jcomdis.2005.03.003>

Benšić, A., Arlović, M., Orlić, P. i Maržić, D. (2022). Važnost akustičke analize u diferencijalnoj dijagnostici aduktorne spastične i mišićne tenzijske disfonije uz fiberoptičku videolaringoskopiju. *Liječnički vjesnik*, 144 (1-2), 32-38. <https://doi.org/10.26800/LV-144-1-2-3>

Benšić, A., Čulina, M. i Maržić, D. (2021). Logopedska procjena kvalitete glasa osoba sa spastičnom disfonijom. *Logopedija*, 11 (2), 37-43. <https://doi.org/10.31299/log.11.2.1>

Bianchi, S., Battistella, G., Huddleston, H., Scharf, R., Fleysher, L., Rumbach, A. F., Frucht, S. J., Blitzer, A., Ozelius, L. J. i Simonyan, K. (2017). Phenotype- and genotype-specific structural alterations in spasmodic dysphonia. *Movement disorders : official journal of the Movement Disorder Society*, 32(4), 560–568. <https://doi.org/10.1002/mds.26920>

- Blitzer, A., Brin, M. F., Fahn, S. i Lovelace, R. E. (1988). Clinical and laboratory characteristics of focal laryngeal dystonia: study of 110 cases. *The Laryngoscope*, 98(6 Pt 1), 636–640. <https://doi.org/10.1288/00005537-198806000-00012>
- Blitzer, A., Brin, M. F. i Stewart, C. F. (1998). Botulinum toxin management of spasmodic dysphonia (laryngeal dystonia): a 12-year experience in more than 900 patients. *The Laryngoscope*, 108(10), 1435–1441. <https://doi.org/10.1097/00005537-199810000-00003>
- Blitzer, A., Lovelace, R. E., Brin, M. F., Fahn, S. i Fink, M. E. (1985). Electromyographic findings in focal laryngeal dystonia (spastic dysphonia). *The Annals of otology, rhinology, and laryngology*, 94(6 Pt 1), 591–594. <https://doi.org/10.1177/000348948509400614>
- Bloch, C. S., Hirano, M. i Gould, W. J. (1985). Symptom improvement of spastic dysphonia in response to phonatory tasks. *The Annals of otology, rhinology, and laryngology*, 94(1 Pt 1), 51–54. <https://doi.org/10.1177/000348948509400111>
- Boone, D., McFarlane, S., Von Berg, S. i Zraick, R. (2014). *The voice and voice therapy* (9th ed.). Pearson Education.
- Cannito, M. P., Doiuchi, M., Murry, T. i Woodson, G. E. (2012). Perceptual structure of adductor spasmodic dysphonia and its acoustic correlates. *Journal of voice : official journal of the Voice Foundation*, 26(6), 818.e5–818.e13. <https://doi.org/10.1016/j.jvoice.2012.05.005>
- Case, J. L. (2002). *Clinical management of voice disorders* (4th ed.). Austin: Pro-Ed.
- Castelon Konkiewitz, E., Trender-Gerhard, I., Kamm, C., Warner, T., Ben-Shlomo, Y., Gasser, T., Conrad, B. i Ceballos-Baumann, A. O. (2002). Service-based survey of dystonia in Munich. *Neuroepidemiology*, 21(4), 202–206. <https://doi.org/10.1159/000059525>
- Chen, D. W. i Ongkasuwan, J. (2018). Spasmodic Dysphonia. *International ophthalmology clinics*, 58(1), 77–87. <https://doi.org/10.1097/iao.0000000000000202>
- Chen, M., Summers, R. L. S., Prudente, C. N., Goding, G. S., Samargia-Grivette, S., Ludlow, C. L. i Kimberley, T. J. (2020). Transcranial magnetic stimulation and functional magnet resonance imaging evaluation of adductor spasmodic dysphonia during phonation. *Brain stimulation*, 13(3), 908–915. <https://doi.org/10.1016/j.brs.2020.03.003>

