



ARTIGO ORIGINAL

Laryngoscopy evaluation protocol for the differentiation of essential and dystonic voice tremor^{☆,☆☆}

Bruno Teixeira de Moraes^{a,b,*}, Noemi Grigoletto de Biase^a

^a Departamento de Otorrinolaringologia, Ciências da Saúde, Universidade Federal de São Paulo (UNIFESP), São Paulo, SP, Brasil

^b Departamento de Otorrinolaringologia, Universidade Federal de Pernambuco (UFPE), Recife, PE, Brasil

Recebido em 21 de julho de 2014; aceito em 3 de fevereiro de 2015

KEYWORDS

Tremor;
Essential tremor;
Dystonia;
Laryngoscopy

Abstract

Introduction: Although syndromes that cause voice tremor have singular characteristics, the differential diagnosis of these diseases is a challenge because of the overlap of the existing signs and symptoms.

Objective: To develop a task-specific protocol to assess voice tremor by means of nasofibrolaryngoscopy and to identify those tasks that can distinguish between essential and dystonic tremor syndromes.

Methods: Cross-sectional study. The transnasal fiber optic laryngoscopy protocol, which consisted of the assessment of palate, pharynx and larynx tremor during the performance of several vocal and non-vocal tasks with distinct phenomenological characteristics, was applied to 19 patients with voice tremor. Patients were diagnosed with essential or dystonic tremor according to the phenomenological characterization of each group. Once they were classified, the tasks associated with the presence of tremor in each syndrome were identified.

Results: The tasks that significantly contributed to the differential diagnosis between essential and dystonic tremor were /s/ production, continuous whistling and reduction of tremor in falsetto. These tasks were phenomenologically different with respect to the presence of tremor in the two syndromes.

DOI se refere ao artigo: <http://dx.doi.org/10.1016/j.bjorl.2015.11.001>

* Como citar este artigo: de Moraes BT, de Biase NG. Laryngoscopy evaluation protocol for the differentiation of essential and dystonic voice tremor. Braz J Otorhinolaryngol. 2016;82:96-104.

** Instituição: Departamento de Otorrinolaringologia e Cirurgia de Cabeça e Pescoço, Universidade Federal de São Paulo (UNIFESP), São Paulo, SP, Brasil.

* Autor para correspondência.

E-mail: moraesbruno.ork@hotmail.com (B.T. de Moraes).

PALAVRAS-CHAVE

Tremor;
Tremor essencial;
Distonia;
Laringoscopia

Conclusion: The protocol of specific tasks by means of transnasal fiberoptic laryngoscopy is a viable method to differentiate between essential and dystonic voice tremor syndromes through the following tasks: /s/ production, continuous whistling and reduction of tremor in falsetto.
© 2015 Associação Brasileira de Otorrinolaringologia e Cirurgia Cérvico-Facial. Published by Elsevier Editora Ltda. This is an open access article under the CC BY- license (<https://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>).

Protocolo de avaliação por laringoscopia para diferenciar tremor vocal essencial e distônico

Resumo

Introdução: Apesar de haver características próprias entre as síndromes causadoras do tremor vocal, o diagnóstico diferencial destas doenças é um desafio pela sobreposição de sinais e sintomas presentes.

Objetivo: Desenvolver protocolo de tarefas específicas na avaliação do tremor vocal por nasofibrolaringoscopia e identificar aquelas que diferenciem as síndromes de tremor essencial e distônico.

Método: Estudo transversal. O protocolo de nasofibrolaringoscopia, que consistiu na avaliação do tremor em palato, faringe e laringe durante execução de diversas tarefas fonatórias e não-fonatórias com características fenomenológicas distintas, foi aplicado em 19 pacientes com tremor vocal. Os pacientes foram diagnosticados como tremor essencial ou distônico a partir da caracterização fenomenológica de cada grupo. Uma vez classificados, determinou-se quais tarefas estavam associadas à presença de tremor nas diferentes síndromes.

Resultados: As tarefas que contribuíram significativamente na distinção do tremor essencial e distônico foram a emissão /s/, assobio contínuo e redução do tremor no agudo, pois apresentaram-se fenomenologicamente diferentes quanto à presença do tremor entre as duas síndromes.

Conclusão: O protocolo de tarefas específicas por nasofibrolaringoscopia é um método viável para diferenciar as síndromes de tremor vocal essencial e distônico por meio das tarefas: emissão /s/, assobio contínuo e redução do tremor no agudo.

