



**HAL**  
open science

# Utilisation du TENS à seuil sensitif dans la dystonie cervicale : étude TENDYS

Jason Becker

► **To cite this version:**

Jason Becker. Utilisation du TENS à seuil sensitif dans la dystonie cervicale : étude TENDYS. Médecine humaine et pathologie. 2020. hal-03805981

**HAL Id: hal-03805981**

**<https://hal.univ-lorraine.fr/hal-03805981>**

Submitted on 7 Oct 2022

**HAL** is a multi-disciplinary open access archive for the deposit and dissemination of scientific research documents, whether they are published or not. The documents may come from teaching and research institutions in France or abroad, or from public or private research centers.

L'archive ouverte pluridisciplinaire **HAL**, est destinée au dépôt et à la diffusion de documents scientifiques de niveau recherche, publiés ou non, émanant des établissements d'enseignement et de recherche français ou étrangers, des laboratoires publics ou privés.



## AVERTISSEMENT

Ce document est le fruit d'un long travail approuvé par le jury de soutenance et mis à disposition de l'ensemble de la communauté universitaire élargie.

Il est soumis à la propriété intellectuelle de l'auteur. Ceci implique une obligation de citation et de référencement lors de l'utilisation de ce document.

D'autre part, toute contrefaçon, plagiat, reproduction illicite encourt une poursuite pénale.

Contact : [ddoc-thesesexercice-contact@univ-lorraine.fr](mailto:ddoc-thesesexercice-contact@univ-lorraine.fr)

## LIENS

Code de la Propriété Intellectuelle. articles L 122. 4

Code de la Propriété Intellectuelle. articles L 335.2- L 335.10

[http://www.cfcopies.com/V2/leg/leg\\_droi.php](http://www.cfcopies.com/V2/leg/leg_droi.php)

<http://www.culture.gouv.fr/culture/infos-pratiques/droits/protection.htm>

# THÈSE

pour obtenir le grade de

## DOCTEUR EN MÉDECINE

Présentée et soutenue publiquement  
dans le cadre du troisième cycle de Médecine Spécialisée

par

Jason BECKER

Le 05 octobre 2020

<p><b>Utilisation du TENS à seuil sensitif dans la dystonie cervicale : étude TENDYS</b></p>
--

**Membres du jury :**

Monsieur le Professeur Marc DEBOUVERIE	Président
Madame la Docteur Solène KRYLOFF-FRISMAND	Juge et Directrice
Madame la Professeure Christine TRANCHANT	Juge
Madame la Professeure Sophie COLNAT-COULBOIS	Juge
Monsieur le Docteur Jean Pierre BLETON	Juge



**Président de l'Université de Lorraine :**  
**Professeur Pierre MUTZENHARDT**

**Doyen de la Faculté de Médecine :**  
**Professeur Marc BRAUN**

**Vice-doyenne**  
Pr Laure JOLY

#### **Assesseurs :**

*Premier cycle* : Dr Nicolas GAMBIER  
*Deuxième cycle* : Pr Marie-Reine LOSSER  
*Troisième cycle* : Pr Laure JOLY  
*Formation à la recherche* : Pr Nelly AGRINIER  
*Relations Grande Région* : Pr Thomas FUCHS-BUDER  
*CUESim* : Pr Stéphane ZUILY  
*SIDES* : Dr Julien BROSEUS  
*Vie Facultaire* : Dr Philippe GUERCI  
*Etudiant* : Mme Audrey MOUGEL

#### **Chargés de mission**

*Docimologie* : Dr Jacques JONAS  
*Orthophonie* : Pr Cécile PARIETTI-WINKLER  
*PACES* : Pr Mathias POUSSEL  
*Relations internationales* : Pr Jacques HUBERT

*Présidente du Conseil de la Pédagogie* : Pr Louise TYVAERT  
*Président du Conseil Scientifique* : Pr Jean-Michel HASCOET

=====

#### **DOYENS HONORAIRES**

Professeur Jacques ROLAND - Professeur Patrick NETTER - Professeur Henry COUDANE

=====

#### **PROFESSEURS HONORAIRES**

Etienne ALIOT - Jean-Marie ANDRE - Alain AUBREGE - Gérard BARROCHE - Alain BERTRAND - Pierre BEY - Marc-André BIGARD - Patrick BOISSEL - Pierre BORDIGONI - Jacques BORRELLY - Michel BOULANGE - Jean-Louis BOUTROY - Laurent BRESLER - Serge BRIANÇON - Jean-Claude BURDIN - Claude BURLET - Daniel BURNEL - Claude CHARDOT - Jean-François CHASSAGNE - François CHERRIER - Henry COUDANE - Jean-Pierre CRANCE - Jean-Pierre DESCHAMPS - Gilbert FAURE - Gérard FIEVE - Bernard FOLIGUET - Jean FLOQUET - Robert FRISCH - Alain GAUCHER - Pierre GAUCHER - Jean-Luc GEORGE - Alain GERARD - Hubert GERARD - Jean-Marie GILGENKRANTZ - Simone GILGENKRANTZ - Gilles GROSDIDIER - François GUILLEMIN - Philippe HARTEMANN - Gérard HUBERT - Claude HURIET - Jean-Pierre KAHN - Gilles KARCHER - Michèle KESSLER - François KOHLER - Pierre LANDES - Pierre LASCOMBES - Marie-Claire LAXENAIRE - Michel LAXENAIRE - Alain LE FAOU - Jacques LECLERE - Pierre LEDERLIN - Bernard LEGRAS - Jean-Pierre MALLIÉ - Philippe MANGIN - François MARCHAL - Jean-Claude MARCHAL - Yves MARTINET - Pierre MATHIEU - Thierry MAY - Michel MERLE - Daniel MOLÉ - Pierre MONIN - Pierre NABET - Patrick NETTER - Jean-Pierre NICOLAS - Francis PENIN - Claude PERRIN - Luc PICARD - François PLENAT - Jean-Marie POLU - Jacques POUREL - Francis RAPHAEL - Antoine RASPILLER - Denis REGENT - Jacques ROLAND - Daniel SCHMITT - Michel SCHMITT - Jean-Luc SCHMUTZ - Michel SCHWEITZER - Daniel SIBERTIN-BLANC - Claude SIMON - Danièle SOMMELET - Jean-François STOLTZ - Michel STRICKER - Gilbert THIBAUT - Paul VERT - Hervé VESPIGNANI - Colette VIDAILHET - Michel VIDAILHET - Jean-Pierre VILLEMOT - Michel WEBER - Denis ZMIROU - Faïez ZANNAD

=====

## PROFESSEURS ÉMÉRITES

Etienne ALIOT - Laurent BRESLER - Serge BRIANÇON - Henry COUDANE - Gilbert FAURE - Alain LE FAOU - Thierry MAY Patrick NETTER - Luc PICARD - François PLENAT - Paul VERT -Jean-Pierre VILLEMOT – Faiez ZANNAD

=====

## PROFESSEURS DES UNIVERSITÉS - PRATICIENS HOSPITALIERS

(Disciplines du Conseil National des Universités)

### 42° Section : MORPHOLOGIE ET MORPHOGENÈSE

#### 1<sup>re</sup> sous-section : (*Anatomie*)

Professeur Marc BRAUN – Professeure Manuela PEREZ

#### 2<sup>e</sup> sous-section : (*Histologie, embryologie et cytogénétique*)

Professeur Christo CHRISTOV

#### 3<sup>e</sup> sous-section : (*Anatomie et cytologie pathologiques*)

Professeur Guillaume GAUCHOTTE

### 43e Section : BIOPHYSIQUE ET IMAGERIE MÉDICALE

#### 1<sup>re</sup> sous-section : (*Biophysique et médecine nucléaire*)

Professeur Pierre-Yves MARIE – Professeur Pierre OLIVIER - Professeur Antoine VERGER

#### 2<sup>e</sup> sous-section : (*Radiologie et imagerie médicale*)

Professeur René ANXIONNAT - Professeur Alain BLUM - Professeur Serge BRACARD – Professeure Valérie CROISÉ - Professeur Jacques FELBLINGER - Professeur Benjamin GORY – Professeur Damien MANDRY - Professeur Pedro GONDIM TEIXEIRA

### 44° Section : BIOCHIMIE, BIOLOGIE CELLULAIRE ET MOLÉCULAIRE, PHYSIOLOGIE ET NUTRITION

#### 1<sup>re</sup> sous-section : (*Biochimie et biologie moléculaire*)

Professeur Jean-Louis GUEANT - Professeur David MEYRE - Professeur Bernard NAMOUR – Professeur Jean-Luc OLIVIER - Professeur Abderrahim OUSSALAH

#### 2<sup>e</sup> sous-section : (*Physiologie*)

Professeur Christian BEYAERT - Professeur Bruno CHENUUEL - Professeur Mathias POUSSEL

#### 3<sup>e</sup> sous-section (*Biologie cellulaire*)

Professeure Véronique DECOT-MAILLERET

#### 4<sup>e</sup> sous-section : (*Nutrition*)

Professeur Didier QUILLIOT - Professeure Rosa-Maria RODRIGUEZ-GUEANT - Professeur Olivier ZIEGLER

### 45° Section : MICROBIOLOGIE, MALADIES TRANSMISSIBLES ET HYGIÈNE

#### 1<sup>re</sup> sous-section : (*Bactériologie – virologie ; hygiène hospitalière*)

Professeur Alain LOZNIEWSKI – Professeure Evelyne SCHVOERER

#### 2<sup>e</sup> sous-section : (*Parasitologie et Mycologie*)

Professeure Marie MACHOUART

#### 3<sup>e</sup> sous-section : (*Maladies infectieuses ; maladies tropicales*)

Professeure Céline PULCINI - Professeur Christian RABAUD

### 46° Section : SANTÉ PUBLIQUE, ENVIRONNEMENT ET SOCIÉTÉ

#### 1<sup>re</sup> sous-section : (*Épidémiologie, économie de la santé et prévention*)

Professeure Nelly AGRINIER - Professeur Francis GUILLEMIN

#### 4<sup>e</sup> sous-section : (*Biostatistiques, informatique médicale et technologies de communication*)

Professeure Eliane ALBUSSON - Professeur Nicolas JAY

### 47° Section : CANCÉROLOGIE, GÉNÉTIQUE, HÉMATOLOGIE, IMMUNOLOGIE

#### 1<sup>re</sup> sous-section : (*Hématologie ; transfusion*)

Professeur Pierre FEUGIER

#### 2<sup>e</sup> sous-section : (*Cancérologie ; radiothérapie*)

Professeur Thierry CONROY - Professeur Frédéric MARCHAL - Professeur Didier PEIFFERT – Professeur Guillaume VOGIN

#### 3<sup>e</sup> sous-section : (*Immunologie*)

Professeur Marcelo DE CARVALHO-BITTENCOURT - Professeure Marie-Thérèse RUBIO

#### 4<sup>e</sup> sous-section : (*Génétique*)

Professeur Philippe JONVEAUX - Professeur Bruno LEHEUP

## **48° Section : ANESTHÉSIOLOGIE, RÉANIMATION, MÉDECINE D'URGENCE, PHARMACOLOGIE ET THÉRAPEUTIQUE**

### **1<sup>re</sup> sous-section : (*Anesthésiologie-réanimation et médecine péri-opératoire*)**

Professeur Gérard AUDIBERT - Professeur Hervé BOUAZIZ - Professeur Thomas FUCHS-BUDER  
Professeure Marie-Reine LOSSER - Professeur Claude MEISTELMAN

### **2<sup>e</sup> sous-section : (*Médecine intensive-réanimation*)**

Professeur Pierre-Édouard BOLLAERT - Professeur Sébastien GIBOT - Professeur Bruno LÉVY –  
Professeur Antoine KIMMOUN

