

University of Groningen

## Is Skater's Cramp a Task-Specific Dystonia?

Nijenhuis, Beorn

DOI:  
[10.33612/diss.672430858](https://doi.org/10.33612/diss.672430858)

**IMPORTANT NOTE: You are advised to consult the publisher's version (publisher's PDF) if you wish to cite from it. Please check the document version below.**

*Document Version*  
Publisher's PDF, also known as Version of record

*Publication date:*  
2023

[Link to publication in University of Groningen/UMCG research database](#)

*Citation for published version (APA):*  
Nijenhuis, B. (2023). *Is Skater's Cramp a Task-Specific Dystonia?* [Thesis fully internal (DIV), University of Groningen]. University of Groningen. <https://doi.org/10.33612/diss.672430858>

### Copyright

Other than for strictly personal use, it is not permitted to download or to forward/distribute the text or part of it without the consent of the author(s) and/or copyright holder(s), unless the work is under an open content license (like Creative Commons).

The publication may also be distributed here under the terms of Article 25fa of the Dutch Copyright Act, indicated by the "Taverne" license. More information can be found on the University of Groningen website: <https://www.rug.nl/library/open-access/self-archiving-pure/taverne-amendment>.

### Take-down policy

If you believe that this document breaches copyright please contact us providing details, and we will remove access to the work immediately and investigate your claim.

*Downloaded from the University of Groningen/UMCG research database (Pure): <http://www.rug.nl/research/portal>. For technical reasons the number of authors shown on this cover page is limited to 10 maximum.*

# **Nederlandse Samenvatting**

De zogenaamde zwabbervoet heeft, over de jaren heen, geleid tot een vroegtijdige beëindiging van de Olympische carrière van schaatsers. Deze bewegingsstoornis wordt gekarakteriseerd door een verlies van controle en een schokkerige beweging van de schaats aan het einde van een complete schaatsslag, net voordat de schaats op het ijs wordt geplaatst (1,2). De zwabbervoet ontstaat plots, waarbij schaatsers vervallen van maximaal presteren, tot een snel einde van hun carrière, en dat in een paar maanden tijd. Ondanks het dramatische en onverwachte ontstaan van zwabbervoet, blijft de oorzaak een mysterie en het doel van dit proefschrift is dit mysterie deels te ontrafelen.

Neurologen stelden in 2014 dat de zwabbervoet een vorm van taak-specifieke dystonie (TSD) zou kunnen zijn. Dit was gebaseerd op videoanalyses waarbij consistente en repeterende abrupte bewegingen te zien waren. Andere typische kenmerken waren de taak-specificiteit en het plotse begin (3).

TSD is een vorm van dystonie. Dystonie is een hyperkinetische bewegingsstoornis die veroorzaakt wordt door abnormale hersenactiviteit, hetgeen resulteert in 'aanhoudende en periodieke spiercontracties'. Bij TSD treedt dit alleen op tijdens een specifieke taak, bij de zwabbervoet is dat tijdens het schaatsen(4,5). Ofschoon elke motorische vaardigheid door een TSD aangetast kan worden, is de prevalentie het hoogst onder sporters en musici bij wie het meest gevraagd wordt van de motoriek (6)and in many cases, the disorder terminates the careers of affected musicians. The pathophysiology of the disorder is not completely clarified. Findings include 1.

Dit proefschrift heeft als doel voort te bouwen op de initiële diagnose van zwabbervoet als een TSD, door integratie van kwantitatieve metingen. Om dit te bereiken werden methoden gekozen, gebaseerd op eerder onderzoek, die kenmerken hebben geïdentificeerd van TSD in andere sporten, onder voorbehoud dat deze kenmerken meetbaar zijn tijdens het schaatsen. De auteurs kozen ervoor om bewegingen, spieractiviteit, inter-musculaire coherentie en persoonlijkheid te onderzoeken om de belangrijkste onderzoeksvraag van dit proefschrift te kunnen beantwoorden: *is zwabbervoet een TSD?*

Vier hoofdstukken beschrijven 4 methodes om deze kenmerken in schaatsers te meten, namelijk, kinematica voor afwijkende bewegingen (**hoofdstuk 2-3**), elektromyografie voor spier over-activatie (**hoofdstuk 3**), elektromyografie voor inter-musculaire coherentie (**hoofdstuk 4**) en psychometrie voor verschillen in persoonlijkheidskenmerken (**hoofdstuk 5**). Klinische kenmerken werden benadrukt in alle hoofdstukken (**hoofdstuk 2-5**). Tevens was een doel van de studie om het effect van de huidige behandelingen voor TSD in sport te evalueren (**hoofdstuk 6**), om individuen met zwabbervoet te helpen, die klinisch gediagnosticeerd zijn met TSD.