© 2015 Associação Brasileira de Otorrinolaringologia e Cirurgia Cérvico-Facial. Published by Elsevier Editora Ltda. This is an open access article under the CC BY- license (<https://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>).

Introdução

Tremor vocal é classificado na categoria síndromes definidas quando o mesmo associa-se a outros sinais neurológicos (principalmente em membros e cabeça). Quando se apresenta como manifestação única, geralmente é descrito como tremor vocal isolado, situação que dificulta a classificação sindrômica dos tremores.¹ Considerando a fenomenologia, condição de ativação durante a qual o tremor ocorre e principal dado clínico que contribui para o diagnóstico sindrômico, o tremor pode ser de repouso ou de ação. Esta caracterização também se aplica ao aparelho fonatório e pode ser realizada por meio da nasofibrolaringoscopia, exame que permite a avaliação funcional do mesmo durante a execução de diversas tarefas.²

Entre as síndromes neurológicas com possível manifestação de tremor vocal, o tremor essencial é a patologia de maior prevalência, seguido do tremor parkinsoniano e tremor distônico.^{3,4} Apesar de ser uma entidade relativamente frequente, algumas casuísticas mostram que raramente a doença de Parkinson se manifesta com tremor laríngeo.^{5,6} E como o tremor de repouso é distinto dos demais tanto fisiológica como clinicamente, a maior dificuldade diagnóstica reside na distinção entre o tremor essencial e o distônico.⁷

O tremor essencial manifesta-se com alteração vocal em 11 a 30% dos casos.^{5,8,9} A oscilação rítmica do palato, faringe ou laringe pode se apresentar durante todas as tarefas, incluindo a respiração tranquila e a fonação, pois são atividades que exigem manutenção de determinada postura laríngea,¹⁰ sendo discutível a possibilidade de repouso da musculatura laríngea durante a respiração tranquila.¹¹

Koufman e Blalock (2004)¹² propõem uma classificação de distonias laríngeas na qual descrevem o tremor distônico como uma variação da distonia laríngea de adução, em que as hiperaduições glóticas são rítmicas. Difere do tremor essencial, pois é tipicamente mais focal (geralmente sem envolvimento de outras estruturas do corpo) e tarefa-específico, uma vez que depende de atividade fonatória para seu aparecimento, estando ausente durante a respiração tranquila.

Apesar de haver características próprias entre as síndromes causadoras do tremor vocal, ainda não há um método diagnóstico com especificidade suficiente para diferenciar estas doenças, devido à sobreposição de sinais e sintomas que apresentam.⁵ A existência de um protocolo que contemple as diversas situações na avaliação por nasofibrolaringoscopia, e que permita o estudo do aparelho fonatório o mais próximo possível do estado fisiológico, traria subsídios para a análise

do tremor e sua caracterização clínica. Diante disso, uma das hipóteses deste estudo é que a presença de tremor no aparelho fonatório durante a tarefa emissão /s/ possa diferenciar as síndromes de tremor vocal essencial (tremor presente) e distônico (tremor ausente), partindo do princípio de que esta é uma tarefa não fonatória (emissão sem vibração de pregas vocais), e que o tremor vocal distônico é tarefa dependente, com manifestação do tremor apenas durante a fonação. Diferentemente do tremor vocal essencial, que apresenta o tremor em qualquer ação com manutenção de postura.

O objetivo deste estudo foi desenvolver um protocolo de tarefas específicas para avaliação do tremor vocal por nasofibrolaringoscopia e identificar aquelas que diferenciem fenomenologicamente as síndromes de tremor essencial e distônico.

Método

Casuística

Após aprovação do comitê de ética institucional sob o protocolo de nº 1853/10 e consentimento livre e esclarecido por escrito, este estudo transversal incluiu indivíduos com tremor vocal atendidos no setor de Neurolaringologia de um hospital universitário. A avaliação dos pacientes constou de história clínica, exame físico geral e de cabeça e pescoço, avaliação perceptivo-auditiva da voz e nasofibrolaringoscopia com protocolo de tarefas específicas.

Crítérios de inclusão: (a) pacientes com idade acima de 18 anos; (b) voz trêmula na avaliação perceptivo-auditiva; (c) tremor de estruturas do aparelho fonatório identificado na nasofibrolaringoscopia; (d) queixa de tremor vocal há mais de um ano; (e) ausência de períodos com remissão completa do tremor vocal.

Crítérios de exclusão: (a) tratamento do tremor ou uso de anti-hipertensivos bloqueadores beta-adrenérgicos nos últimos seis meses; (b) paralisia laríngea ou lesões morfológicas no aparelho fonatório; (c) sinais de parkinsonismo ou doença cerebelar; (d) alteração de hormônios tireoidianos.