### **3<sup>e</sup> sous-section : (*Pharmacologie fondamentale ; pharmacologie clinique ; addictologie*)**

Professeur Pierre GILLET - Professeur Jean-Yves JOUZEAU

### **4<sup>e</sup> sous-section : (*Thérapeutique-médecine de la douleur ; addictologie*)**

Professeur Nicolas GIRERD - Professeur François PAILLE - Professeur Patrick ROSSIGNOL

### **5<sup>e</sup> sous-section : (*Médecine d'urgence*)**

Professeur Tahar CHOUIHED

## **49° Section : PATHOLOGIE NERVEUSE ET MUSCULAIRE, PATHOLOGIE MENTALE, HANDICAP ET RÉÉDUCATION**

### **1<sup>re</sup> sous-section : (*Neurologie*)**

Professeur Marc DEBOUVERIE - Professeur Louis MAILLARD - Professeur Sébastien RICHARD –  
Professeur Luc TAILLANDIER Professeure Louise TYVAERT

### **2<sup>e</sup> sous-section : (*Neurochirurgie*)**

Professeur Thierry CIVIT - Professeure Sophie COLNAT-COULBOIS - Professeur Olivier KLEIN

### **3<sup>e</sup> sous-section : (*Psychiatrie d'adultes ; addictologie*)**

Professeur Vincent LAPREVOTE - Professeur Raymund SCHWAN

### **4<sup>e</sup> sous-section : (*Pédopsychiatrie ; addictologie*)**

Professeur Bernard KABUTH

### **5<sup>e</sup> sous-section : (*Médecine physique et de réadaptation*)**

Professeur Jean PAYSANT

## **50° Section : PATHOLOGIE OSTÉO-ARTICULAIRE, DERMATOLOGIE ET CHIRURGIE PLASTIQUE**

### **1<sup>re</sup> sous-section : (*Rhumatologie*)**

Professeure Isabelle CHARY-VALCKENAERE - Professeur Damien LOEUILLE

### **2<sup>e</sup> sous-section : (*Chirurgie orthopédique et traumatologique*)**

Professeur Laurent GALOIS - Professeur Didier MAINARD - Professeur François SIRVEAUX

### **3<sup>e</sup> sous-section : (*Dermato-vénéréologie*)**

Professeure Anne-Claire BURSZTEJN

### **4<sup>e</sup> sous-section : (*Chirurgie plastique, reconstructrice et esthétique ; brûlologie*)**

Professeur François DAP - Professeur Gilles DAUTEL - Professeur Etienne SIMON

## **51° Section : PATHOLOGIE CARDIO-RESPIRATOIRE ET VASCULAIRE**

### **1<sup>re</sup> sous-section : (*Pneumologie ; addictologie*)**

Professeur Jean-François CHABOT - Professeur Ari CHAOUAT

### **2<sup>e</sup> sous-section : (*Cardiologie*)**

Professeur Edoardo CAMENZIND - Professeur Christian de CHILLOU DE CHURET –  
Professeur Yves JUILLIERE -

Professeur Batric POPOVIC - Professeur Nicolas SADOUL

### **3<sup>e</sup> sous-section : (*Chirurgie thoracique et cardiovasculaire*)**

Professeur Juan-Pablo MAUREIRA - Professeur Stéphane RENAUD

### **4<sup>e</sup> sous-section : (*Chirurgie vasculaire ; médecine vasculaire*)**

Professeur Sergueï MALIKOV - Professeur Denis WAHL – Professeur Stéphane ZUILY

## **52° Section : MALADIES DES APPAREILS DIGESTIF ET URINAIRE**

### **1<sup>re</sup> sous-section : (*Gastroentérologie ; hépatologie ; addictologie*)**

Professeur Jean-Pierre BRONOWICKI - Professeur Laurent PEYRIN-BIROULET

### **2<sup>e</sup> sous-section : (*Chirurgie viscérale et digestive*)**

Professeur Ahmet AYAV - Professeur Laurent BRUNAUD – Professeure Adeline GERMAIN

### **3<sup>e</sup> sous-section : (*Néphrologie*)**

Professeur Luc FRIMAT - Professeure Dominique HESTIN

### **4<sup>e</sup> sous-section : (*Urologie*)**

Professeur Pascal ESCHWEGE - Professeur Jacques HUBERT

**53° Section : MÉDECINE INTERNE, GÉRIATRIE ET MÉDECINE GÉNÉRALE**

**1<sup>re</sup> sous-section : (Médecine interne ; gériatrie et biologie du vieillissement ; addictologie)**

Professeur Athanase BENETOS - Professeur Jean-Dominique DE KORWIN - Professeure Gisèle KANNY  
Professeure Christine PERRET-GUILLAUME – Professeur Roland JAUSSAUD – Professeure Laure JOLY

**3° sous-section : (Médecine générale)**

Professeur Jean-Marc BOIVIN - Professeur Paolo DI PATRIZIO

**54° Section : DÉVELOPPEMENT ET PATHOLOGIE DE L'ENFANT, GYNÉCOLOGIE-OBSTÉTRIQUE, ENDOCRINOLOGIE ET REPRODUCTION**

**1<sup>re</sup> sous-section : (Pédiatrie)**

Professeur Pascal CHASTAGNER - Professeur François FEILLET - Professeur Jean-Michel HASCOET -  
Professeur Cyril SCHWEITZER

**2° sous-section : (Chirurgie infantile)**

Professeur Pierre JOURNEAU - Professeur Jean-Louis LEMELLE

**3° sous-section : (Gynécologie-obstétrique ; gynécologie médicale)**

Professeur Philippe JUDLIN - Professeur Olivier MOREL

**4° sous-section : (Endocrinologie, diabète et maladies métaboliques ; gynécologie médicale)**

Professeur Bruno GUERCI - Professeur Marc KLEIN - Professeur Georges WERYHA

**55° Section : PATHOLOGIE DE LA TÊTE ET DU COU**

**1<sup>re</sup> sous-section : (Oto-rhino-laryngologie)**

Professeur Roger JANKOWSKI - Professeure Cécile PARIETTI-WINKLER - Professeure Cécile RUMEAU

**2° sous-section : (Ophtalmologie)**

Professeure Karine ANGIOI - Professeur Jean-Paul BERROD

**3° sous-section : (Chirurgie maxillo-faciale et stomatologie)**

Professeure Muriel BRIX

=====

**PROFESSEURS DES UNIVERSITÉS**

**61° Section : GÉNIE INFORMATIQUE, AUTOMATIQUE ET TRAITEMENT DU SIGNAL**

Professeur Walter BLONDEL

**64° Section : BIOCHIMIE ET BIOLOGIE MOLÉCULAIRE**

Professeure Sandrine BOSCHI-MULLER - Professeur Pascal REBOUL

**65° Section : BIOLOGIE CELLULAIRE**

Professeure Céline HUSELSTEIN

**66° Section : PHYSIOLOGIE**

Professeur Nguyen TRAN

=====

**PROFESSEUR ASSOCIÉ DE MÉDECINE GÉNÉRALE**

**53° Section, 3° sous-section : (Médecine générale)**

Professeure associée Sophie SIEGRIST

Professeur associé Olivier BOUCHY

=====

**MAÎTRES DE CONFÉRENCES DES UNIVERSITÉS - PRATICIENS HOSPITALIERS**

**42° Section : MORPHOLOGIE ET MORPHOGENÈSE**

**1<sup>re</sup> sous-section : (Anatomie)**

Docteur Bruno GRIGNON

**2° sous-section : (Histologie, embryologie, et cytogénétique)**

Docteure Isabelle KOSCINSKI

**44° Section : BIOCHIMIE, BIOLOGIE CELLULAIRE ET MOLÉCULAIRE, PHYSIOLOGIE ET NUTRITION**

**1<sup>re</sup> sous-section : (Biochimie et biologie moléculaire)**

Docteure Shyue-Fang BATTAGLIA - Docteure Sophie FREMONT - Docteure Isabelle GASTIN –

Docteure Catherine MALAPLATE - Docteur Marc MERTEN

**2° sous-section : (Physiologie)**

Docteure Silvia DEMOULIN-ALEXIKOVA - Docteur Jacques JONAS

**45° Section : MICROBIOLOGIE, MALADIES TRANSMISSIBLES ET HYGIÈNE**

**1<sup>re</sup> sous-section :** (*Bactériologie – Virologie ; hygiène hospitalière*)

Docteure Corentine ALAUZET - Docteure Hélène JEULIN - Docteure Véronique VENARD

**2° sous-section :** (*Parasitologie et mycologie*)

Docteure Anne DEBOURGOGNE

**46° Section : SANTÉ PUBLIQUE, ENVIRONNEMENT ET SOCIÉTÉ**

**1<sup>re</sup> sous-section :** (*Epidémiologie, économie de la santé et prévention*)

Docteur Cédric BAUMANN - Docteure Frédérique CLAUDOT - Docteur Alexis HAUTEMANIÈRE

Docteur Arnaud FLORENTIN - Docteur Jonathan EPSTEIN (stagiaire)

**2° sous-section** (*Médecine et Santé au Travail*)

Docteure Isabelle THAON

**47° Section : CANCÉROLOGIE, GÉNÉTIQUE, HÉMATOLOGIE, IMMUNOLOGIE**

**1<sup>re</sup> sous-section :** (*Hématologie ; transfusion*)

Docteur Julien BROSEUS – Docteure Maud D'AVENI

**2° sous-section :** (*Cancérologie ; radiothérapie*)

Docteure Lina BOLOTINE

**3° sous-section :** (*Immunologie*)

Docteure Alice AARNINK

**4° sous-section :** (*Génétique*)

Docteure Céline BONNET - Docteure Mathilde RENAUD (stagiaire)

**48° Section : ANESTHÉSIOLOGIE, RÉANIMATION, MÉDECINE D'URGENCE, PHARMACOLOGIE ET THÉRAPEUTIQUE**

**1° sous-section :** (*Anesthésiologie-réanimation et médecine péri-opératoire*)

Docteur Philippe GUERCI

**3° sous-section :** (*Pharmacologie fondamentale ; pharmacologie clinique ; addictologie*)

Docteur Nicolas GAMBIER - Docteure Françoise LAPICQUE - Docteur Julien SCALA-BERTOLA

**49° Section : PATHOLOGIE NERVEUSE ET MUSCULAIRE, PATHOLOGIE MENTALE, HANDICAP ET RÉÉDUCATION**

**2° sous-section :** (*Neurochirurgie*)

Docteur Fabien RECH

**3° sous-section :** (*Psychiatrie d'adultes ; addictologie*)

Docteur Thomas SCHWITZER

**4° sous-section :** (*Pédopsychiatrie ; addictologie*)

Docteur Fabienne ROUYER-LIGIER (stagiaire)

**50° Section : PATHOLOGIE OSTÉO-ARTICULAIRE, DERMATOLOGIE ET CHIRURGIE PLASTIQUE**

**4° sous-section :** (*Chirurgie plastique, reconstructrice et esthétique ; brûlologie*)

Docteure Laetitia GOFFINET-PLEUTRET

**51° Section : PATHOLOGIE CARDIO-RESPIRATOIRE ET VASCULAIRE**

**3° sous-section :** (*Chirurgie thoracique et cardio-vasculaire*)

Docteur Fabrice VANHUYSE

**4° sous-section :** (*Chirurgie vasculaire ; Médecine vasculaire*)

Docteure Nicla SETTEMBRE

**52° Section : MALADIES DES APPAREILS DIGESTIF ET URINAIRE**

**1<sup>re</sup> sous-section :** (*Gastroentérologie ; hépatologie ; addictologie*)

Docteur Anthony LOPEZ

**54° Section : DEVELOPPEMENT ET PATHOLOGIE DE L'ENFANT, GYNECOLOGIE-OBSTETRIQUE, ENDOCRINOLOGIE ET REPRODUCTION**

**1° sous-section :** (*Pédiatrie*)

Docteure Cécile POCHON (stagiaire)