- Childs, L., Rickert, S., Murry, T., Blitzer, A. i Sulica, L. (2011). Patient perceptions of factors leading to spasmodic dysphonia: a combined clinical experience of 350 patients. *The Laryngoscope*, 121(10), 2195–2198. <https://doi.org/10.1002/lary.22168>
- Creighton, F. X., Hapner, E., Klein, A., Rosen, A., Jinnah, H. A. i Johns, M. M. (2015). Diagnostic Delays in Spasmodic Dysphonia: A Call for Clinician Education. *Journal of voice : official journal of the Voice Foundation*, 29(5), 592–594. <https://doi.org/10.1016/j.jvoice.2013.10.022>
- Daraei, P., Villari, C. R., Rubin, A. D., Hillel, A. T., Hapner, E. R., Klein, A. M. i Johns, M. M., 3rd (2014). The role of laryngoscopy in the diagnosis of spasmodic dysphonia. *JAMA otolaryngology-- head & neck surgery*, 140(3), 228–232. <https://doi.org/10.1001/jamaoto.2013.6450>
- Davis, P. J., Boone, D. R., Carroll, R. L., Darveniza, P. i Harrison, G. A. (1988). Adductor spastic dysphonia: heterogeneity of physiologic and phonatory characteristics. *The Annals of otology, rhinology, and laryngology*, 97(2 Pt 1), 179–185. <https://doi.org/10.1177/000348948809700216>
- Deary, I. J., Wilson, J. A., Carding, P. N. i MacKenzie, K. (2003). VoiSS: a patient-derived Voice Symptom Scale. *Journal of psychosomatic research*, 54(5), 483–489. [https://doi.org/10.1016/s0022-3999\(02\)00469-5](https://doi.org/10.1016/s0022-3999(02)00469-5)
- Dedo H. H. (1976). Recurrent laryngeal nerve section for spastic dysphonia. *The Annals of otology, rhinology, and laryngology*, 85(4 Pt 1), 451–459. <https://doi.org/10.1177/000348947608500405>
- De Gusmão, C. M., Fuchs, T., Moses, A., Mulhaupt-Buell, T., Song, P. C., Ozelius, L. J., Franco, R. A. i Sharma, N. (2016). Dystonia-Causing Mutations as a Contribution to the Etiology of Spasmodic Dysphonia. *Otolaryngology--head and neck surgery : official journal of American Academy of Otolaryngology-Head and Neck Surgery*, 155(4), 624–628. <https://doi.org/10.1177/0194599816648293>
- De Lima Xavier, L. i Simonyan, K. (2019). The extrinsic risk and its association with neural alterations in spasmodic dysphonia. *Parkinsonism & related disorders*, 65, 117–123. <https://doi.org/10.1016/j.parkreldis.2019.05.034>

Edgar, J. D., Sapienza, C. M., Bidus, K. i Ludlow, C. L. (2001). Acoustic measures of symptoms in abductor spasmodic dysphonia. *Journal of voice : official journal of the Voice Foundation*, 15(3), 362–372. [https://doi.org/10.1016/s0892-1997\(01\)00038-8](https://doi.org/10.1016/s0892-1997(01)00038-8)

Esposito, M., Dubbioso, R., Apisa, P., Allocca, R., Santoro, L. i Cesari, U. (2015). Spasmodic dysphonia follow-up with videolaryngoscopy and voice spectrography during treatment with botulinum toxin. *Neurological sciences : official journal of the Italian Neurological Society and of the Italian Society of Clinical Neurophysiology*, 36(9), 1679–1682. <https://doi.org/10.1007/s10072-015-2239-5>

Faham, M., Ahmadi, A., Silverman, E., Harouni, G. G. i Dabirmoghaddam, P. (2021). Quality of Life After Botulinum Toxin Injection in Patients With Adductor Spasmodic Dysphonia; a Systematic Review and Meta-analysis. *Journal of voice : official journal of the Voice Foundation*, 35(2), 271–283. <https://doi.org/10.1016/j.jvoice.2019.07.025>

Fahn, S., Bressman, S. B. i Marsden, C. D. (1998). Classification of dystonia. *Advances in neurology*, 78, 1–10.