Protocolo de tarefas específicas

O exame de nasofibrolaringoscopia foi realizado com o paciente em posição sentada, sem anestesia tópica. Três subsítios anatômicos (palato, faringe e laringe) foram observados durante as seguintes tarefas específicas: emissão prolongada dos fonemas (/é/, /i/, /s/, /z/), respiração tranquila e assobio contínuo. As tarefas foram avaliadas, no mínimo, durante 5 segundos. Os fonemas foram emitidos em *pitch* e intensidade confortáveis para o paciente, com exceção do /i/, que foi produzido em falsete. Os exames duraram em média 2 minutos, e foram realizados com endoscópio flexível KayPENTAX modelo FNL-15RP3 sob iluminação halógena contínua, conectado à câmera de vídeo TOSHIBA IK-CU44A e gravados em sistema de vídeo digital.

Avaliação perceptivo-visual do tremor

As imagens em vídeo dos exames de nasofibrolaringoscopia foram editadas com a finalidade de identificar cada tarefa

específica realizada e retirar a faixa de áudio para diminuir o viés de observação. A análise perceptivo-visual dos vídeos, com omissão da identificação dos pacientes, foi realizada por consenso pelos três examinadores otorrinolaringologistas com experiência em Neurolaringologia. Os avaliadores foram instruídos a: (1) verificar a presença ou ausência do tremor em cada subsítio avaliado para cada uma das tarefas propostas no estudo; (2) identificar se há redução na intensidade ou desaparecimento do tremor na tarefa /i/ em falsete em relação à tarefa /é/ (para fins de avaliação, será denominada tarefa redução do tremor no agudo). Não houve limites quanto à repetição dos vídeos para análise pelo examinador.

Os critérios utilizados para considerar a presença do tremor foram: (a) tremor em palato – oscilação rítmica do palato mole; (b) tremor em faringe – constrição rítmica da parede faríngea; (c) tremor vertical de laringe – oscilação rítmica da laringe no plano vertical em relação ao trato aerodigestivo circundante; (d) tremor horizontal de laringe – oscilação rítmica das pregas vocais, pregas vestibulares ou aritenoides no plano horizontal.

Para identificação de tarefas específicas relacionadas às síndromes de tremor, inicialmente, os pacientes foram classificados em tremor essencial e distônico, de acordo com a presença de tremor horizontal de laringe na emissão /s/ e, em seguida, realizou-se a associação deste com as demais tarefas (fonatórias e não fonatórias), a partir das avaliações feitas por consenso entre os três examinadores.

Análise estatística

Na análise descritiva das características da amostra, calcularam-se média, valor mínimo, valor máximo e desvio padrão para variáveis numéricas; e para variáveis categóricas calcularam-se frequências absoluta e relativa. O teste exato de Fisher foi utilizado para identificar associação entre as variáveis categóricas do protocolo. Para conclusões obtidas por meio das análises inferenciais foi utilizado o nível de significância α igual a 5%.

Resultados

A tabela 1 resume as principais características clínicas e demográficas da amostra em estudo.

Os 19 indivíduos incluídos no estudo realizaram as tarefas do protocolo de forma adequada, com exceção de um paciente, que não conseguiu executar o assobio contínuo. Por meio das informações coletadas na avaliação perceptivo-visual do tremor e em consenso entre os três examinadores, 12 pacientes foram classificados como portadores de tremor essencial e sete como tremor distônico, de acordo com a presença ou não de tremor horizontal de laringe na tarefa emissão /s/ (tabela 2).

No estudo da associação entre tremor horizontal de laringe na emissão /s/ e as tarefas não fonatórias (tabela 3), identificou-se uma tendência de que o indivíduo classificado como tremor essencial apresentou com mais frequência tremor horizontal de laringe na tarefa respiração tranquila ($p = 0,057$).