**4° sous-section :** (*Endocrinologie, diabète et maladies métaboliques ; Gynécologie médicale*)

Docteure Eva FEIGERLOVA

**5° sous-section :** (*Biologie et médecine du développement et de la reproduction ; gynécologie médicale*)

Docteur Mikaël AGOPIANTZ

**55° Section : PATHOLOGIE DE LA TÊTE ET DU COU**

**1<sup>re</sup> sous-section :** (*Oto-Rhino-Laryngologie*)

Docteur Patrice GALLET



=====

## MAÎTRES DE CONFÉRENCES

### 5<sup>e</sup> Section : SCIENCES ÉCONOMIQUES

Monsieur Vincent LHUILLIER

### 7<sup>e</sup> Section : SCIENCES DU LANGAGE : LINGUISTIQUE ET PHONETIQUE GENERALES

Madame Christine DA SILVA-GENEST

### 19<sup>e</sup> Section : SOCIOLOGIE, DÉMOGRAPHIE

Madame Joëlle KIVITS

### 63<sup>e</sup> Section : GÉNIE ÉLECTRIQUE, ÉLECTRONIQUE, PHOTONIQUE ET SYSTÈMES

Madame Pauline SOULET LEFEBVRE (stagiaire)

### 64<sup>e</sup> Section : BIOCHIMIE ET BIOLOGIE MOLÉCULAIRE

Madame Marie-Claire LANHERS - Monsieur Nick RAMALANJAONA

### 65<sup>e</sup> Section : BIOLOGIE CELLULAIRE

Madame Nathalie AUCHET - Madame Natalia DE ISLA-MARTINEZ - Monsieur Christophe NEMOS

### 69<sup>e</sup> Section : NEUROSCIENCES

Madame Sylvie MULTON

=====

## MAÎTRES DE CONFÉRENCES ASSOCIÉS DE MÉDECINE GÉNÉRALE

### 53<sup>e</sup> Section, 3<sup>e</sup> sous-section : (*Médecine générale*)

Docteur Cédric BERBE

=====

## DOCTEURS HONORIS CAUSA

Professeur Charles A. BERRY (1982)  
*Centre de Médecine Préventive, Houston (U.S.A)*  
Professeur Pierre-Marie GALETTI (1982)  
*Brown University, Providence (U.S.A)*  
Professeure Mildred T. STAHLMAN (1982)  
*Vanderbilt University, Nashville (U.S.A)*  
Professeur Théodore H. SCHIEBLER (1989)  
*Institut d'Anatomie de Würzburg (R.F.A)*  
Professeur Mashaki KASHIWARA (1996)  
*Research Institute for Mathematical Sciences de  
Kyoto (JAPON)*

Professeur Ralph GRÄSBECK (1996)  
*Université d'Helsinki (FINLANDE)*  
Professeur Duong Quang TRUNG (1997)  
*Université d'Hô Chi Minh-Ville  
(VIËTNAM)*  
Professeur Daniel G. BICHET (2001)  
*Université de Montréal (Canada)*  
Professeur Marc LEVENSTON (2005)  
*Institute of Technology, Atlanta (USA)*

Professeur Brian BURCHELL (2007)  
*Université de Dundee (Royaume-Uni)*  
Professeur Yunfeng ZHOU (2009)  
*Université de Wuhan (CHINE)*  
Professeur David ALPERS (2011)  
*Université de Washington (U.S.A)*  
Professeur Martin EXNER (2012)  
*Université de Bonn (ALLEMAGNE)*

## **REMERCIEMENTS**

**À notre Maître et Président du Jury**

**Monsieur le Professeur Marc DEBOUVERIE**

Professeur des Universités – Praticien Hospitalier de Neurologie

Tout ma gratitude pour votre accueil, enseignement, investissement et dévouement auprès des internes. Votre accessibilité reste pour moi exemplaire, et c'est un privilège que de travailler à vos côtés.

Vous me faites l'honneur de présider et juger ce travail.

**À notre Maître et Directrice de Thèse**

**Madame le Docteur Solène KRYLOFF-FRISMAND**

Docteur en Neurologie

Je te remercie pour ce très beau sujet de thèse, ta patience, tes encouragements, le partage de ton savoir. Ce fut un honneur et un véritable plaisir de t'avoir pour mentor.

Merci de me faire l'honneur de juger ce travail.

## **À nos Maîtres et Juges**

### **Madame la Professeure Christine TRANCHANT**

Professeur des Universités – Praticien hospitalier de Neurologie

### **Madame la Professeure Sophie COLNAT-COULBOIS**

Professeur des Universités – Praticien Hospitalier de Neurochirurgie

### **Monsieur le Docteur Jean Pierre BLETON**

Docteur en Sciences du Mouvement Humain

Tout mon respect pour votre expertise dans le domaine des mouvements anormaux.  
Merci de l'intérêt que vous portez au sujet et de la disponibilité que vous avez manifestée pour participer à ce jury.

Je vous remercie de l'honneur que vous me faites d'accepter de juger ce travail.

À l'ensemble des médecins des services de neurologie de Nancy, Metz et Épinal pour votre partage d'expérience, disponibilité, patience, et bienveillance. Une dédicace particulière au Dr Lonchamp pour sa collaboration dans le recrutement de patients.

À l'équipe médicale du service de neurologie « Mouvements anormaux » de Strasbourg lors de mon passage en tant qu'externe, pour cette expérience inoubliable et pour m'avoir transmis la passion de la neurologie.

Au Dr Epstein, pour votre expertise dans la rigueur statistique et méthodologique.

À mes compagnons de galère et co-internes tout particulièrement en neurologie, pour votre soutien, la cohésion de groupe, la franche camaraderie.

À toute l'équipe cadre, infirmière, aide-soignante, paramédicale et aux secrétaires, tant de Nancy, de Metz que d'Épinal, pour votre travail formidable et indispensable, pour avoir rendu la vie d'interne plus riche de rencontres.

À tous les patients pour leur patience, leur disponibilité, leur reconnaissance, leur courage et ce contact humain si précieux.

À ma famille, tout particulièrement mes parents, mes deux sœurs et mes grands-parents pour votre amour, éducation, soutien et présence.

À mes amis de tous horizons pour avoir toujours été là.

À Dieu, pour la vie.

## SERMENT D'HIPPOCRATE

« Au moment d'être admis à exercer la médecine, je promets et je jure d'être fidèle aux lois de l'honneur et de la probité. Mon premier souci sera de rétablir, de préserver ou de promouvoir la santé dans tous ses éléments, physiques et mentaux, individuels et sociaux. Je respecterai toutes les personnes, leur autonomie et leur volonté, sans aucune discrimination selon leur état ou leurs convictions. J'interviendrai pour les protéger si elles sont affaiblies, vulnérables ou menacées dans leur intégrité ou leur dignité. Même sous la contrainte, je ne ferai pas usage de mes connaissances contre les lois de l'humanité. J'informerai les patients des décisions envisagées, de leurs raisons et de leurs conséquences. Je ne tromperai jamais leur confiance et n'exploiterai pas le pouvoir hérité des circonstances pour forcer les consciences. Je donnerai mes soins à l'indigent et à quiconque me les demandera. Je ne me laisserai pas influencer par la soif du gain ou la recherche de la gloire.

Admis dans l'intimité des personnes, je tairai les secrets qui me sont confiés. Reçu à l'intérieur des maisons, je respecterai les secrets des foyers et ma conduite ne servira pas à corrompre les mœurs. Je ferai tout pour soulager les souffrances. Je ne prolongerai pas abusivement les agonies. Je ne provoquerai jamais la mort délibérément.

Je préserverai l'indépendance nécessaire à l'accomplissement de ma mission. Je n'entreprendrai rien qui dépasse mes compétences. Je les entretiendrai et les perfectionnerai pour assurer au mieux les services qui me seront demandés.

J'apporterai mon aide à mes confrères ainsi qu'à leurs familles dans l'adversité.

Que les hommes et mes confrères m'accordent leur estime si je suis fidèle à mes promesses ; que je sois déshonoré et méprisé si j'y manque ».

# TABLE DES MATIÈRES

<b>AVANT-PROPOS</b> .....	15
<b>LISTE DES ABRÉVIATIONS</b> .....	17
<b>1. INTRODUCTION</b> .....	19
1.1. La dystonie cervicale.....	19
1.1.1. Caractérisation et définition.....	19
1.1.2. Épidémiologie.....	21
1.1.3. Physiopathologie.....	22
1.1.4. Démarche diagnostique et suivi.....	24
1.1.5. Traitements pharmacologiques et chirurgicaux.....	27
1.1.6. Approches non médicamenteuses .....	29
1.2. Le TENS .....	30
1.2.1. Principe.....	30
1.2.2. Indications .....	33
1.2.3. Contre-indications .....	33
1.2.4. Conditions de prescription et d'utilisation .....	33
1.2.5. Impact médico-économique .....	35
1.3. TENS & dystonie .....	36
1.3.1. Le point commun : la douleur .....	36
1.3.2. Des promesses .....	37
1.3.3. Des réticences .....	38
1.3.4. Un besoin de preuves .....	38
<b>2. ARTICLE ORIGINAL</b> .....	39
2.1. Introduction.....	39
2.2. Methods.....	39
2.2.1. Study design.....	39
2.2.2. Population.....	40
2.2.3. TENS.....	41
2.2.4. Outcome measures.....	41
2.2.5. Statistical analysis .....	42

2.3.	Results .....	43
2.3.1.	Characteristics of CD population .....	43
2.3.2.	Primary outcome .....	46
2.3.3.	Secondary outcome.....	46
2.3.4.	TENS' use pattern .....	48
2.4.	Discussion .....	49
2.5.	Conclusion.....	50
<b>3.</b>	<b>DISCUSSION .....</b>	<b>51</b>
3.1.	Apports de l'étude.....	51
3.1.1.	TENS dans la dystonie cervicale .....	51
3.1.2.	La prise en charge globale du patient dystonique .....	52
3.2.	Forces et limites de l'étude.....	53
3.2.1.	Validité interne .....	53
3.2.2.	Validité externe.....	54
3.2.3.	Applicabilité.....	54
<b>4.</b>	<b>CONCLUSION .....</b>	<b>56</b>
4.1.	TENS et dystonie, tordre le cou aux préjugés.....	56
4.2.	Ouverture .....	56
<b>5.</b>	<b>BIBLIOGRAPHIE .....</b>	<b>57</b>
<b>6.</b>	<b>ANNEXES .....</b>	<b>65</b>
6.1.	Différence de score TWSTRS Total entre T1 et T3.....	65
6.2.	Évolution du score TWSTRS Total sous TENS en fonction du score TWSTRS Total initial.....	66
6.3.	Évolution du score TWSTRS Total sous TENS en fonction du score PNRS initial. .....	67
6.4.	Caractéristiques de la douleur cervicale chez les patients dystoniques.....	68
6.5.	Score Toronto Western Spasmodic Torticollis Rating Scale (TWSTRS).....	69
6.6.	Grille de notation TWSTRS.....	73
6.7.	Protocole d'examen vidéo TWSTRS .....	74



## AVANT-PROPOS

Si la thèse constitue un moment phare pour le médecin en devenir, elle n'est que la partie émergée d'un passé, de rencontres, et surtout d'une passion.

Cette dernière s'est développée dès mes débuts dans la scolarité française, nourrie par la gratification apportée par chaque nouvelle connaissance acquise et sa mise en pratique. La soif d'apprendre s'est aiguisée au fil du temps. Puis c'est pour les sciences de la vie que mon attrait s'est porté, fasciné par la complexité de l'être vivant, animal en particulier. L'esprit scientifique s'est alors invité, outil devenu indispensable à la compréhension et à la rigueur dans cette quête de vérité.