Gandhi, S., Remacle, M., Mishra, P. i Desai, V. (2014). Vocal outcome after endoscopic thyroarytenoid myoneurectomy in patients with adductor spasmodic dysphonia. *European archives of oto-rhino-laryngology : official journal of the European Federation of Oto-Rhino-Laryngological Societies (EUFOS) : affiliated with the German Society for Oto-Rhino-Laryngology - Head and Neck Surgery*, 271(12), 3249–3254. <https://doi.org/10.1007/s00405-014-3129-9>

Guiry, S., Worthley, A. i Simonyan, K. (2019). A separation of innate and learned vocal behaviors defines the symptomatology of spasmodic dysphonia. *The Laryngoscope*, 129(7), 1627–1633. <https://doi.org/10.1002/lary.27617>

Harrison, G. A., Davis, P. J., Troughear, R. H. i Winkworth, A. L. (1992). Inspiratory speech as a management option for spastic dysphonia. Case study. *The Annals of otology, rhinology, and laryngology*, 101(5), 375–382. <https://doi.org/10.1177/000348949210100501>

Heuer, R. J. (1992). Behavioral therapy for spasmodic dysphonia. *Journal of Voice*, 6 (4), 352-354. [https://doi.org/10.1016/s0892-1997\(05\)80032-3](https://doi.org/10.1016/s0892-1997(05)80032-3)

Hintze, J. M., Ludlow, C. L., Bansberg, S. F., Adler, C. H. i Lott, D. G. (2017a). Spasmodic Dysphonia: A Review. Part 1: Pathogenic Factors. *Otolaryngology--head and neck surgery :*

official journal of American Academy of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, 157(4), 551–557. <https://doi.org/10.1177/0194599817728521>

Hintze, J. M., Ludlow, C. L., Bansberg, S. F., Adler, C. H. i Lott, D. G. (2017b). Spasmodic Dysphonia: A Review. Part 2: Characterization of Pathophysiology. *Otolaryngology--head and neck surgery : official journal of American Academy of Otolaryngology-Head and Neck Surgery*, 157(4), 558–564. <https://doi.org/10.1177/0194599817728465>

Hirano, M. (1981). *Clinical examination of voice*. New York: Springer.

Hogikyan, N. D. i Sethuraman, G. (1999). Validation of an instrument to measure voice-related quality of life (V-RQOL). *Journal of voice : official journal of the Voice Foundation*, 13(4), 557–569. [https://doi.org/10.1016/s0892-1997\(99\)80010-1](https://doi.org/10.1016/s0892-1997(99)80010-1)

Hu, A., Hillel, A., Zhao, W. i Meyer, T. (2018). Anxiety and depression in spasmodic dysphonia patients. *World journal of otorhinolaryngology - head and neck surgery*, 4(2), 110–116. <https://doi.org/10.1016%2Fj.wjorl.2018.04.004>

Hyodo, M., Hisa, Y., Nishizawa, N., Omori, K., Shiromoto, O., Yumoto, E., Sanuki, T., Nagao, A., Hirose, K., Kobayashi, T., Asano, K. i Sakaguchi, M. (2021). The prevalence and clinical features of spasmodic dysphonia: A review of epidemiological surveys conducted in Japan. *Auris, nasus, larynx*, 48(2), 179–184. <https://doi.org/10.1016/j.anl.2020.08.013>

Isetti, D. i Meyer, T. (2014). Workplace productivity and voice disorders: a cognitive interviewing study on presenteeism in individuals with spasmodic dysphonia. *Journal of voice : official journal of the Voice Foundation*, 28(6), 700–710. <https://doi.org/10.1016/j.jvoice.2014.03.017>