O tremor horizontal de laringe na emissão /s/ esteve fortemente associado ao tremor horizontal de laringe na tarefa assobio contínuo ($p < 0,001$). Na amostra selecionada, os 11 in-

Tabela 1 Análise descritiva das características clínicas e demográficas de indivíduos com tremor vocal da amostra em estudo

<i>Número de indivíduos</i>	19
<i>Gênero, n (%)</i>	
Masculino	2 (10,5%)
Feminino	17 (89,5%)
<i>Idade na avaliação (anos)</i>	
Média e desvio padrão	66,4 ± 13,1
Mínimo-máximo	29-88
<i>Idade no início do tremor (anos)</i>	
Média e desvio padrão	59 ± 15,6
Mínimo-máximo	22-82
<i>Duração do tremor (anos)</i>	
Média e desvio padrão	7,4 ± 5,7
Mínimo-máximo	1-24
<i>Forma de início, n (%)</i>	
Abrupto	1 (5,3%)
Progressivo	18 (94,7%)
<i>Sintomas, n (%)</i>	
Tremor vocal	19 (100%)
Esforço fonatório	15 (78,9%)
Diminuição de intensidade vocal	18 (94,7%)
<i>Fator de melhora do tremor-álcool, n (%)</i>	
Não	14 (73,7%)
Desconhecido	5 (26,3%)
<i>Fatores de piora do tremor, n (%)</i>	
Café	0%
Estresse emocional	13 (68,4%)
Estresse físico	5 (26,3%)
<i>Sítios de tremor, n (%)</i>	
Tremor vocal isolado	10 (52,6%)
Membros	8 (42,1%)
Cabeça	3 (15,8%)
Face	4 (21,1%)

Tabela 2 Descrição da classificação síndrome dos pacientes segundo a presença de tremor horizontal de laringe na emissão /s/

	Tremor horizontal de laringe na emissão /s/	
	Não	Sim
n.º de indivíduos	7	12
Síndrome	Tremor distônico	Tremor essencial

Tabela 3 Associação das síndromes tremor essencial e distônico com a presença de tremor por subsítios em tarefas não fonatórias

Tremor por subsítios em tarefas específicas		Tremor horizontal de laringe na emissão /s/				p
		Não (tremor distônico)		Sim (tremor essencial)		
		n	%	n	%	
<i>Respiração tranquila</i>						
Tremor palato	Não	7	100,00%	8	66,70%	0,245 ^a
	Sim	–	–	4	33,30%	
Tremor faringe	Não	6	85,70%	9	75,00%	>0,999 ^a
	Sim	1	14,30%	3	25,00%	
Tremor vertical de laringe	Não	7	100,00%	12	100,00%	^b
	Sim	–	–	–	–	
Tremor horizontal de laringe	Não	6	85,70%	4	33,30%	0,057 ^a
	Sim	1	14,30%	8	66,70%	
<i>Emissão /s/</i>						
Tremor palato	Não	4	57,10%	4	33,30%	0,377 ^a
	Sim	3	42,90%	8	66,70%	
Tremor faringe	Não	7	100,00%	10	83,30%	0,509 ^a
	Sim	–	–	2	16,70%	
Tremor vertical de laringe	Não	7	100,00%	12	100,00%	^b
	Sim	–	–	–	–	
<i>Assobio contínuo</i>						
Tremor vertical de laringe	Não	7	100,00%	11	100,00%	^b
	Sim	–	–	–	–	
Tremor horizontal de laringe	Não	7	100,00%	–	–	<0,001 ^a
	Sim	–	–	11	100,00%	

^a Nível descritivo do teste exato de Fisher.

^b Nenhum teste estatístico pode ser aplicado.

divíduos (exceto um que não conseguiu realizar a tarefa de assobio contínuo) classificados como tremor essencial apresentaram tremor horizontal de laringe na tarefa assobio contínuo.

Constatou-se, na associação entre tarefas fonatórias e tremor horizontal de laringe na emissão /s/ (tabela 4), que a redução do tremor no agudo em palato ($p = 0,020$), faringe ($p = 0,038$) e horizontal de laringe ($p = 0,002$) foi mais frequente nos pacientes classificados como tremor distônico. Nenhuma outra tarefa fonatória mostrou diferenciar o tremor essencial do distônico.

Discussão

Apesar dos avanços em Neurolaringologia, a distinção entre o tremor vocal essencial e o distônico mantém-se um desafio, com impacto direto na escolha entre as diversas formas de tratamento. Para esta distinção, inúmeros métodos de inves-

tigação têm sido utilizados, dentre eles, a avaliação perceptivo-auditiva da voz, a nasofibrolaringoscopia, as medidas acústicas e a eletromiografia de laringe.^{10,13,14} O ponto em comum nestas avaliações é que geralmente procuram-se particularidades de cada síndrome durante tarefas fonatórias (emissões sonoras com vibração de pregas vocais), justamente a atividade em que as doenças mais se assemelham. A partir desta observação, buscou-se identificar entre diversas tarefas fonatórias e não fonatórias (emissões surdas sem vibração de pregas vocais), aquelas que pudessem representar, por definição, a fenomenologia do tremor aplicada ao aparelho fonatório o conceito básico que rege a sua classificação sindrômica.