Les études médicales se sont naturellement imposées comme la voie la plus en adéquation avec mes attentes. Le plaisir éprouvé au contact de l'humain, le service du prochain, le travail en équipe n'ont fait que confirmer l'orientation. Restait le choix de la spécialité...

C'est lors d'un stage en tant qu'externe dans le service strasbourgeois coordonné par le Pr Tranchant que s'est faite la rencontre avec la discipline neurologique. La place donnée à la sémiologie et à la corrélation anatomo-clinique, la diversité des pathologies abordées, le mystère entourant encore de nombreux aspects du fonctionnement névralgique éveillèrent en moi un coup de cœur pour la neurologie. Restait à franchir le concours classant national de médecine, qui fort heureusement m'accorda l'accès à la discipline désirée, en région nancéenne.

Le domaine des mouvements anormaux, vaste et méconnu de beaucoup de praticiens, offre un terrain d'investigation clinique et scientifique à la fois complexe et transversal, ainsi qu'un défi thérapeutique. Mon choix de sujet de thèse s'y est donc rapidement porté, sous le regard bienveillant de ma directrice de thèse.

Je vous laisse en apprécier le fruit, avec l'espoir qu'il permettra d'avancer dans cette quête d'aider son prochain, et peut-être saura susciter une passion chez quelque lecteur attentif.

## TABLE DES FIGURES

Figure 1 : Représentation schématique des circuits des ganglions de la base et de leurs modifications dans le cadre de la dystonie (1). .....	23
Figure 2 : Représentation des formes classiques de dystonie cervicale.(21) .....	26
Figure 3 : Mécanisme d'action de la toxine botulique (32) .....	28
Figure 4 : Modèle révisé du « gate control » de Melzack et Wall en 1965 (57).....	32
Figure 5 : Illustration des contrôles supraspinaux de la douleur selon Fields & Basbaum en 1978 (57) .....	32
Figure 6 : Study design. Stethoscopes represent cervical dystonia testing according to TWTRS and PNRs.....	40
. Figure 7 : Flow Chart.....	46
Figure 8 : TWSTRS Total score at T1 and T3 in subjects who completed study (n=15)...	47

## **TABLE DES TABLEAUX**

Tableau 1 : Baseline characteristics.....	45
Tableau 2 : TWSTRS subscore variations between T1 and T3..	47
Tableau 3 : TENS use pattern.....	48

## **LISTE DES ABRÉVIATIONS**

AMADYS : association des malades atteints de dystonie

ATP : adénosine triphosphate

BoNT : botulinum neurotoxin

CD : cervical dystonia

CEPP : commission d'évaluation des produits et prestations

CEPS : Comité économique des produits de santé

CI : confidence interval

DC : dystonie cervicale

DMCI : différence minimale cliniquement importante

EFNS : European Federation of the Neurological Societies

EN : échelle numérique d'évaluation de la douleur

IC : intervalle de confiance

IPMDS : International Parkinson and Movement Disorder Society

HAS : Haute Autorité de Santé

LPPR : liste des produits et prestations remboursables

MCIC : minimal clinically important change

NMES : neuromuscular electrical stimulation

PNRS : Pain Numeric Rating Scale

TENS : transcutaneous electrical nerve stimulation

TMS : transcranial magnetic stimulation (rTMS = repetitive TMS)

TWSTRS : Toronto Western Spasmodic Torticollis Rating Scale

# 1. INTRODUCTION

## 1.1. La dystonie cervicale

### 1.1.1. Caractérisation et définition

Commençons par situer la dystonie cervicale (DC) dans le vaste champ des mouvements anormaux.

La dystonie est un mouvement anormal hyperkinétique. Elle est définie par des contractions musculaires continues (toniques) ou intermittentes (phasiques ou cloniques), répétitives et stéréotypées pour un même patient. Accentuée ou déclenchée par les mouvements volontaires et le stress, elle disparaît durant le sommeil et peut être soulagée par un geste antagoniste (action volontaire non forcée dirigée vers le site dystonique permettant de soulager transitoirement la dystonie), très évocateur du diagnostic. S'y associent volontiers un phénomène d'« *overflow* » (diffusion de la contraction musculaire à des muscles non impliqués dans le mouvement dystonique), un réflexe des raccourcisseurs (contraction du muscle raccourci en réponse à l'étirement de son antagoniste)(1).

D'après la classification internationale des syndromes dystoniques selon l'IPMDS, publiée par Albanese et al. en 2013 (2) la dystonie peut être décrite suivant deux axes.

- Les caractéristiques cliniques
  - L'âge de début (petite enfance  $\leq 2$  ans – enfance 3-12 ans - adolescence 13-20 ans – jeune adulte 21-40 ans – adulte  $\geq 40$  ans).
  - La distribution topographique ( focale = une région, segmentaire =  $\geq 2$  régions adjacentes, multifocale =  $\geq 2$  régions non adjacentes, généralisée = membre inférieur et tronc et autre région)
  - Le profil temporel (statique/progressif, persistant/déclenché à l'action)
  - La coexistence d'autres mouvements anormaux
  - L'apparition de manifestations neurologiques ou systémiques (syndrome cérébelleux, extrapyramidal)

- L'étiologie
  - Héritaire (génétique autosomique, liée à l'X, mitochondriale)
  - Acquis (lésionnelle vasculaire, traumatique, anoxique)
  - Idiopathique (cause inconnue, sporadique ou familial)

La DC constitue l'une des formes focales de dystonie. Elle est le plus souvent idiopathique (dite « primaire »), au même titre que le blépharospasme ou les dystonies de fonctions (crampe de l'écrivain, crampe du musicien)(3).

### **TERMINOLOGIE**

#### **« Torticolis spasmodique »**

Terme introduit à la fin du 19<sup>ème</sup> siècle, il est remis en question suite à l'article de Chan et al. en 1991 (4) qui décrit le terme comme trop restrictif car ne décrivant qu'un sous-groupe de DC. Ainsi, une composante spasmodique (comportant des accès intermittents et incontrôlables de contracture musculaires) est présente dans seulement 62% des cas. Par ailleurs bien que 97% des DC ont une composante rotationnelle (« torti- »), seuls 18% le sont purement, le reste étant associé à une autre déviation (« latéro- » pour indiquer une inclinaison, « rétro- » pour une bascule postérieure, « anté- » pour une bascule antérieure, « pro- » un glissement antérieur). Enfin, le terme « -colis » décrit une dystonie n'impliquant que le cou, alors que cette dernière peut concerner la tête (« -caput »). Nous recommandons donc l'usage plus pertinent du nom « dystonie cervicale ».

#### **« Dystonie primaire »**

Pour certains synonyme de « pure, isolée » dans son sens phénotypique (non associée à d'autre anomalie clinique), pour d'autres associé aux formes « sans étiologie retrouvée » (par opposition à « secondaire »), le terme s'avère rapidement être source de confusion. Les limites d'une telle définition s'accroissent avec la mise en évidence de comorbidités non motrices (sensitives, psychiatriques) et de nouveaux facteurs génétiques (5). Pour ces raisons seront préférés les descriptifs « isolée » ou « idiopathique ».

### 1.1.2. Épidémiologie

La DC représente la forme la plus fréquente des dystonies focales primaires de l'adulte(6,7). Selon une revue systématique de la littérature par Defazio et al. en 2013 (8), l'incidence en population générale est estimée entre 0,8 et 1,2 cas pour 100 000 personnes-années, la prévalence entre 2,8 et 18,3 cas pour 100 000 personnes. Ces chiffres pourraient être sous-estimés par un retard diagnostique. Selon une étude canadienne en 2015 portant sur 866 patients dont 51,6% avec DC, il fallait attendre en moyenne 5,6 ans entre l'apparition des symptômes et le diagnostic. L'une des raisons à ce retard était l'attribution dans 34% des cas d'une autre étiologie au mouvement anormal (« stress » dans 42,7% des cas, « pathologie nerveuse ou musculaire » pour 35% des sujets), la symptomatologie initiale pouvant être frustrante, très variable et complexe.

D'après les données de Chan et al. (4), l'âge de début des symptômes est en moyenne de 41,3ans, le sex-ratio de 1,9 femmes pour un homme. Une histoire familiale de dystonie est présente dans 12% des cas, un traumatisme physique dans les 3 mois précédents l'installation des symptômes est rapporté par 9% des patients. Peuvent être associés à la dystonie un tremblement (28%), des spasmes (62%).

L'histoire naturelle d'une DC idiopathique a été résumée par Norris et al. selon quatre schémas (6) :

- Début cervical sans progression ou DC focale (60,7%)
- Début cervical et progression vers une dystonie segmentaire (17,9%)
- Début focal extra-cervical et progression vers une forme segmentaire avec composante cervicale (13,3%)
- Forme segmentaire d'emblée avec composante cervicale (8,2%)

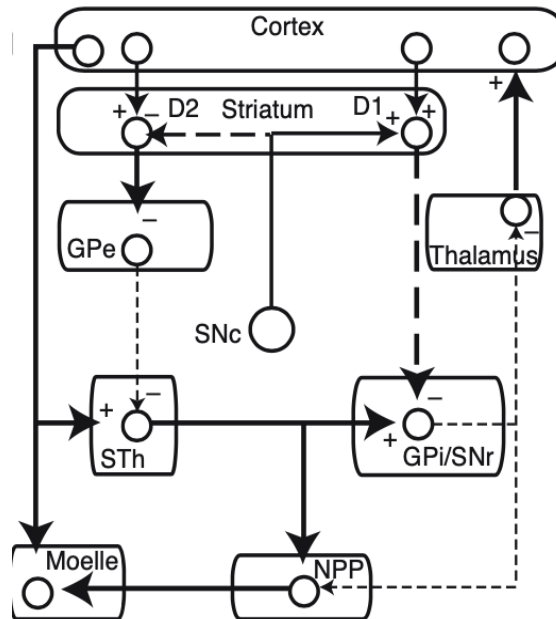
Concernant l'évolution des symptômes, la majorité des patients décrit un début rapidement progressif, une aggravation dans les cinq premières années puis une stabilisation. Des périodes d'aggravation et d'accalmie peuvent se succéder. Dans 9,8 à 20,8% des cas, une rémission spontanée est observée dans la première année suivant l'installation des symptômes, pouvant durer quelques mois à quelques années et être suivie d'une rechute chez 85% des patients (4,9).

### 1.1.3. Physiopathologie

Les mécanismes sous-tendant la DC ont toujours fait l'objet d'un passionnant débat. En 1641, Nicolaas Tulp disséquait le muscle sternocléidomastoïdien qu'il jugeait responsable de ce qu'il appelait « *obstipi capitis* ». En 1844, Charles Bell attribuait le dysfonctionnement du nerf accessoire comme cause de la « distorsion spasmodique du cou et de la tête ». L'hypothèse organique sera abandonnée en 1895 avec l'introduction du terme « torticollis mental » par Edouard Brissaud. Formé à la médecine de son mentor Jean\_martin Charcot, il assimile la maladie aux tics et considère l'atteinte comme purement psychogénique, comme en attesterait la possibilité de contrer la déviation forcée du chef par un simple attouchement dit « geste antagoniste » (Henry Meige & Eugène Feindel, 1902). Le dernier changement de paradigme est marqué par le travail de synthèse de Marsden en 1976 laissant suspecter une anomalie fonctionnelle des noyaux gris centraux. La théorie organique est finalement revalorisée par le premier rapport de Tsui en 1985 d'une efficacité de la toxine botulique dans le traitement de la dystonie (10).