Izdebski, K., Dedo, H. H. i Boles, L. (1984). Spastic dysphonia: a patient profile of 200 cases. *American journal of otolaryngology*, 5(1), 7–14. [https://doi.org/10.1016/s0196-0709\(84\)80015-0](https://doi.org/10.1016/s0196-0709(84)80015-0)

Jacobson, H. B., Johnson, A., Grywalski, C., Silbergleit, A., Jacobson, G., Benninger, S. M. i Newman, W. C. (1997). The Voice Handicap Index (VHI): Development and Validation. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 6, 66-70. <https://doi.org/10.1044/1058-0360.0603.66>

- Johnson, D. M., Hapner, E. R., Klein, A. M., Pethan, M. i Johns, M. M., 3rd (2014). Validation of a telephone screening tool for spasmodic dysphonia and vocal fold tremor. *Journal of voice : official journal of the Voice Foundation*, 28(6), 711–715. <https://doi.org/10.1016/j.jvoice.2014.03.009>
- Kempster, G. B., Gerratt, B. R., Verdolini Abbott, K., Barkmeier-Kraemer, J. i Hillman, R. E. (2009). Consensus auditory-perceptual evaluation of voice: development of a standardized clinical protocol. *American journal of speech-language pathology*, 18(2), 124–132. [https://doi.org/10.1044/1058-0360\(2008/08-0017\)](https://doi.org/10.1044/1058-0360(2008/08-0017))
- Kim, J. W., Park, J. H., Park, K. N. i Lee, S. W. (2014). Treatment efficacy of electromyography versus fiberscopy-guided botulinum toxin injection in adductor spasmodic dysphonia patients: a prospective comparative study. *The Scientific World Journal*, 2014, 1–4. <https://doi.org/10.1155/2014/327928>
- Kirke, D. N., Battistella, G., Kumar, V., Rubien-Thomas, E., Choy, M., Rumbach, A. i Simonyan, K. (2017). Neural correlates of dystonic tremor: a multimodal study of voice tremor in spasmodic dysphonia. *Brain imaging and behavior*, 11(1), 166–175. <https://doi.org/10.1007%2Fs11682-016-9513-x>
- Kodama, N., Sanuki, T., Miyamoto, T. i Tashiro, J. (2024). Effects and Differences of Voice Therapy on Spasmodic Dysphonia and Muscle tension dysphonia: A Retrospective Pilot Study. *Journal of voice : official journal of the Voice Foundation*, 38(1), 129–135. <https://doi.org/10.1016/j.jvoice.2021.07.003>
- Kostić, V. S., Agosta, F., Sarro, L., Tomić, A., Kresojević, N., Galantucci, S., Svetel, M., Valsasina, P. i Filippi, M. (2016). Brain structural changes in spasmodic dysphonia: A multimodal magnetic resonance imaging study. *Parkinsonism & related disorders*, 25, 78–84. <https://doi.org/10.1016/j.parkreldis.2016.02.003>
- Liu, C. Y., Yu, J. M., Wang, N. M., Chen, R. S., Chang, H. C., Li, H. Y., Tsai, C. H., Yang, Y. Y. i Lu, C. S. (1998). Emotional symptoms are secondary to the voice disorder in patients with spasmodic dysphonia. *General hospital psychiatry*, 20(4), 255–259. [https://doi.org/10.1016/s0163-8343\(98\)00022-x](https://doi.org/10.1016/s0163-8343(98)00022-x)