### Bewegingsanalyse:

In **hoofdstuk 2 en 3** hebben wij bewegingskenmerken gemeten van schaatsers, tijdens het schaatsen. De bewegingen van de benen van de schaatsers werden gemeten door gebruik te maken van Inertial Mass Units (IMUs). In andere studies van TSD bij sporters, hielp het het observeren van bewegingspatronen met IMUs bij het identificeren van kenmerken die geassocieerd zijn met TSD. Dit zijn voornamelijk repetitieve abrupte bewegingskenmerken, die niet gerelateerd zijn aan de correcte uitvoering van een beweging (maladaptief), en zowel op een specifiek moment binnen de beweging, als op een zeer consistent manier (4,7). Wij gebruikten kinematica om te testen voor deze eigenschappen. De resultaten toonden consistente repetitieve abrupte bewegingen van de voet van alle aangedane schaatsers die maladaptief leek te zijn. De abrupte bewegingen waren consistent aanwezig in elke schaatsslag en gerelateerd aan het moment van het plaatsen van de schaats op het ijs. Er werd geen afwijkende activiteit gezien in het niet-aangedane been van aangedane schaatsers of in één van beide benen van de deelnemers in de controle-groep.

### Spieranalyse:

In **hoofdstuk 3** werd spier over-activiteit in schaatsers gemeten. Het meten van over-actieve spieren m.b.v. elektromyografie (EMG) sensoren helpt bij de observatie van TSD in sport en muziek (8,9). Bij deze voorbeelden wordt gedacht dat over-activiteit het gevolg is van een dis-inhibitie van corticale en sub-corticale netwerken in de hersenen en als gevolg daarvan langs de motore cortico-spinale banen (10). Bovendien lijkt deze muscular-overflow niet aangedaan te worden door veranderingen in intensiteit (11,12) highly skilled, often repetitive, motor activity. TSD may be apparent during certain tasks such as writing, playing musical instruments, or other activities requiring fine motor control, but may also occur during certain sports, and maybe detrimental to professional athletes' careers. Therefore, sports physicians and movement disorder neurologists need to be aware of the presentation and phenomenology of sports-related dystonia (SRD). In **hoofdstuk 3** werden er over-actieve spieren gevonden in het aangedane been in alle aangedane schaatsers, gemeten in de m. tibialis anterior, m. peroneus longus, m. soleus en m. gastrocnemius. De over-activiteit was consistent over de schaatsslag-cycli en gerelateerd aan het moment van het plaatsen van de schaats op het ijs. Deze afwijkende activiteit bleef consistent terwijl schaatsers werd gevraagd om te schaatsen op 60% en 80% van hun waargenomen maximum snelheid.

### Inter-Musculaire Coherentie Analyse:

In **hoofdstuk 4** werd inter-musculaire coherentie (IMC) gemeten, een volgend mogelijk kenmerk van TSD. IMC is een lineaire correlatie tussen oscillerende signalen van twee spieren, en het meet de mate waarin de ritmes van de oscillerende activiteit van de spieren 'overlapt' (hetgeen bekend is als de samenhang van de fase-verschillen tussen twee signalen) met 0 als geen coherentie en 1 als volledige coherentie. Eerdere studies vonden dat een hogere IMC gezien wordt bij dystonie in het algemeen (13–17) we studied 12 symptomatic