Encore maintenant, la compréhension des mécanismes sous-tendant les dystonies est limitée, en partie du fait de la complexité des circuits moteurs dans lesquels s'organisent les ganglions de la base. Une approche simplifiée suggère une hyperactivité des neurones issus du striatum (noyau caudé, putamen et accumbens) tant vers la voie directe excitatrice (médiée par les récepteurs D1) que vers la voie indirecte inhibitrice (liée aux récepteurs D2). La conséquence en serait la perte du contrôle sélectif des projections GABAergiques du pallidum interne (GPi) et de la substance noire réticulée (SNr) sur le thalamus, d'où le circuit se boucle en direction du cortex, amenant à la désorganisation du mouvement (**FIGURE 1**)(1). Ce mécanisme a pu être objectivé par la mise en évidence d'un hypermétabolisme putaminal et d'un hypométabolisme thalamique en PET-FDG (11).





**Figure 1 :** Représentation schématique des circuits des ganglions de la base et de leurs modifications dans le cadre de la dystonie (1).

En trait plein les connexions excitatrices, en trait-pointillé les connexions inhibitrices. En trait gras les connexions pathologiquement hyperactives, en trait fin les connexions pathologiquement hypoactives.

GPi/SNr : pallidum interne/substance noire réticulée ; GPe : pallidum externe ; NPP : noyaux pédiculopontins.

Récemment, l'assertion réduisant la physiopathologie de la dystonie focale au seul dysfonctionnement des noyaux gris centraux a été remise en question face à la grande hétérogénéité des manifestations motrices et non motrices accompagnant le mouvement anormal.

Les avancées dans le domaine de la neuro-imagerie et neurophysiologie ont notamment permis les constatations suivantes :

- L'implication des aires corticales motrices
  - L'allongement des réflexes H en ENMG en région dystonique mais également saine explique la réduction de l'inhibition réciproque des muscles antagonistes dans la DC et suggère une anomalie diffuse du contrôle supraspinal des réflexes (12).

- L'EEG fait classiquement observer une hypoactivité des dérivations en regard de l'aire motrice supplémentaire et primaire.
- La stimulation magnétique transcrânienne (TMS) note quant à elle une augmentation du gain de stimulation corticale, allant dans le sens d'une diminution de l'excitabilité des systèmes inhibant le cortex moteur (13). La rTMS à double site a permis de montrer une réponse anormalement exagérée à la stimulation magnétique appariée corticale chez les patients dystoniques, argumentant pour une augmentation de la plasticité du cortex sensorimoteur (14).
- La participation du système sensoriel
  - Déjà fortement suggérée
    - par l'apparition des dystonies d'action lors de gestes répétés demandant une certaine adresse (par un mécanisme supposé de perte de différenciation dans l'organisation somatosensorielle) (15)
    - par leur aggravation par les vibrations et amélioration par les gestes antagonistes et anesthésies locales (via une modulation des afférences proprioceptives) (16)
  - L'étude des potentiels évoqués sensitifs, de la magnétoencéphalographie et de l'IRM fonctionnelle met en évidence un défaut d'inhibition et sélectivité des afférences sensorielles, à l'origine de réactions motrices exagérées (17)
- Rôle du cervelet
  - Les dernières données électrophysiologiques et de l'IRM fonctionnelle tendent à suggérer l'implication du cervelet et de sa connectivité avec les noyaux gris centraux dans l'apparition et/ou l'entretien du phénomène dystonique (18).

Les efforts permanents dans le domaine de la recherche amèneront sans doute à mieux appréhender la physiopathologie qui reste pour le moment mal élucidée.

#### **1.1.4. Démarche diagnostique et suivi**

La première étape dans la prise en charge d'un patient suspect de DC sera d'en poser le diagnostic positif.

Un interrogatoire soigneux et un examen clinique complet préciseront au minimum l'âge de début des symptômes, le mode de survenue, les signes cliniques associés, l'histoire familiale et les prises médicamenteuses.

Seule la mise en évidence de drapeaux rouges cliniques ou anamnestiques (moins de 50 ans, dystonie hémicorporelle, progressive, associée à un parkinsonisme ou une polyneuropathie) doit pousser à la réalisation d'examens complémentaires : une IRM cérébrale, un bilan sanguin comprenant NFS, CRP, glycémie, calcémie, phosphatémie, bilan du cuivre, uricémie et la recherche d'auto-anticorps. Bien que plusieurs gènes aient été impliqués dans des formes familiales de dystonie focale (19), leur recherche n'est pas à réaliser en pratique courante devant une dystonie idiopathique sporadique, car sans impact sur la stratégie thérapeutique dominée par les injections de toxine botulique.

Si un doute devait persister quant à l'organicité du trouble, il pourra être utile de recourir aux critères révisés de Gupta et Lang de 2009 qui font référence aux notions de suggestibilité, distractibilité, variabilité pour poser le diagnostic de dystonie psychogénique ou fonctionnelle (20).

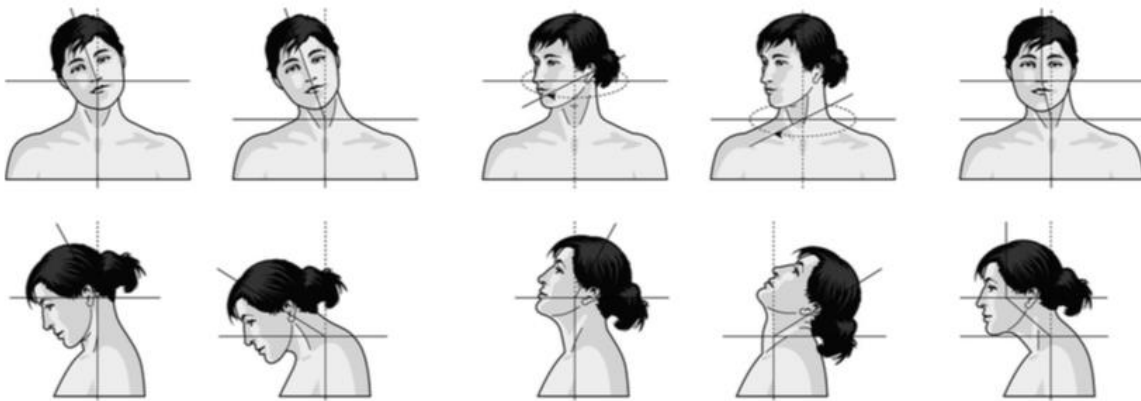
Le diagnostic positif établi, la clinique s'attache à évaluer au mieux la pathologie et son retentissement.

La description du mouvement dystonique consiste à déterminer les muscles impliqués afin d'orienter la thérapeutique, en particulier les injections de toxine botulique. Cette distinction est faite à partir des mouvements de la tête et du cou vis-à-vis du tronc : on parle habituellement de torticolis, latérocolis, antécolis et rétrocolis.

Le concept « *collis-caput* » développé par Reichel en 2010, est actuellement la manière la plus pertinente d'approcher l'anatomie musculaire fonctionnelle appliquée à la DC (21). Il autorise une différenciation sémiologique des mouvements anormaux de la tête et du rachis cervical, distinction fondamentale dans le choix des muscles à traiter :

- Le suffixe *-caput* est utilisé pour définir les mouvements de l'étage supérieur tête – C1 sur l'étage inférieur C3 – C7 (*torticaput, laterocaput, antecaput, retrocaput*). Il implique les muscles insérés sur l'étage supérieur « tête – C1 ». L'alignement des repères frontaux (proéminence laryngée – incisure jugulaire) et sagittaux (méat acoustique externe – moignon de l'épaule) est maintenu.

- Le suffixe *-collis* définit les mouvements de l'étage inférieur C3 – C7 par rapport au rachis thoracique (*torticollis, laterocollis, antecollis, retrocollis*). Ce sont les muscles insérés sur l'étage inférieur C3 – C7 qui sont alors impliqués, les repères suscités sont décalés.
- Dans de rares cas, les mouvements des étages tête – C1 et C3 – C7 se combinent et aboutissent à des postures anormales plus complexes appelées « shifts ». Le shift latéral est défini par l'association d'un *laterocollis* d'un côté et *laterocaput* en direction opposée. Le shift médial correspond à l'association d'un mouvement d'*antecollis* et de *retrocaput*. (FIGURE 2).



**Figure 2 :** Représentation des formes classiques de dystonie cervicale.(21)

En haut, de gauche à droite : laterocaput, laterocollis, torticaput, torticollis, shift latéral.  
 En bas, de gauche à droite : antecaput, antecollis, retrocaput, retrocollis, shift sagittal.

Le soin s'inscrivant dans une prise en charge globale du patient, le clinicien évalue les conséquences de la déficience que sont les limitations d'activité (perturbation de la marche, de l'écriture) et les restrictions de participation (troubles esthétiques sociaux et relationnels compromettant souvent l'activité professionnelle).

Enfin, le suivi du patient réévaluera la dystonie, son retentissement fonctionnel et social ainsi que la réponse au traitement, de préférence à l'aide d'outils standardisés.

L'échelle TWSTRS (Toronto Western Spasmodic Torticollis Rating Scale) est une échelle spécifique de la DC développée par Consky et al. en 1990, recommandée, dont la validité et reproductibilité inter-examineurs ont été confirmées (22–25). Elle présente

l'avantage d'être complète en appréciant le retentissement fonctionnel et la douleur, dimensions négligées par d'autres échelles comme celle de Tsui (25–27). La différence minimale cliniquement importante (DMCI), correspondant à la plus petite différence du score entraînant un effet significatif pour le patient, a été fixée à 8 pour l'échelle TWSTRS (28,29). Un protocole d'examen vidéo a spécifiquement été élaboré (30) (**ANNEXE 7.7**). Ses inconvénients restent sa durée de passation, l'absence d'item évaluant le tremblement. Un exemplaire de l'échelle en français est présenté en annexe (**ANNEXES 7.5 et 7.6**).

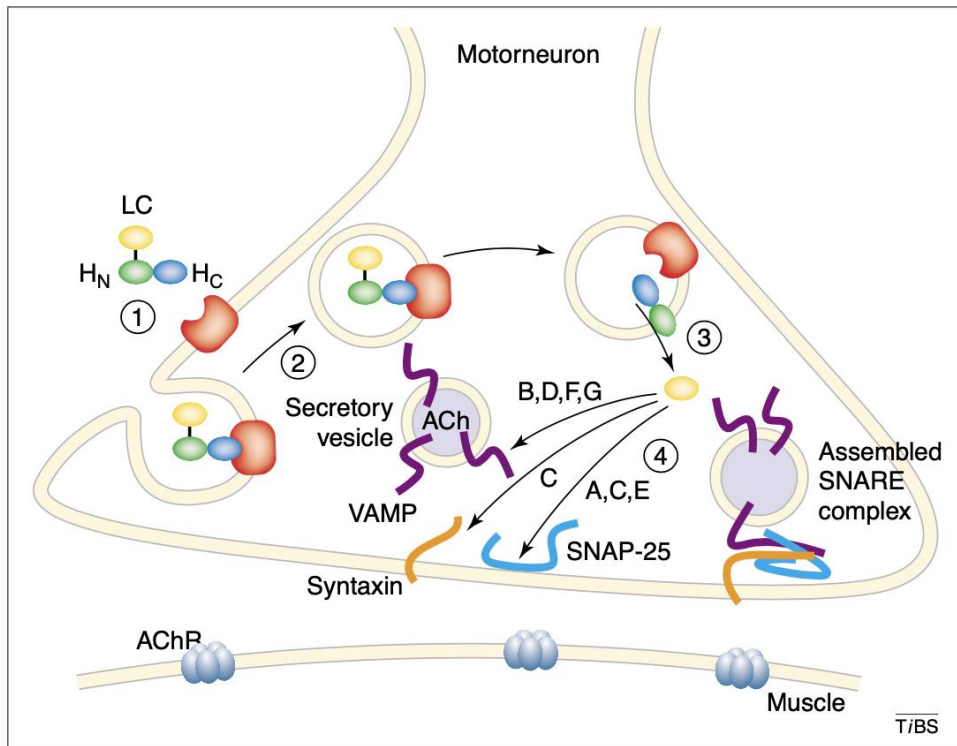
### **1.1.5. Traitements pharmacologiques et chirurgicaux**

En l'absence de traitement étiologique, les modalités thérapeutiques restent symptomatiques et d'efficacité partielle, amenant souvent à les prescrire en association.