- Lorch, M. P. i Whurr, R. (2016). Morell Mackenzie's Contribution to the Description of Spasmodic Dysphonia. *The Annals of otology, rhinology, and laryngology*, 125(12), 976–981. <https://doi.org/10.1177/0003489416667744>
- Ludlow, C. L., Adler, C. H., Berke, G. S., Bielałowicz, S. A., Blitzer, A., Bressman, S. B., Hallett, M., Jinnah, H. A., Juergens, U., Martin, S. B., Perlmutter, J. S., Sapienza, C., Singleton, A., Tanner, C. M. i Woodson, G. E. (2008). Research priorities in spasmodic dysphonia. *Otolaryngology--head and neck surgery : official journal of American Academy of Otolaryngology-Head and Neck Surgery*, 139(4), 495–505. <https://doi.org/10.1016/j.otohns.2008.05.624>
- Ludlow, C. L., Domangue, R., Sharma, D., Jinnah, H. A., Perlmutter, J. S., Berke, G., Sapienza, C., Smith, M. E., Blumin, J. H., Kalata, C. E., Blindauer, K., Johns, M., Hapner, E., Harmon, A., Paniello, R., Adler, C. H., Crujido, L., Lott, D. G., Bansberg, S. F., Barone, N., ... Stebbins, G. (2018). Consensus-Based Attributes for Identifying Patients With Spasmodic Dysphonia and Other Voice Disorders. *JAMA otolaryngology-- head & neck surgery*, 144(8), 657–665. <https://doi.org/10.1001%2Fjamaoto.2018.0644>
- Ma, E. P. i Yiu, E. M. (2001). Voice activity and participation profile: assessing the impact of voice disorders on daily activities. *Journal of speech, language, and hearing research : JSLHR*, 44(3), 511–524. [https://doi.org/10.1044/1092-4388\(2001/040\)](https://doi.org/10.1044/1092-4388(2001/040))
- Meyer, T. K., Hu, A. i Hillel, A. D. (2013). Voice disorders in the workplace: productivity in spasmodic dysphonia and the impact of botulinum toxin. *The Laryngoscope*, 123 Suppl 6, S1–S14. <https://doi.org/10.1002/lary.24292>
- Mor, N., Simonyan, K. i Blitzer, A. (2018). Central voice production and pathophysiology of spasmodic dysphonia. *The Laryngoscope*, 128(1), 177–183. <https://doi.org/10.1002/lary.26655>
- Murry, T. i Woodson, G. E. (1995). Combined-modality treatment of adductor spasmodic dysphonia with botulinum toxin and voice therapy. *Journal of voice : official journal of the Voice Foundation*, 9(4), 460–465. [https://doi.org/10.1016/s0892-1997\(05\)80211-5](https://doi.org/10.1016/s0892-1997(05)80211-5)
- Murry T. (2014). Spasmodic dysphonia: let's look at that again. *Journal of voice : official journal of the Voice Foundation*, 28(6), 694–699. <https://doi.org/10.1016/j.jvoice.2014.03.007>

- Nerurkar, N. K. i Banu, T. P. (2014). Spasmodic dysphonia: a seven-year audit of dose titration and demographics in the Indian population. *The Journal of laryngology and otology*, 128(7), 649–653. <https://doi.org/10.1017/s002221511400142x>
- Nomoto, M., Tokashiki, R., Hiramatsu, H., Konomi, U., Motohashi, R., Sakurai, E., Toyomura, F., Ueda, Y., Inoue, S., Tsukahara, K. i Suzuki, M. (2015). The Comparison of Thyroarytenoid Muscle Myectomy and Type II Thyroplasty for Spasmodic Dysphonia. *Journal of voice : official journal of the Voice Foundation*, 29(4), 501–506. <https://doi.org/10.1016/j.jvoice.2014.09.030>
- Oates J. (2009). Auditory-perceptual evaluation of disordered voice quality: pros, cons and future directions. *Folia phoniatrica et logopaedica : official organ of the International Association of Logopedics and Phoniatrics (IALP)*, 61(1), 49–56. <https://doi.org/10.1159/000200768>
- Othman, S., Daggumati, S., Patel, R., Ross, J. i Sataloff, R. T. (2020). Laboratory Evaluation of Spasmodic Dysphonia. *Journal of voice : official journal of the Voice Foundation*, 34(6), 934–939. <https://doi.org/10.1016/j.jvoice.2019.05.016>
- Paniello, R. C., Barlow, J. i Serna, J. S. (2008). Longitudinal follow-up of adductor spasmodic dysphonia patients after botulinum toxin injection: quality of life results. *The Laryngoscope*, 118(3), 564–568. <https://doi.org/10.1097/mlg.0b013e31815e8be0>
- Patel, R. R., Awan, S. N., Barkmeier-Kraemer, J., Courey, M., Deliyski, D., Eadie, T., Paul, D., Švec, J. G. i Hillman, R. (2018). Recommended protocols for instrumental assessment of voice: American speech-language-hearing association expert panel to develop a protocol for instrumental assessment of vocal function. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 27(3), 887–905. https://doi.org/10.1044/2018_AJSLP-17-0009
- Patel, A. B., Bansberg, S. F., Adler, C. H., Lott, D. G. i Crujido, L. (2015). The Mayo Clinic Arizona Spasmodic Dysphonia Experience: A Demographic Analysis of 718 Patients. *The Annals of otology, rhinology, and laryngology*, 124(11), 859–863. <https://doi.org/10.1177/0003489415588557>
- Payten, C. L., Chiapello, G., Weir, K. A. i Madill, C. J. (2022). Frameworks, Terminology and Definitions Used for the Classification of Voice Disorders: A Scoping Review. *Journal of*