A principal característica do tremor distônico é que ele depende de tarefa específica para se manifestar, que, no caso do tremor vocal, é a fonação. Por definição, nestes pacientes o tremor não estaria presente em situações não fonatórias (emissões sem vibração de pregas vocais), mesmo

Tabela 4 Associação das síndromes tremor essencial e distônico com a presença de tremor por subsítios em tarefas fonatórias

Tremor por subsítios em tarefas específicas		Tremor horizontal de laringe na emissão /s/				p
		Não (tremor distônico)		Sim (tremor essencial)		
		n	%	n	%	
<i>Emissão /é/</i>						
Tremor palato	Não	–	–	–	–	^b
	Sim	7	100,00%	12	100,00%	
Tremor faringe	Não	1	14,30%	1	8,30%	>0,999 ^a
	Sim	6	85,70%	11	91,70%	
Tremor vertical de laringe	Não	5	71,40%	7	58,30%	0,656 ^a
	Sim	2	28,60%	5	41,70%	
Tremor horizontal de laringe	Não	–	–	–	–	^b
	Sim	7	100,00%	12	100,00%	
<i>Emissão /i/ em falsete</i>						
Tremor palato	Não	–	–	–	–	^b
	Sim	7	100,00%	12	100,00%	
Tremor faringe	Não	3	42,90%	2	16,70%	0,305 ^a
	Sim	4	57,10%	10	83,30%	
Tremor vertical de laringe	Não	7	100,00%	8	66,70%	0,245 ^a
	Sim	–	–	4	33,30%	
Tremor horizontal de laringe	Não	2	28,60%	–	–	0,123 ^a
	Sim	5	71,40%	12	100,00%	
<i>Redução do tremor no agudo</i>						
Tremor palato	Não	1	14,30%	9	75,00%	0,020 ^a
	Sim	6	85,70%	3	25,00%	
Tremor faringe	Não	3	42,90%	11	91,70%	0,038 ^a
	Sim	4	57,10%	1	8,30%	
Tremor vertical de laringe	Não	5	71,40%	11	91,70%	0,523 ^a
	Sim	2	28,60%	1	8,30%	
Tremor horizontal de laringe	Não	1	14,30%	11	91,70%	0,002 ^a
	Sim	6	85,70%	1	8,30%	
<i>Emissão /z/</i>						
Tremor palato	Não	2	28,60%	–	–	0,137 ^a
	Sim	5	71,40%	11	100,00%	
Tremor faringe	Não	4	57,10%	2	16,70%	0,129 ^a
	Sim	3	42,90%	10	83,30%	
Tremor vertical de laringe	Não	5	71,40%	9	75,00%	>0,999 ^a
	Sim	2	28,60%	3	25,00%	
Tremor horizontal de laringe	Não	1	14,30%	–	–	0,368 ^a
	Sim	6	85,70%	12	100,00%	

^a Nível descritivo do teste exato de Fisher.^b Nenhum teste estatístico pode ser aplicado.

que houvesse ação muscular para manutenção de postura laríngea como acontece durante a emissão /s/. No entanto, pacientes portadores de tremor essencial apresentam o tremor na musculatura quando contraídas, mesmo que apenas para manutenção da posição. Assim, o tremor no aparelho fonatório se apresentaria durante qualquer atividade onde houvesse manutenção de postura, independentemente da fonação, e, portanto, durante a emissão /s/. Dessa forma, a tarefa emissão /s/, que representa um fonema fricativo surdo sem vibração de pregas vocais, mostra-se um divisor de águas entre estas duas síndromes, já que, durante sua realização, os pacientes com tremor distônico não apresentam tremor, enquanto os pacientes com tremor essencial o manifestam. Por esse motivo, esta tarefa foi escolhida para verificar variações e diferenciar os pacientes, classificando-os em síndrome do tremor essencial ou síndrome do tremor distônico, e também identificar associações destes com as diversas tarefas do protocolo (tabela 2).