and 4 asymptomatic carriers of the DYT1 gene, 6 patients with symptomatic dystonia due to focal basal ganglia lesions, and 11 patients with fixed dystonia, a condition assumed to be mostly psychogenic in aetiology. We evaluated EMG-EMG coherence in the tibialis anterior (TA en heel specifiek bij TSD (18,19) a focal task-induced dystonia, writing is impaired or even impossible due to involuntary muscle contractions and abnormal posture, which occur as soon as the person picks up a pen or within writing a few words. The underlying pathophysiological mechanisms of this movement disorder are not fully understood up to now. The aim of the present study was to unravel the oscillatory network underlying physiological writing in healthy subjects and dystonic writing in writer's cramp patients. Using whole-head magnetoencephalography (MEG. Net als bij spier over-activatie, lijkt ook IMC veroorzaakt te worden door gestoorde dis-inhibitie (20) the underlying neural mechanisms are not fully understood. Previous work has speculated that a shift toward greater supraspinal control may contribute to threat-related balance changes. This study investigated how neural correlates of cortical and subcortical control of balance were affected by initial and repeated exposure to a height-related postural threat. Corticomuscular coherence (CMC. In **hoofdstuk 4** zagen wij geen verschil in inter-musculaire coherentie (IMC) in een generieke stilstaande weerstands-/activatie taak (niet gerelateerd aan schaatsen), echter tijdens het schaatsen was de IMC in de theta-frequentie band (3-7Hz) hoger in het aangedane been bij aangedane schaatsers, vergeleken met het niet-aangedane been, en vergeleken met het linker en rechter been van gezonde controles. Wel moet worden opgemerkt dat verhoogde IMC in schaatsers met zwabbervoet alleen werd gezien in een subgroep van schaatsers die ernstiger was aangedaan.

## Psychometrie

In **hoofdstuk 5** werd persoonlijkheidskenmerken onderzocht bij schaatsers met zwabbervoet. Onderzoek toont aan dat diegenen met een TSD lijken overeenkomstige onderscheidende persoonlijkheidskenmerken te delen, zoals een gevoeligheid voor negatieve affectie (een hogere gevoeligheid voor angst) tot uiting komend in hogere scores op 'emotionaliteit' (21), een factor die vaak is onderzocht in persoonlijkheidsmodellen (22). Onderzoekers hebben gesteld dat de oorzaak voor de hogere emotionaliteit in TSD een gedeeld neuro-circuit is van delen van de hersenen die motore controle besturen (23,24) en delen die emotionele verwerking besturen (25). Onze resultaten tonen aan dat schaatsers met zwabbervoet ook hogere sentimentaliteits niveaus hadden (een onderdeel van emotionaliteit), maar alleen in mannen. Angst (een ander onderdeel van emotionaliteit) bleek ook meer aanwezig in aangedane mannelijke schaatsers (maar marginaal  $p=.07$ ). Dat deze bevinding slechts bij mannen gevonden werd, compliceert de uitkomsten, maar zoals bediscussieerd in **hoofdstuk 5**, zou dit ook in andere TSD- studies het geval kunnen zijn omdat het een zeer weinig onderzocht gebied is.

## Behandeling van TSD in Sport, een Systematische Review

In de systematische review in **hoofdstuk 6** onderzochten wij de mogelijk behandelingen voor TSD in sport. Dit is van belang omdat zwabbervoet nog steeds een klinische diagnose is en er dus mensen worden behandeld voor de aandoening gebaseerd op de mening van experts. In ons onderzoek vonden wij weinig bewijs hoe de aandoening het beste behandeld kan worden. Wij onderzochten zowel niet-invasieve psychologische als invasieve en/of farmacologische interventies en vonden geen bewijs voor effectieve behandelingen. Sommige psychologische en chirurgische interventies leken wel enigszins effectief. Botuline toxine injecties waren gedeeltelijk effectief (58%), overeenkomstig met de bevindingen bij musici (26). Niet-invasieve emotionele regulatie technieken zoals cognitieve gedragstherapie (CGT) en 'eye movement desensitization and reprocessing' (EMDR) toonden enige verbetering, maar deze studies werden enkel bij golfers uitgevoerd. Een andere behandeling, die enige effectiviteit toonde, was invasieve chirurgie. Ventro-oral thalamotomie (VoT) operaties leken effectief in een retrospectieve studie van 171 gevallen van TSD, waaronder 5 atleten, maar de geschiktheid om een taak-specifieke aandoening hiermee te behandelen moet zeer kritisch benaderd worden.