voice : official journal of the Voice Foundation, S0892-1997(22)00039-X. Advance online publication. <https://doi.org/10.1016/j.jvoice.2022.02.009>

Pearson, E. J. i Sapienza, C. M. (2003). Historical approaches to the treatment of Adductor-Type Spasmodic Dysphonia (ADSD): review and tutorial. *NeuroRehabilitation*, 18(4), 325–338. <https://doi.org/10.3233/NRE-2003-18407>

Robe, E., Brumlik, J. i Moore, P. (1960). A study of spastic dysphonia. Neurologic and electroencephalographic abnormalities. *The Laryngoscope*, 70, 219–245. <https://doi.org/10.1288/00005537-196003000-00001>

Rosow, D. E., Pechman, A., Saint-Victor, S., Lo, K., Lundy, D. S. i Casiano, R. R. (2015). Factors influencing botulinum toxin dose instability in spasmodic dysphonia patients. *Journal of voice : official journal of the Voice Foundation*, 29(3), 352–355. <https://doi.org/10.1016/j.jvoice.2014.08.011>

Roy N. (2010). Differential diagnosis of muscle tension dysphonia and spasmodic dysphonia. *Current opinion in otolaryngology & head and neck surgery*, 18(3), 165–170. <https://doi.org/10.1097/moo.0b013e328339376c>

Roy, N., Ford, C. N. i Bless, D. M. (1996). Muscle tension dysphonia and spasmodic dysphonia: the role of manual laryngeal tension reduction in diagnosis and management. *The Annals of otology, rhinology, and laryngology*, 105(11), 851–856. <https://doi.org/10.1177/000348949610501102>

Roy, N., Mazin, A. i Awan, S. N. (2014). Automated acoustic analysis of task dependency in adductor spasmodic dysphonia versus muscle tension dysphonia. *The Laryngoscope*, 124(3), 718–724. <https://doi.org/10.1002/lary.24362>

Samargia, S., Schmidt, R. i Kimberley, T. J. (2014). Shortened cortical silent period in adductor spasmodic dysphonia: evidence for widespread cortical excitability. *Neuroscience letters*, 560, 12–15. <https://doi.org/10.1016/j.neulet.2013.12.007>

Samargia, S., Schmidt, R. i Kimberley, T. J. (2016). Cortical Silent Period Reveals Differences Between Adductor Spasmodic Dysphonia and Muscle Tension Dysphonia. *Neurorehabilitation and neural repair*, 30(3), 221–232. <https://doi.org/10.1177/1545968315591705>