Ainda não existe consenso sobre a atividade muscular da laringe durante a respiração tranquila. Segundo um relatório do comitê de Neurolaringologia da Academia Americana de Otorrinolaringologia e Cirurgia de Cabeça e Pescoço,¹⁰ durante a respiração ou fonação não existe um verdadeiro repouso na laringe. Estas atividades são melhor definidas como manutenção de postura, o que torna explicável a presença de oscilação das estruturas laríngeas no tremor essencial. Durante a respiração tranquila, foi identificado, nesta casuística, tremor horizontal de laringe em 66,7% dos indivíduos classificados como tremor essencial (tabela 3). Apesar da controvérsia, Hillel (2001),¹¹ a partir de estudos eletromiográficos em indivíduos normais, demonstrou que a musculatura intrínseca da laringe pode se apresentar em repouso durante a respiração tranquila, observação que pode explicar a ausência do tremor em um terço dos pacientes do estudo classificados como tremor essencial. A princípio, não é obrigatória a presença de tremor na respiração tranquila para identificação de tremor vocal do tipo essencial, mas este é um sinal que sugere o diagnóstico como descrito por Koufman e Blalock (2004).¹² Um dos pacientes classificados como tremor distônico também apresentou tremor horizontal de laringe durante a respiração, achado que, de acordo com a literatura, não é esperado, por não ser esta uma atividade que desencadeia postura distônica.^{12,15} Porém, durante a avaliação do músculo tireoaritenóideo por eletromiografia de 13 pacientes com tremor distônico, Hillel (2001)¹¹ também identificou um indivíduo que apresentava atividade rítmica neste músculo durante a respiração tranquila. Além disso, uma manifestação rara, que representa 1% dos casos de distonia laríngea, é a distonia respiratória adutora descrita por Blitzer et al. (1998),¹⁶ na qual as posturas distônicas na laringe estão presentes de forma evidente durante a respiração. Portanto, apesar de ser bastante incomum, eventualmente podem ser encontrados pacientes com tremor distônico que apresentam o tremor horizontal de laringe durante a respiração. Outra explicação para a presença de tremor horizontal de laringe durante a respiração em um paciente classificado como portador de tremor distônico é a possibilidade de uma observação equivocada do tremor nesta tarefa, ou mesmo de um falso negativo no teste da emissão /s/; logo, o diagnóstico correto, neste caso, seria tremor essencial.

A tarefa assobio contínuo foi escolhida para inclusão no protocolo por sua semelhança com a emissão /s/, ou seja, é uma tarefa não fonatória em que há uma evidente manutenção de postura na laringe. Nesta amostra, o tremor horizontal de laringe durante o assobio se mostrou fortemente associado ao tremor horizontal de laringe na emissão /s/, com as duas tarefas apresentando-se sempre de forma igual em relação à presença do tremor (tabela 3). Esta observação confirma que as tarefas realmente são fenomenologicamente semelhantes e somam evidências de que a presença de tremor, nestas situações, sinaliza para o diagnóstico de tremor essencial.

Em 2006, De Biase et al.¹⁷ avaliaram pacientes com distonia laríngea de adução por meio de nasofibrolaringoscopia, e nenhum dos indivíduos apresentou espasmos durante a realização do assobio. Entendendo o tremor distônico como variante da distonia, a expectativa é de que esse também não apresente posturas distônicas (tremor irregular) durante o assobio, assim como foi demonstrado no presente estudo, no qual todos os pacientes classificados como tal não apresentaram tremor. É importante salientar que a realização desta tarefa deve se dar com um assobio contínuo, porque o intermitente apresenta uma movimentação de estruturas laríngeas que interfere na percepção do tremor e não representa manutenção de postura.

A modificação na intensidade dos espasmos de acordo com a variação do *pitch* já foi abordada na literatura em relação à distonia laríngea de adução, na qual a fonação em falsete diminui o estímulo para ocorrência de espasmos.¹⁷ Barkmeier e Case. (2000)¹⁴ descreveram que o *pitch* elevado tem influência direta na redução da magnitude do tremor vocal, e este é consequência do distanciamento das pregas vocais. Quase todos os pacientes do presente estudo, tanto na emissão /é/ quanto na emissão /i/ em falsete, apresentaram tremor horizontal de laringe, sem diferença estatisticamente significativa entre as tarefas, demonstrando que, isoladamente, as mesmas não diferenciam as síndromes de tremor. Entre os pacientes classificados como tremor essencial, 91,7% não apresentaram variação do tremor quando avaliados em tarefas com *pitch* normal e agudo. Contudo, os casos de tremor distônico apresentaram-se associados à redução do tremor na emissão /i/ em relação à emissão /e/ de forma significativa (tabela 4). Portanto, como a emissão /é/ é produzida com uma maior proximidade entre as pregas vocais do que a emissão /i/ em falsete, quanto mais distante a laringe estiver da postura de adução, menores serão as oscilações nos pacientes com tremor distônico.