#### Toxine botulique

Utilisée depuis le début des années 1980, la toxine botulique constitue le traitement de référence des dystonies (31).

Son mécanisme d'action repose sur l'inhibition de la contraction musculaire en bloquant la libération présynaptique d'acétylcholine dans la fente de la jonction neuromusculaire. Il s'agit d'une puissante endopeptidase zinc-dépendante synthétisée par *Clostridium botulinum*, dont la forme active est composée d'une chaîne lourde et d'une chaîne légère. Après liaison à la membrane neuronale présynaptique via l'interaction de la chaîne lourde avec des molécules d'adhésion telle la synaptotagmine ou certains gangliosides, elle est endocytée dans la terminaison nerveuse. Sa chaîne légère est ensuite transloquée dans le cytosol où elle exercera son action métalloprotéasique sur l'une des protéines du complexe SNARE, empêchant la fusion de la vésicule synaptique avec la membrane présynaptique et donc le relargage d'acétylcholine (**FIGURE 3**). La dénervation chimique résultante déclenche la poussée de nouvelles terminaisons nerveuses qui établissent des néosynapses (« *axonal sprouting* ») et rétablissent la transmission nerveuse, limitant l'effet paralysant de la toxine. En plus de cet effet périphérique, la toxine exerce une action centrale grâce à son transport axonal rétrograde vers la moelle épinière (32).



**Figure 3 :** Mécanisme d'action de la toxine botulique (32)

(1) Liaison à la membrane neuronale (2) Internalisation par endocytose, (3) Translocation de la chaîne légère dans le cytosol neuronal, (4) Clivage protéolytique du complexe SNARE.  $H_N$  heavy chain N-terminal subdomain,  $H_C$  heavy chain C-terminal subdomain, SNARE soluble NSF(N-ethylmaleimide-sensitive)-attachment protein receptors, VAMP vesicle associated membrane protein (synaptobrevine), SNAP-25 synaptosomal-associated protein of 25kDa, ACh acetylcholine, AChR acetylcholine receptor.

Il existe 7 sérotypes de toxine (nommées de A à G), différents de par leur cible moléculaire et leur durée d'action. La toxine botulique A qui clive la protéine SNAP-25 est celle qui a la plus longue durée d'action (6 à 12 semaines). Elle est la plus utilisée en pratique clinique et existe sous trois principales spécialités : onabobotulinumtoxinA (BOTOX®, Allergan Inc., Irvine, Californie, États-Unis), incobotulinumtoxinA (XEOMIN®, Merz Pharma, Francfort, Allemagne) et abobotulinumtoxinA (DYSPORT®, Ipsen Pharma, Boulogne Billancourt, France). Leur activité biologique est exprimée en unités internationales (UI) Allergan pour les deux premières et Speywood pour la troisième, avec comme équivalence un rapport de 1UI Allergan pour 3UI Speywood. Les injections sont effectuées dans les muscles inducteurs tous les 3 à 4 mois en moyenne du fait de l'effet transitoire de la toxine. Un délai minimal de 2 mois doit être respecté pour éviter toute immunisation. Les doses habituellement utilisées dans la DC sont de 150UI Allergan (500UI Speywood), modulables selon le nombre et le volume des muscles injectés (33).

Utilisée chez près de 86% des patients avec DC (34), l'efficacité de la toxine botulique est estimée entre 60 et 86%, avec un pic d'activité entre la deuxième et la quatrième semaine. Les principaux effets indésirables, transitoires, sont représentés par la dysphagie, la faiblesse musculaire et la douleur au point d'injection dans 10 à 30% des cas (35–39). L'ENMG constitue souvent un précieux allié pour cibler les muscles à injecter, notamment ceux d'accès difficile de par leur profondeur ou leur petite taille.

Les traitements médicamenteux par voie orale, plus utilisés dans les formes généralisées de dystonie, sont souvent mal tolérés et d'efficacité limitée dans la DC. Ils peuvent cependant trouver leur intérêt dans les formes très évolutives ou répondant mal à la toxine, comme complément. Selon les avis d'experts (7,40,41), l'arsenal médicamenteux recommandé comprend dans l'ordre :

- Les anticholinergiques (trihexiphénidyle)
- Les benzodiazépines dont le clonazépam
- Le baclofène
- La lévodopa et autres médicaments dopaminergiques
- Les antidopaminergiques tels la tétrabénazine et la clozapine

La chirurgie de la DC : elle a gardé son indication dans les dystonies de forme généralisée, segmentaire ou focale réfractaire au traitement par toxine botulique. La chirurgie du système nerveux périphérique (associant dénervation sélective, myotomie et myectomie (42,43)) a rapidement laissé place à la stimulation cérébrale profonde des noyaux gris centraux, en particulier du globus pallidus interne (GPi), avec des résultats équivalents à ceux de la toxine botulique (40,44).

#### **1.1.6. Approches non médicamenteuses**

De plus en plus d'articles suggèrent qu'un traitement non médicamenteux reste primordial et essentiel en complément des techniques médicamenteuses.

Tout d'abord, une kinésithérapie spécifique, ciblée et multimodale associée aux injections de toxine botulique permet un allongement du bénéfice clinique, une réduction des doses de toxine et une amélioration de la qualité de vie et de la douleur en comparaison aux patients n'ayant pas de kinésithérapie (45). Suivant le principe général

visant à rétablir un équilibre musculaire en renforçant les muscles correcteurs et étirant les muscles dystoniques, les exercices sont adaptés en fonction de la présentation clinique (tonique ou clonique)(46). Pour obtenir les meilleurs résultats, les auto-exercices appris lors de séances de rééducation doivent être poursuivis par le patient au domicile, au mieux quotidiennement (47,48).

La technique de biofeedback s'appuyant sur l'EMG a été proposée avec cependant un faible niveau de preuve (49).

S'agissant d'une pathologie chronique, la psychothérapie est souvent nécessaire pour aborder la souffrance physique et morale : perte d'estime de soi (62%), insomnie (59,8%), fatigue (51%), douleur (67-75%), dépression (15-53%) et anxiété (26-83%) (50).

Enfin, l'information des patients, souvent négligée, reste essentielle pour établir des objectifs atteignables et un projet de soin personnalisé. A cela répond la création de l'association AMADYS en 1987 qui vise à soutenir malades et soignants grâce à une information, un accompagnement (via des rencontres de patient et des colloques scientifiques) et un soutien de la recherche. Ainsi peut-elle participer à la prise en charge du patient dystonique comme exprimé à travers sa devise « En parler, c'est déjà aider ».

## **1.2. Le TENS**

### **1.2.1. Principe**

Les appareils d'électrostimulation transcutanée délivrent une stimulation électrique par l'intermédiaire d'électrodes adhésives appliquées sur la peau. Plusieurs formes de courant peuvent être générées par un même appareil pour différentes applications telles que le traitement antalgique lorsque le nerf sensitif est ciblé (TENS), le renforcement musculaire par la stimulation des nerfs moteurs (NMES) ou encore diverses affections inflammatoires et dysautonomiques par stimulation vagale transauriculaire (t-VNS). Nous n'aborderons ici que le TENS.



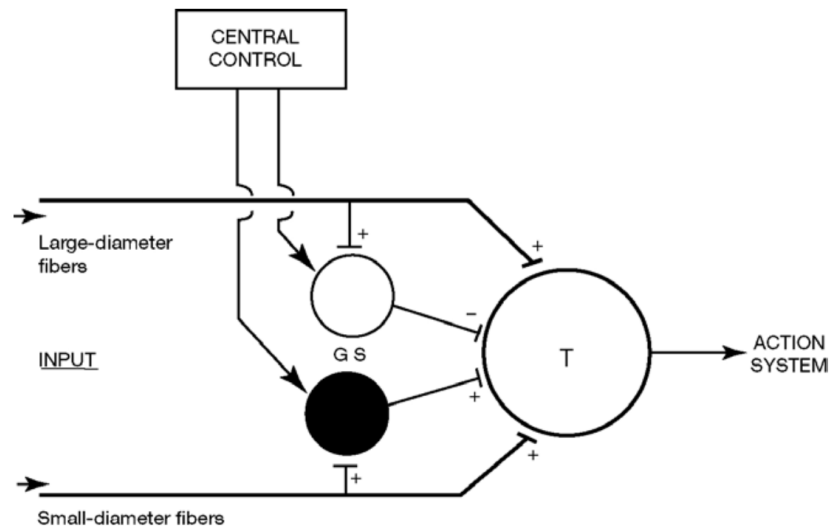
On distingue deux principaux mécanismes d'action pour expliquer l'efficacité antalgique du TENS :

- la modulation de l'inhibition segmentaire médullaire de la douleur selon la théorie du portillon ou « *gate control* » de Melzack et Wall en 1965(51). Par une stimulation électrique haute fréquence, les fibres de gros diamètre A $\alpha$  et A $\beta$  sont recrutées et inhibent au niveau de la corne dorsale de la moelle la transmission du message nociceptif véhiculé par les fibres de petit calibre A $\delta$  et C (**FIGURE 4**).
- l'inhibition supra-spinale et centrale de la douleur via la libération d'endorphines activatrices des récepteurs opioïdes au niveau de la substance grise périaqueducale et de la moelle rostroventrale, ces derniers constituant des relais du contrôle inhibiteur descendant (52) (**FIGURE 5**).

Un travail préclinique plus récent note quant à lui une participation des récepteurs opioïdes endogènes périphériques à l'effet antalgique du TENS (53).

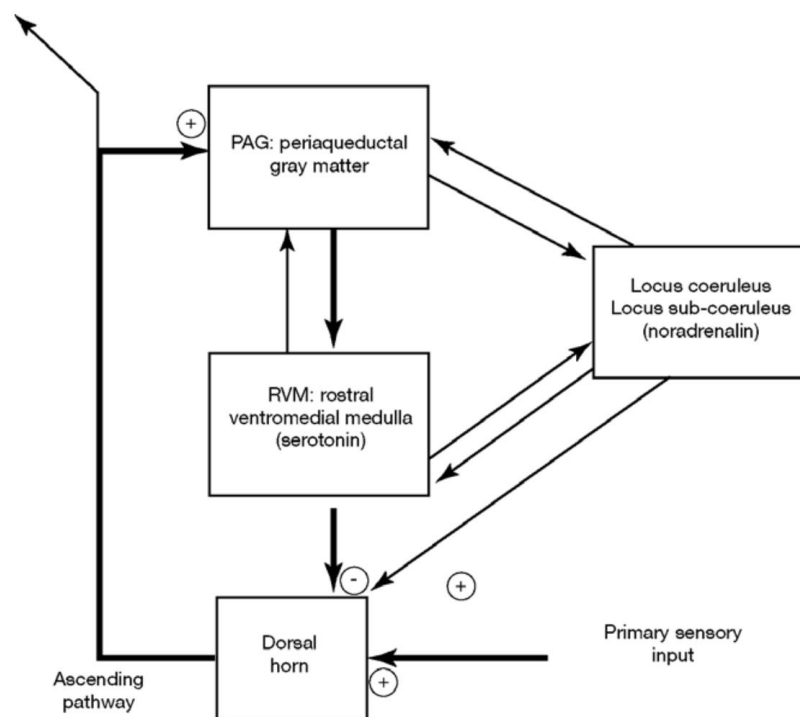
Néanmoins, il ne faut pas sous-estimer ou ignorer la part de l'effet placebo dans la thérapie par TENS.