## Conclusies

Als we alle kenmerken die in dit proefschrift beschreven zijn samen nemen: bewegingspatronen, spierpatronen, intermusculaire coherentie en verschillende persoonlijkheidskarakteristieken, ondersteunen die onze hypothese dat zwabbervoet een TSD is. Ofschoon het niet mogelijk is om te beweren dat deze bevindingen onze hypothese volledig bevestigen, leveren ze wel bewijs dat het centraal zenuwstelsel betrokken is. De volgende stap, om deze vraag te beantwoorden, is rechtstreekse metingen van de hersenen, om op zoek te gaan naar specifieke kenmerken in hersenactiviteit, zoals die eerder al gecorreleerd werden met TSD (24,27,28). Daarbij zijn functional magnetic resonance imaging (fMRI), functional near-infrared spectroscopy (fNIRS) en electroencephalografie (EEG) allen opties die overwogen moeten worden.

Het succesvol behandelen van zwabbervoet blijft een uitdaging omdat er maar weinig behandel opties mogelijk zijn. Echter op basis van onze bevindingen in **hoofdstuk 2-5** en de systematische review (**hoofdstuk 6**), zou een combinatie van botuline toxine-injecties met een psychologische interventie zoals emotionele regulatie of *sensory motor retraining* een interessante mogelijkheid zijn. Deze strategie zou zich tegelijkertijd op neurofysiologische als psychologische kenmerken richten waarvan bekend is dat ze betrokken zijn bij TSD.

Dit proefschrift onderzocht zwabbervoet als een mogelijke TSD en behandelingen van TSD werden beoordeeld. Hopelijk helpt dit de kennis en het begrip te verbeteren en leidt het

naar verbeterde medische uitkomsten en naar opluchting bij aangedane schaatsers op zowel fysiek als fysisch vlak. Dit is belangrijk, omdat zwabbervoet traumatische emotionele en lichamelijke gevolgen kan hebben bij de getroffen. Sommige schaatsers hebben zelfs mislukte invasieve medische procedures ondergaan. Om schade te voorkomen en toekomstige uitkomsten te verbeteren is een beter begrip van zwabbervoet essentieel.