A emissão /z/ é importante para ratificar que as tarefas fonatórias não são úteis para diferenciar os tipos de tremor, pois apenas um paciente não apresentou tremor horizontal de laringe durante esta atividade (tabela 4). Apesar da semelhança entre as emissões /z/ e /s/, já que as mesmas são consoantes fricativas produzidas no mesmo ponto articulatorio (linguopalatal), elas diferem entre si, já que a primeira ocorre em adução com participação da vibração das pregas vocais (fonatória ou sonora), enquanto a outra não (não fonatória ou surda). Esta única diferença justifica a importância da composição fonética no diagnóstico do tremor distônico, já que a oscilação se apresenta em tarefas sonoras e encontra-se ausente durante tarefas surdas. Evidência de tarefa específica semelhante é encontrada nos pacientes com distonia laríngea de adução, que apresentam piora dos sin-

tomas em sentenças com consoantes sonoras (b, d, g, v, j, z, m, n) e melhora em sentenças com consoantes surdas (p, t, k, f, s, ch).^{18,19} Já nos casos de tremor essencial, a oscilação se apresenta em ambas as tarefas (sonora ou surda).²⁰

Diferentemente das distonias, o tremor vocal essencial geralmente é apresentado como uma doença de manifestação mais generalizada, em que o tremor não é restrito aos músculos intrínsecos da laringe, podendo envolver palato, faringe, língua e músculos articulatórios.¹⁰ Porém, nesta amostra, tanto o palato quanto a faringe apresentaram o tremor nas diversas tarefas, sem diferença significativa entre os grupos, demonstrando que a simples presença do tremor em subsítios extralaringeos não diferencia as síndromes. Inclusive a oscilação vertical de laringe, que sugere tremor da musculatura extrínseca laríngea,²¹ cuja expectativa era a de que se manifestasse principalmente nos casos de tremor essencial, também não se mostrou específica (tabelas 3 e 4). Tal fato poderia caracterizar um envolvimento segmentar, ao invés de focal, nos pacientes com tremor vocal distônico. No entanto, nos subsítios palato e faringe, a única associação encontrada foi a redução do tremor no agudo em pacientes com tremor distônico, semelhante ao ocorrido em relação ao tremor horizontal de laringe. Portanto, nestes pacientes é possível que o tremor apresentado em palato e faringe não seja uma alteração distônica primária destas musculaturas, mas sim secundária à disfunção do subsistema laríngeo, já que a modulação do tremor em todas as estruturas foi influenciada diretamente pela transição entre *pitch* normal e agudo, função eminentemente laríngea. Esta observação sinaliza para a possibilidade de uma interação entre o sistema nervoso central como gerador de tremor e o sistema periférico (neuromuscular), pois uma provável modulação no sistema de aferência termina por modificar o tremor tanto na laringe quanto em outras estruturas, como o palato e a faringe. Estas hipóteses são relativas especificamente ao tremor distônico, já que no tremor essencial não foi identificada modulação da oscilação.

A ausência de exame padrão ouro para análise de tremor vocal dificulta a avaliação da confiabilidade do protocolo proposto. Como discutido previamente, existe possibilidade de equívoco diagnóstico nesta avaliação, como, por exemplo, a presença de falsos negativos ou falsos positivos no exame, e é por isso que se deve evitar estabelecer o diagnóstico a partir da representação do tremor em apenas uma tarefa. Para obter maior credibilidade na definição da entidade nosológica em questão, esta só deve ser determinada quando a manifestação do tremor em diferentes tarefas corresponder fenomenologicamente a uma mesma síndrome de tremor. Nos casos em que a manifestação do tremor nas diferentes tarefas não apontar para uma mesma síndrome, torna-se menos confiável a aplicação deste protocolo para definição diagnóstica.

Apesar de parecer arbitrário classificar o tremor vocal clinicamente por meio da presença do tremor horizontal de laringe na emissão /s/, isso justificável pela fundamentação fenomenológica apresentada neste estudo e pelas associações encontradas nas diversas tarefas, que, em parte, replicam as características tradicionalmente descritas para cada doença. Portanto, a distinção entre tremor vocal essencial e distônico mostra-se exequível, desde que se utilize uma propedêutica adequada, tal como a evidenciada na avaliação do aparelho fonatório por nasofibrolaringoscopia, principalmente durante

tarefas não fonatórias. E, a partir de uma maior acurácia diagnóstica, é possível que tratamentos específicos dirigidos para cada tipo de tremor alcancem melhor resposta terapêutica.