Plusieurs études ont essayé de quantifier objectivement l'effet antalgique du TENS. Gibson et al. en 2017 dans une méta-analyse regroupant 5 études, ont mis en évidence une différence de -1,58 (95% CI -2,08 à -1,09) du score PNRS en post-interventionnel au profit du TENS versus placebo, équivalent à une réduction de 26% de la douleur (95% CI 18% à 34%) (54). De façon plus ciblée, Kroeling et al. en 2013 ont fait une synthèse des données de la littérature concernant l'efficacité du TENS dans les douleurs cervicales (mécaniques, névralgiques ou céphalées cervicogéniques), sans pouvoir objectiver une supériorité significative du TENS comparé à d'autres prises en charge (médicamenteuse, kinésithérapeutique, placebo) (55). En dernière date, la méta-analyse de Gibson et al. en 2019 certifiait l'impossibilité de conclure de manière chiffrée et fiable sur le bénéfice, les effets secondaires en raison de limitations méthodologiques, de faibles effectifs, d'une hétérogénéité entre les essais apportant un faible niveau de preuve (56).



**Figure 4 :** Modèle révisé du « gate control » de Melzack et Wall en 1965 (57)

*T* premier neurone relai du système nerveux central (trigger cell), *GS* interneurone de la substance gélatineuse de Rolando (gelatinous substance)



**Figure 5 :** Illustration des contrôles supraspinaux de la douleur selon Fields & Basbaum en 1978 (57)

Le TENS présente de nombreux avantages : son caractère non-invasif, réversible, portable, applicable à volonté et utilisable par le patient en autonomie au domicile. Concernant sa tolérance, la crainte d'une brûlure électrique souvent évoquée par les patients constitue un risque insignifiant même en cas d'utilisation prolongée ou en

continu grâce à l'utilisation d'un courant totalement compensé, empêchant la polarisation du tissu.

### **1.2.2. Indications**

Le TENS offre une véritable alternative non médicamenteuse dans de nombreuses douleurs chroniques parmi lesquelles figurent (58):

- Les douleurs nociceptives : musculaires (lombalgies chroniques), articulaires (arthrose, polyarthrite rhumatoïde), traumatiques (entorses, fractures), viscérale (cancéreuse)
- Les douleurs neuropathiques : par lésion thalamique, médullaire, radiculaire, plexuelle ou tronculaire (radiculalgie lombaire ou cervico-brachiale, post-zostérienne, névralgie périnéale et pudendale, douleur de membre fantôme)
- Les douleurs nociplastiques (céphalées de tension, algodystrophie, fibromyalgie)

### **1.2.3. Contre-indications**

Dans son rapport de 2009 (58), le CEPP de la HAS contre-indique l'utilisation du TENS dans les situations suivantes :

- Troubles psychiatriques sévères
- Présence d'un dispositif médical implantable actif (stimulateur cardiaque)
- Sur certaines régions : cervicale antérieure, les sinus carotidiens, région thoracique, abdominale chez la femme enceinte, une région cutanée lésée ou insensibilisée.
- Durant un électrocardiogramme ou électroencéphalogramme
- En présence d'une thrombose veineuse, artérielle ou thrombophlébite.

### **1.2.4. Conditions de prescription et d'utilisation**

En France, la prescription du TENS est réservée au médecin exerçant dans une structure de traitement de la douleur (répondant aux critères de la circulaire DGS/DH 94 n°3 du 7 janvier 1994 et figurant sur la liste tenue par les Agences Régionales de l'Hospitalisation conformément à la circulaire DGS/DH n° 98-47 du 4 février 1998). Elle doit comporter une période de location de 6 mois précédée d'une éducation du patient à l'utilisation du TENS, avec un suivi de son efficacité à un mois, trois mois et six mois par l'équipe de la structure de lutte contre la douleur qui a initialisé la technique.

L'achat peut être prescrit après la période de 6 mois de location en cas d'efficacité de la technique avérée par les résultats de l'échelle d'évaluation de la douleur du patient. Un suivi au minimum semestriel devrait ensuite être assuré.

Des changements pourraient bientôt avoir lieu concernant les conditions de prescription, avec une proposition en avril 2019 du CEPS (texte 96 publié au Journal officiel n° 0090 du 16/04/2019) d'élargir la prescription aux médecins n'appartenant pas à une structure de lutte contre la douleur mais "ayant validé un diplôme universitaire de prise en charge de la douleur ou une capacité d'évaluation et de traitement de la douleur".

Pour ce qui est des consommables (électrodes souples autocollantes, gel pour pose d'électrodes), la prescription doit être réalisée par le prescripteur initial durant la période de location de 6 mois, puis peut être assurée par le prescripteur du TENS ou par un médecin en relation avec ce dernier.

Plusieurs paramètres de stimulation existent, variables en fonction de la fréquence des impulsions (de 1 Hz à 100 Hz), de l'intensité du courant électrique (0 – 60 mA), de la largeur de l'impulsion (50 à 500µs). Les modes de stimulation les plus courants sont :

- Le mode haute fréquence ou TENS conventionnel (C-TENS), également appelé « à effet *gate control* », associe une stimulation continue en haute fréquence (80 à 100 Hz), des largeurs d'onde de 50 à 200µs et des basses intensités. Ce mode réalise des paresthésies non douloureuses dans le territoire concerné avec un effet d'installation rapide mais dont le post-effet reste de faible durée.
- Le mode de stimulation discontinue « *burst* », également dit « *acupuncture like* » (AL-TENS) ou « endorphinique », associe des basses fréquences (1 à 4Hz), des largeurs d'onde comprises entre 100 et 400µs et des hautes intensités. Ce mode provoque de faibles secousses musculaires. L'effet analgésique procuré nécessite un temps d'induction long mais l'effet met plus de temps à se dissiper (plusieurs heures).

- A partir de ces deux modes, les appareils d'électrostimulation proposent toute une modulation de programmes afin d'utiliser les deux effets en même temps (dont la stimulation Han alternant les hautes et basses fréquences), le but étant de soulager immédiatement avec un effet prolongé.

De manière générale, la méthode TENS haute fréquence peut être utilisée sans limite de temps, mais une séance de stimulation doit durer au moins 30 minutes selon la plupart des études (59). La méthode TENS basse fréquence, nécessite souvent d'espacer les séances au cours d'une journée car moins bien tolérée du fait des courbatures induites. Comme tout équipement électronique, le stimulateur ne doit pas être utilisé sous l'eau. Il doit également être éteint la nuit.

### **1.2.5. Impact médico-économique**

Le TENS et ses accessoires sont remboursés en France depuis le 1<sup>er</sup> septembre 2000 par la sécurité sociale de par leur inscription sur la LPPR, visée à l'article L. 165-1 du Code de la Sécurité sociale. La prise en charge n'est assurée que pour les patients atteints de douleurs neurogènes d'origine périphérique et pour les appareils générateurs de courant constant avec ondes biphasiques asymétriques compensées, double canal comportant une possibilité de modulation et d'effet *burst*.

Des changements pourraient bientôt avoir lieu concernant les conditions de prise en charge, avec une proposition en avril 2019 du CEPS (texte 96 publié au Journal officiel n° 0090 du 16/04/2019) d'élargir la population cible aux patients souffrant de douleurs chroniques avec insuffisance et/ou inadéquation des traitements médicamenteux.
--

Le tarif de remboursement actuel selon l'avis du CEPS est basé sur un forfait de 12,20€ par mois pendant la location (code LPP 1189940) et de 112,05€ pour l'achat (code LPP 1183468).

Le renouvellement de la prise en charge à l'achat est assuré après prescription par une structure de lutte contre la douleur chronique rebelle à l'issue d'un délai de cinq ans à compter de la précédente prise en charge à l'achat du neurostimulateur, lors de la détérioration de l'appareil.

Concernant les consommables, les électrodes sont prises en charge dans la limite d'un lot maximum tous les 15 jours sur une base de remboursement de 5,18€ (code LPP 1134240). De même, le gel pour pose d'électrodes est quant à lui pris en charge dans la limite d'un tube tous les deux mois sur une base de 3,05€.

Le CEPS a publié dans le texte 107 du Journal Officiel n°0177 du 01/08/2020 un avis visant à faire passer de 12,20 euros à 11,59 euros (soit une baisse de 5%) le forfait de location mensuelle d'un appareil et de fixer un prix limite de vente (PLV) identique. Le tarif de remboursement pour l'achat d'un appareil resterait à 112,05 euros, avec toutefois un PLV de 200 euros.

De la même manière, une baisse de 5% à 4,92 euros est prévue pour le tarif et le PLV (qui sont identiques) d'un lot de 4 électrodes souples autocollantes.

### **1.3. TENS & dystonie**

#### **1.3.1. Le point commun : la douleur**

La douleur est l'un des symptômes les plus fréquents et invalidants de la DC (50). Chan et al. en 1991 notaient déjà une prévalence de la douleur parmi la population dystonique de 75% (4). Cette dernière était significativement associée à une déviation constante du chef (>75% du temps), une amplitude plus grande du mouvement anormal et la présence de spasmes.

Dans l'essai CD-PROBE (Cervical Dystonia Patient Registry for Observation of OnabotulinumtoxinA Efficacy), incluant 1046 patients issus de 88 centres entre 2009 et 2012, 88,9% des DC étaient associées à une douleur, cotée modérée à sévère dans 70,7% des cas. Sur la base de l'échelle TWSTRS, il était observé une corrélation directe entre la sévérité de la dystonie, le handicap fonctionnel et la douleur.

La physiopathologie de la douleur dans la dystonie reste mal comprise. Certains ont émis l'hypothèse d'un relargage local excessif d'acétylcholine, à l'origine d'une majoration de la contracture musculaire. Cette dernière comprimant les petits vaisseaux, une ischémie locale s'installe et entraîne un relargage de cytokines pro-inflammatoires telles la bradykinines et l'ATP, abaissant le pH et conduisant au final à une sensibilisation et hyperexcitabilité des nocicepteurs. Une contraction musculaire

soutenue même de faible amplitude permettrait un relargage suffisant d'ATP pour exciter les nocicepteurs (60).

Il est communément admis que la douleur liée à la DC ne peut être liée à la simple contracture musculaire, mais engage probablement un dysfonctionnement des voies nociceptives, des centres modulateurs de la douleur au niveau spinal et supraspinal et des aires corticales somatosensorielle (61).

La toxine botulique agirait principalement en diminuant la contracture musculaire et le relargage local de neurotransmetteurs de la douleur, avec pour conséquence directe la réduction de l'hyperexcitabilité neuronale périphérique et de façon indirecte la sensibilisation centrale responsable de douleurs chroniques (60).

Une certaine proportion de patients n'est pas soulagée par la toxine sur le plan de la douleur. Ainsi, Blackie et Lees en 1990 mettaient en évidence un bénéfice moteur chez 83% des 50 sujets et un soulagement de la douleur associée pour 77% des 39 patients (36).

Sur une série de 23 patients dont 19 avec douleur dystonique, Lorentz et al. en 1991 ont retrouvé 87% des patients améliorés par la toxine botulique sur le plan moteur, mais 37% restaient douloureux (37). L'essai CD-PROBE quant à lui retrouvait un soulagement significatif de la douleur chez 67,1% des sujets après une première injection de toxine botulique et 76,4% des patients suite à la troisième injection. Cet effet était ressenti après un délai moyen de 7,1 à 7,6 jours suivant l'injection.

### **1.3.2. Des promesses**

Ce sont deux articles dans les années 1990 qui ouvriront la porte au TENS dans le domaine des dystonies. Le premier, par Bending et al. en 1990, rapportait l'efficacité du TENS appliqué en région lombaire sur un tremblement et une douleur des membres inférieurs chez un patient de 34 ans souffrant de dystonie généralisée sans cause sous-jacente retrouvée (62). Le second rapportait le cas d'un patient de 28 ans réfractaire à la thérapie conventionnelle soulagé d'une dystonie focale par l'utilisation du TENS (63).