## Referenties

1. Meijer L. Een schaatser met een zwabbervoet. *Fysiopraxis*. 2013 Aug;(Year 22 Number 8):22–5.
2. Geest M van der. Het mysterie van de zwabbervoet en de golf-bibbers en waarom het juist geoefende sporters treft [Internet]. *de Volkskrant*. 2022 [cited 2023 Jan 25]. Available from: <https://www.volkskrant.nl/wetenschap/het-mysterie-van-de-zwabbervoet-en-de-golf-bibbers-en-waarom-het-juist-geoefende-sporters-treft-b34369b4/>
3. Marina de Koning-Tijssen. Over de schaatser met de zwabbervoet. *FysioPraxis*. 2014 FysioPraxis | maart;pag. 22-25.
4. Albanese A, Bhatia K, Bressman SB, DeLong MR, Fahn S, Fung VSC, et al. Phenomenology and classification of dystonia: A consensus update. *Mov Disord*. 2013;28(7):863–73.
5. Madeo G, Pisani A. Pathophysiology of Dystonia. In 2017. p. 929–50.
6. Altenmüller E, Jabusch HC. Focal dystonia in musicians: phenomenology, pathophysiology, triggering factors, and treatment. *Med Probl Perform Art*. 2010 Mar;25(1):3–9.
7. Adler CH, Temkit M, Crews D, McDaniel T, Tucker J, Hentz JG, et al. The Yips: Methods to Identify Golfers with a Dystonic Etiology/Golfer's Cramp. *Med Sci Sports Exerc*. 2018 Nov;50(11):2226–30.
8. Cutsforth-Gregory JK, Ahlskog JE, McKeon A, Burnett MS, Matsumoto JY, Hassan A, et al. Repetitive exercise dystonia: A difficult to treat hazard of runner and non-runner athletes. *Parkinsonism Relat Disord*. 2016;27:74–80.
9. Altenmueller E, Jabusch HC. Focal Dystonia in Musicians Phenomenology, Pathophysiology, Triggering Factors, and Treatment. *Med Probl Perform Art*. 2010 Mar;25(1):3–9.
10. Ahmad OF, Ghosh P, Stanley C, Karp B, Hallett M, Lungu C, et al. Electromyographic and Joint Kinematic Patterns in Runner's Dystonia. *Toxins*. 2018 Apr;10(4):166.
11. Lenka A, Jankovic J. Sports-Related Dystonia. *Tremor Hyperkinetic Mov N Y N*. 2021;11:54.
12. Smith AM, Malo SA, Laskowski ER, Sabick M, Cooney WP 3rd, Finnie SB, et al. A multidisciplinary study of the "yips" phenomenon in golf: An exploratory analysis. *Sports Med Auckl NZ*. 2000 Dec;30(6):423–37.
13. Grosse P, Edwards M, Tijssen M a. J, Schrag A, Lees AJ, Bhatia KP, et al. Patterns of EMG-EMG coherence in limb dystonia. *Mov Disord Off J Mov Disord Soc*. 2004 Jul;19(7):758–69.
14. McClelland VM, Cvetkovic Z, Lin JP, Mills KR, Brown P. Abnormal patterns of corticomuscular and intermuscular coherence in childhood dystonia. *Clin Neurophysiol*. 2020 Apr 1;131(4):967–77.
15. Grosse P, Guerrini R, Parmeggiani L, Bonanni P, Pogosyan A, Brown P. Abnormal corticomuscular and intermuscular coupling in high-frequency rhythmic myoclonus. *Brain*. 2003 Feb 1;126(2):326–42.
16. Panyakaew P, Cho HJ, Lee SW, Wu T, Hallett M. The Pathophysiology of Dystonic Tremors and Comparison With Essential Tremor. *J Neurosci*. 2020 Nov 25;40(48):9317–26.
17. van der Veen S, Klamer MR, Elting JWJ, Koelman JHTM, van der Stouwe AMM, Tijssen MAJ. The diagnostic value of clinical neurophysiology in hyperkinetic movement disorders: A systematic review. *Parkinsonism Relat Disord*. 2021 Aug;89:176–85.
18. Butz M, Timmermann L, Gross J, Pollok B, Dirks M, Hefter H, et al. Oscillatory coupling in writing and writer's cramp. *J Physiol-Paris*. 2006 Jan 1;99(1):14–20.
19. Choudhury S, Singh R, Chatterjee P, Trivedi S, Shubham S, Baker MR, et al. Abnormal Blink Reflex and Intermuscular Coherence in Writer's Cramp. *Front Neurol*. 2018;9:517.
20. Grosse P, Cassidy MJ, Brown P. EEG–EMG, MEG–EMG and EMG–EMG frequency analysis: physiological principles and clinical applications. *Clin Neurophysiol*. 2002 Oct 1;113(10):1523–31.
21. Enders L, Spector JT, Altenmüller E, Schmidt A, Klein C, Jabusch HC. Musician's dystonia and comorbid anxiety: Two sides of one coin? *Mov Disord*. 2011;26(3):539–42.
22. Costa P, McCrae R. Neo PI-R professional manual. *Psychol Assess Resour*. 1992 Jan 1;396.
23. Ridding MC, Sheean G, Rothwell JC, Inzelberg R, Kujirai T. Changes in the balance between motor cortical excitation and inhibition in focal, task specific dystonia. *J Neurol Neurosurg Psychiatry*. 1995 Nov;59(5):493–8.
24. Watanabe T, Yoshioka K, Matsushita K, Ishihara S. Modulation of sensorimotor cortical oscillations in athletes with yips. *Sci Rep*. 2021 May 14;11(1):10376.



25. Wassermann EM, Greenberg BD, Nguyen MB, Murphy DL. Motor cortex excitability correlates with an anxiety-related personality trait. *Biol Psychiatry*. 2001 Sep 1;50(5):377–82.
26. Jabusch HC, Zschucke D, Schmidt A, Schuele S, Altenmüller E. Focal dystonia in musicians: Treatment strategies and long-term outcome in 144 patients. *Mov Disord*. 2005;20(12):1623–6.
27. Quartarone A, Bagnato S, Rizzo V, Morgante F, Sant'Angelo A, Crupi D, et al. Corticospinal excitability during motor imagery of a simple tonic finger movement in patients with writer's cramp. *Mov Disord*. 2005;20(11):1488–95.
28. Faria DD de, Paulo AJM, Balardin J, Sato JR, Junior EA, Baltazar CA, et al. Task-related brain activity and functional connectivity in upper limb dystonia: a functional magnetic resonance imaging (fMRI) and functional near-infrared spectroscopy (fNIRS) study. *Neurophotonics*. 2020 Oct;7(4):045004.