Conclusão

O protocolo de tarefas específicas por nasofibrolaringoscopia é um método viável para diferenciar as síndromes de tremor vocal essencial e distônico. As tarefas com importância significativa nesta distinção são a emissão /s/, assobio contínuo e observação da redução do tremor no agudo.

Financiamento

Este estudo foi conduzido pela Coordenação de Aperfeiçoamento de Pessoal de Nível Superior – CAPES.

Conflitos de interesse

Os autores declaram não haver conflitos de interesse.

Referências

1. Deuschl G, Bain P, Brin M. Consensus statement of the Movement Disorder Society on Tremor. Ad Hoc Scientific Committee. *Mov Disord*. 1998;13:2-23.
2. Koufman JA. Approach to the patient with a voice disorder. *Otolaryngol Clin North Am*. 1991;24:989-98.
3. Deuschl G. Differential diagnosis of tremor. *J Neural Transm Suppl*. 1999;56:211-20.
4. Shukla G, Behari M. A clinical study of non-parkinsonian and non-cerebellar tremor at a specialty movement disorders clinic. *Neurol India*. 2004;52:200-2.
5. Findley LJ, Gresty MA. Head, facial, and voice tremor. *Adv Neurol*. 1988;49:239-53.
6. Wolraich D, Vasile Marchis-Crisan C, Redding N, Khella SL, Mirza N. Laryngeal tremor: co-occurrence with other movement disorders. *ORL J Otorhinolaryngol Relat Spec*. 2010;72:291-4.
7. Schrag A, Munchau A, Bhatia KP, Quinn NP, Marsden CD. Essential tremor: an overdiagnosed condition. *J Neurol*. 2000;247:955-9.
8. Lou JS, Jankovic J. Essential tremor: clinical correlates in 350 patients. *Neurology*. 1991;41:234-8.
9. Koller WC, Busenbark K, Miner K. The relationship of essential tremor to other movement disorders: report on 678 patients. Essential Tremor Study Group. *Ann Neurol*. 1994;35:717-23.
10. Merati AL, Heman-Ackah YD, Abaza M, Altman KW, Sulica L, Belamowicz S. Common movement disorders affecting the larynx: a report from the neurology committee of the AAO-HNS. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2005;133:654-65.
11. Hillel AD. The study of laryngeal muscle activity in normal human subjects and in patients with laryngeal dystonia using multiple fine-wire electromyography. *Laryngoscope*. 2001;111:1-47.
12. Koufman JA, Blalock PD. Classification of laryngeal dystonias [Internet]. North Carolina: Center for Voice Disorders of Wake Forest University; 2004. Disponível em: http://www.thevoice-center.org/class_ld.html [acessado em 8 de agosto de 2004].
13. Aronson AE, Hartman DE. Adductor spastic dysphonia as a sign of essential (voice) tremor. *J Speech Hear Disord*. 1981;46:52-8.

14. Barkmeier JM, Case JL. Differential diagnosis of adductor-type spasmodic dysphonia, vocal tremor, and muscle tension dysphonia. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg*. 2000;8:174-9.
15. Blitzer A, Lovelace RE, Brin MF, Fahn S, Fink ME. Electromyographic findings in focal laryngeal dystonia (spastic dysphonia). *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 1985;94:591-4.
16. Blitzer A, Brin MF, Stewart CF. Botulinum toxin management of spasmodic dysphonia (laryngeal dystonia): a 12-year experience in more than 900 patients. *Laryngoscope*. 1998;108:1435-41.
17. De Biase NG, Lorenzon P, Lebl MD, Padovani M, Gielow I, Madazio G, et al. Adduction laryngeal dystonia: proposal and evaluation of nasofibroscope. *Braz J Otorhinolaryngol*. 2006;72:443-6.
18. Erickson ML. Effects of voicing and syntactic complexity on sign expression in adductor spasmodic dysphonia. *Am J Speech Lang Pathol*. 2003;12:416-24.
19. Roy N, Gouse M, Mauszycki SC, Merrill RM, Smith ME. Task specificity in adductor spasmodic dysphonia versus muscle tension dysphonia. *Laryngoscope*. 2005;115:311-6.
20. Sulica L, Louis ED. Clinical characteristics of essential voice tremor: a study of 34 cases. *Laryngoscope*. 2010;120:516-28.
21. Koda J, Ludlow CL. An evaluation of laryngeal muscle activation in patients with voice tremor. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 1992;107:684-96.