Sanuki, T., Yumoto, E., Kodama, N., Minoda, R. i Kumai, Y. (2014). Long-term voice handicap index after type II thyroplasty using titanium bridges for adductor spasmodic dysphonia. *Auris, nasus, larynx*, 41(3), 285–289. <https://doi.org/10.1016/j.anl.2013.11.001>

Sanuki, T. i Yumoto, E. (2017). Long-term Evaluation of Type 2 Thyroplasty with Titanium Bridges for Adductor Spasmodic Dysphonia. *Otolaryngology--head and neck surgery : official journal of American Academy of Otolaryngology-Head and Neck Surgery*, 157(1), 80–84. <https://doi.org/10.1177/0194599817705612>

Schaefer S. D. (1983). Neuropathology of spasmodic dysphonia. *The Laryngoscope*, 93(9), 1183–1204. <https://doi.org/10.1288/00005537-198309000-00015>

Schuering, J. H. C., Heijnen, B. J., Sjögren, E. V. i Langeveld, A. P. M. (2020). Adductor spasmodic dysphonia: Botulinum toxin a injections or laser thyroarytenoid myoneurectomy? A comparison from the patient perspective. *The Laryngoscope*, 130(3), 741–746. <https://doi.org/10.1002/lary.28105>

Schuering, J. H. C., van Hof, K. S., Heijnen, B. J., van Benthem, P. P. G., Sjögren, E. V. i Langeveld, A. P. M. (2021). Proposal for a Core Outcome Set of Measurement Instruments to Assess Quality of Voice in Adductor Spasmodic Dysphonia Based on a Literature Review. *Journal of voice : official journal of the Voice Foundation*, 35(6), 933.e7–933.e21. <https://doi.org/10.1016/j.jvoice.2020.02.010>

Schweinfurth, J. M., Billante, M. i Courey, M. S. (2002). Risk factors and demographics in patients with spasmodic dysphonia. *The Laryngoscope*, 112(2), 220–223. <https://doi.org/10.1097/00005537-200202000-00004>

Shoffel-Havakuk, H., Marks, K. L., Morton, M., Johns, M. M., 3rd i Hapner, E. R. (2019). Validation of the OMNI vocal effort scale in the treatment of adductor spasmodic dysphonia. *The Laryngoscope*, 129(2), 448–453. <https://doi.org/10.1002/lary.27430>

Shoffel-Havakuk, H., Rosow, D. E., Lava, C. X., Hapner, E. R. i Johns, M. M., 3rd (2019). Common practices in botulinum toxin injection for spasmodic dysphonia treatment: A national survey. *The Laryngoscope*, 129(7), 1650–1656. <https://doi.org/10.1002/lary.27696>

Silverman, E. P., Garvan, C., Shrivastav, R. i Sapienza, C. M. (2012). Combined modality treatment of adductor spasmodic dysphonia. *Journal of voice : official journal of the Voice Foundation*, 26(1), 77–86. <https://doi.org/10.1016/j.jvoice.2010.08.004>

Simonyan, K. i Ludlow, C. L. (2012). Abnormal structure-function relationship in spasmodic dysphonia. *Cerebral cortex (New York, N.Y. : 1991)*, 22(2), 417–425. <https://doi.org/10.1093%2Fcercor%2Fbhr120>

Simpson, C. B., Lee, C. T., Hatcher, J. L. i Michalek, J. (2016). Botulinum toxin treatment of false vocal folds in adductor spasmodic dysphonia: Functional outcomes. *The Laryngoscope*, 126(1), 118–121. <https://doi.org/10.1002/lary.25515>

Smith, E., Taylor, M., Mendoza, M., Barkmeier, J., Lemke, J. i Hoffman, H. (1998). Spasmodic dysphonia and vocal fold paralysis: outcomes of voice problems on work-related functioning. *Journal of voice : official journal of the Voice Foundation*, 12(2), 223–232. [https://doi.org/10.1016/s0892-1997\(98\)80042-8](https://doi.org/10.1016/s0892-1997(98)80042-8)

Tanner, K., Roy, N., Merrill, R. M., Sauder, C., Houtz, D. R. i Smith, M. E. (2012). Case-control study of risk factors for spasmodic dysphonia: A comparison with other voice disorders. *The Laryngoscope*, 122(5), 1082–1092. <https://doi.org/10.1002/lary.22471>

Termsarasab, P., Ramdhani, R. A., Battistella, G., Rubien-Thomas, E., Choy, M., Farwell, I. M., Velickovic, M., Blitzer, A., Frucht, S. J., Reilly, R. B., Hutchinson, M., Ozelius, L. J. i Simonyan, K. (2015). Neural correlates of abnormal sensory discrimination in laryngeal dystonia. *NeuroImage. Clinical*, 10, 18–26. <https://doi.org/10.1016%2Fj.nicl.2015.10.016>

Traube, L. (1871). *Gesammelte Beiträge zur Pathologie und Physiologie* (Vol. 1). Hirschwald.

Vanryckeghem, M. i Ruddy, BH. (2015). A Preliminary Investigation of the Affective, Behavioral and Cognitive Variables Associated with Spasmodic Dysphonia. *Journal of Communication Disorders, Deaf Studies & Hearing Aids*, 3(2), 1-5. <https://doi.org/10.4172/2375-4427.1000131>

Verdolini, K., Rosen, C. A. i Branski, R. C. (2006): *Classification Manual of Voice Disorders*, Mahwah, New York: Erlbaum.

Walter, U., Blitzer, A., Benecke, R., Grossmann, A. i Dressler, D. (2014). Sonographic detection of basal ganglia abnormalities in spasmodic dysphonia. *European journal of neurology*, 21(2), 349–352. <https://doi.org/10.1111/ene.12151>

Watts, C. R. i Vanryckeghem, M. (2017). Communication-related affective, behavioral, and cognitive reactions in speakers with spasmodic dysphonia. *Laryngoscope investigative otolaryngology*, 2(6), 466–470. <https://doi.org/10.1002%2Flio2.128>

Waugh, J. L., Kuster, J. K., Levenstein, J. M., Makris, N., Multhaupt-Buell, T. J., Sudarsky, L. R., Breiter, H. C., Sharma, N. i Blood, A. J. (2016). Thalamic Volume Is Reduced in Cervical and Laryngeal Dystonias. *PLoS one*, 11(5), 1–20. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0155302>

White, L. J., Hapner, E. R., Klein, A. M., Delgaudio, J. M., Hanfelt, J. J., Jinnah, H. A. i Johns, M. M., 3rd (2012). Coprevalence of anxiety and depression with spasmodic dysphonia: a case-control study. *Journal of voice : official journal of the Voice Foundation*, 26(5), 667.e1–667.e6. <https://doi.org/10.1016/j.jvoice.2011.08.011>

Whurr, R. i Lorch, M. (2016). Review of differential diagnosis and management of spasmodic dysphonia. *Current opinion in otolaryngology & head and neck surgery*, 24(3), 203–207. <https://doi.org/10.1097/moo.0000000000000253>

Yanagida, S., Nishizawa, N., Hashimoto, R., Mizoguchi, K., Hatakeyama, H., Homma, A. i Fukuda, S. (2018). Reliability and Validity of Speech Evaluation in Adductor Spasmodic Dysphonia. *Journal of voice : official journal of the Voice Foundation*, 32(5), 585–591. <https://doi.org/10.1016/j.jvoice.2017.06.022>

Zhang Z. (2016). Mechanics of human voice production and control. *The Journal of the Acoustical Society of America*, 140(4), 2614–2635. <https://doi.org/10.1121%2F1.4964509>

Mrežni izvori:

National Spasmodic Dysphonia Association (bez dat.). *About Spasmodic Dysphonia*. Preuzeto 11. 7. 2024. s <https://dysphonia.org/>.