Le sujet a été repris par Tinazzi et son équipe dans les années 2000, avec objectivation d'une amélioration du temps d'écriture et de la calligraphie sur une série de 10 patients suivis pour une crampe de l'écrivain traités pendant 2 semaines par TENS (10 sessions

de 20 minutes chacune à raison de 5 jours par semaine) (64). Le mécanisme d'action supposé était une remodulation de l'excitabilité du cortex moteur primaire, perturbé chez les patients dystoniques, en réduisant l'amplitude des potentiels évoqués moteurs du cortex associé au muscle agoniste et levant l'inhibition corticale motrice des régions antagonistes (65). Ces derniers résultats encourageants dans la crampe de l'écrivain, autre forme de dystonie focale primaire, amènent à envisager un effet moteur et/ou antalgique également dans la DC.

### **1.3.3. Des réticences**

Si l'on vous parle de TENS comme d'un courant électrique délivré localement par voie transcutanée, dont l'une des indications en kinésithérapie est la stimulation ou le renforcement musculaire, son utilisation dans une pathologie en lien avec un excès de contraction musculaire semble contre-intuitive.

Alors que le TENS a été testé dans la crampe de l'écrivain, il n'a fait l'objet d'aucun essai dans la DC. L'une des limites apparentes pourrait venir de la proximité des sinus carotidiens en région antérieure, dont la stimulation peut perturber la pression artérielle. Il faut alors savoir que le TENS est déjà utilisé en région cervicale postérieure dans les indications céphalées de tension et névralgie d'Arnold.

### **1.3.4. Un besoin de preuves**

En dehors des études précédemment citées sur l'efficacité du TENS dans certaines dystonies focales, la recherche documentaire par interrogation des principales bases de données médicales (Medline, Cochrane Library) n'a pas permis d'identifier d'étude quelconque sur l'utilisation du TENS dans la DC.

Notre expérience au sein du CHU de Nancy fait part de quelques cas de patients dystoniques cervicaux ayant trouvé un intérêt antalgique au TENS dans leur pathologie, mais ces données restent peu nombreuses et isolées.

De cette constatation est née l'idée d'une étude nommée TENDYS, faisant l'objet de cette thèse, pour apporter des réponses à l'inquiétude d'un possible caractère aggravant du TENS dans la DC, tout en investiguant en parallèle de potentiels bénéfiques sur la douleur dystoniques voire sur sa composante motrice.



## **2. ARTICLE ORIGINAL**

### **2.1. Introduction**

Cervical dystonia (CD) is a movement disorder characterized by involuntary, sustained or intermittent muscle contractions that result in aberrant postures and/or movements. Besides being the most common focal dystonia in adult population, associated pain has a high incidence in this condition (present in 89% of patients)(66), which significantly contributes to patient disability. Although botulinum neurotoxin (BoNT) injection, regarded as the first line therapy, has proved a certain efficacy in pain relief, about one third continue to suffer cervical pain(67).

Previous single-case studies have reported that TENS may improve CD and dystonic tremor(62,63). Nevertheless, a common physician's perception is that TENS can't be applied on the neck and may worsen muscle contraction.

A first step consists in proving that conventional TENS doesn't worsen dystonia, before testing it in pain relief.

### **2.2. Methods**

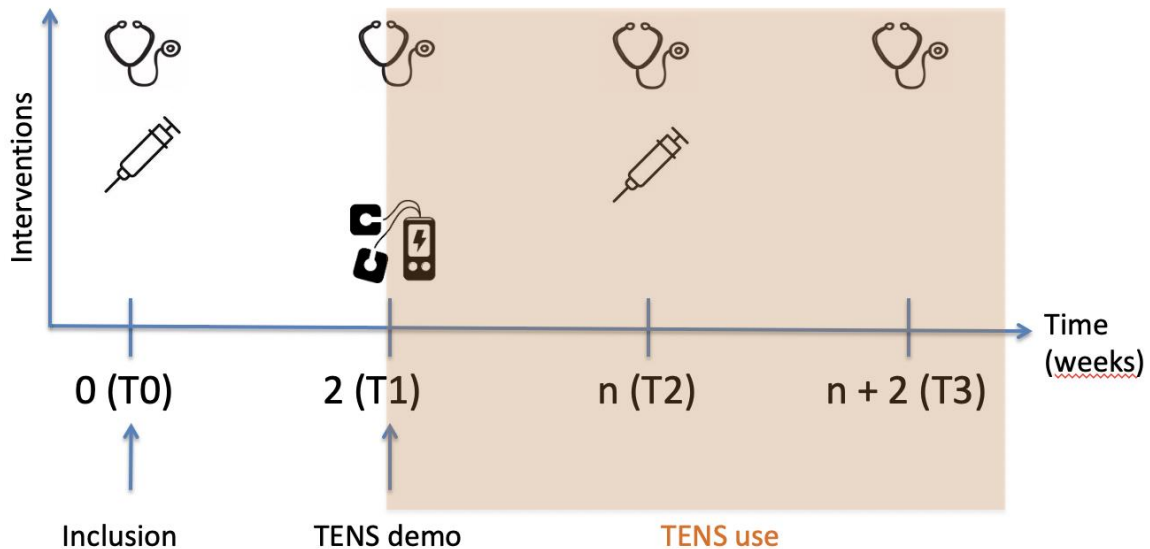
#### **2.2.1. Study design**

TENDYS (TENS use in cervical Dystonia) is an observational, prospective, single arm, monocenter study including subjects between September 2019 and July 2020 with CD treated or not with BoNT A at the Nancy Regional University Hospital. The goal of the study was to test the hypothesis that the use of conventional TENS doesn't worsen CD.

All patients who benefit from a simple follow-up or injections of BoNT every 3 or 4 months for a painful CD were proposed the use of TENS during a neurologic consultation (called checkpoint T0) with one of two specialist physicians trained to CD. Among painful patients, some of them refused TENS and were excluded. Those who accepted had to give informed consent and were re-evaluated 2 weeks later to ensure that pain persist and to have a demo of TENS (checkpoint T1). Follow-up assessments of pain occurred at 3 months for those who beneficiate from BoNT (checkpoint T2) and 3 months and 2 weeks for all patients (checkpoint T3).

Examination and TENS demo at T1 and T3 were conducted by the same physician to reduce interrater variability (**FIGURE 6**).

The final study protocol and the informed consent process were approved by the Investigation and Clinical Research Committee of the University Medical Center of Nancy, France.



**Figure 6 :** Study design. Stethoscopes represent cervical dystonia testing according to TWTRS and PNRS. Needles represent BoNT injections in the indication cervical dystonia. T0, T1, T2 and T3 are study checkpoints. n corresponds to the interval between to BoNT sessions (generally 12 or 16 weeks). Colored area represents the time of TENS use.

### 2.2.2. Population

Subjects with CD were eligible for enrollment if idiopathic CD, aged more than 18, treated or not by BoNT for a cervical dystonia, had a pain attributed to cervical dystonia, considered as significant (PNRS greater than or equal to 3 and meaningfully disabling according to the patient).

For injected patients, dosing and the muscles injected were at the full discretion of the treating physician. Concomitant medication for focal dystonia were permitted at a stable dose.

Non-inclusion criteria comprised dystonia with a clearly identified lesional or genetic cause, « dystonia plus » syndrome, minority, pregnancy, significant difficulties understanding instructions (highly unlikely to comply with protocol), under a tutorship or curatorship and presence of a pacemaker as described among TENS contraindications(58).

Patients (age, sex, body mass index) and CD dystonia features (age at diagnosis, type, location, associated spasms or tremor, modalities of BoNT injections) were founded on the medical software DxCare or at patients' examination.

Other data collected include the taking of concomitant anti-dystonic medication (dopaminergic, antidopaminergics, anticholinergics, baclofen, benzodiazepines), physical therapy and/or self-exercise as recommended by expert review (41).

### **2.2.3. TENS**

TENS is a noninvasive device indicated in chronic pain(58). It was delivered to posterior cervical muscles over or close to the painful site by an electro-stimulator (Cefar TENS, Chattanooga® or TENS ECO2, Schwa-Medico®) with a pair of self-adhesive electrodes (Dura-Stick® Plus Fil 32mm or 50 mm). The current was an asymmetric rectangular biphasic waveform and had a frequency of 80-100 Hz with a pulse width of 180 microseconds according to a Conventional or High frequency/Low intensity mode (Gate control). The stimulation intensity was about 1,5mA below the pain threshold and muscular contraction and should produce a tingling sensation in the stimulated area.

Patients were encouraged to use the machine as often and long and possible, except for sleeping and driving.

### **2.2.4. Outcome measures**

The primary safety outcome was the mean change of TWSTRS-Total score between T1 and T3 checkpoints for patients who were introduced a TENS at the first visit (T0). T1 and T3 matched the peak of effect of BoNT, about 2 weeks after injection, and had the advantage to be evaluated by the same clinician.

Secondary outcomes analyzed mean change of TWSTRS Severity, Disability and Pain subscores and PNRs score from the first checkpoint T1 to the control visit T3.

During the last medical consultation at T3, patients were questioned according to a standard satisfaction survey about their use of TENS (time of use per day, time to onset of action, residual effect after removal, estimated percentage of pain relief, adverse events) and their motivation to pursue its utilization.

The TWSTRS is a mixed clinician and patient rated CD-specific scale that captures the clinical features of CD, and includes a videotape protocol such that all patients are viewed in a standardized fashion(30). The TWSTRS is comprised of 3 subscales: severity (range 0-35), disability (range 0-30), and pain (range 0-20), each of which is scored independently. The total of these three comprises the TWSTRS total score, which is scored from 0–85 (best to worst)(22,23). This scale was chosen because of its validity, interrater validity (24) and as the recommended current clinician-based outcome measure of choice for CD(25).

Pain intensity was assessed using a 0–10 ranking PNRs, with 0 meaning “No pain” and 10 meaning “Pain as bad as you can imagine”. According to the recommendations of the IMMPACT-II (Initiative on Methods, Measurement, and Pain Assessment in Clinical Trials) consensus meeting in 2004, NRS measure of pain intensity should be preferred to visual analogue scale (VAS) and verbal rating scale (VRS) in clinical trials of chronic pain treatments(68). Common NRS division into three categories (“mild” for NRS score  $\leq 3$ , “moderate” for scores of 4-6 and “severe” for scores  $\geq 7$ ) was used.

### **2.2.5. Statistical analysis**

Statistical analyses were performed to compare demographic and clinical profile between patients without TENS and those using a TENS: the non-parametric Wilcoxon test was used for quantitative variables and Fisher test to examine contingency between qualitative and quantitative categorical data.

For the primary outcome, non-aggravation of dystonia was demonstrated if TWSTRS Total score difference between T1 and T3 (TotTWSTRS T1-T3) was inferior to -8, defined as the minimal clinical important change (MCIC) after treatment in cervical dystonia patients(28,29). Wilcoxon signed rank test was used to compare TotTWSTRS T1-T3 to MCIC value.

Simple mean comparison was conducted for secondary outcome and satisfaction survey results. As regards PNRs, a reduction of approximately 30% represented a clinically important difference(69). For all analysis, alpha level for significance was set at  $p < 0,05$ .

## **2.3. Results**

### **2.3.1. Characteristics of CD population**

A total of 50 patients were seen by a neurologist at the CHRU of Nancy for a CD between September 2019 and July 2020. 70% (35/50) of them were women, mean age at inclusion was  $61,2 \pm 12,9$  years old [34-81] and mean age at symptom onset was  $47,5 \pm 11,2$  years old [20-66]. Concerning dystonia, presentation was focal for 80% (40/50) of the subjects, segmental for 8% (4/50), multifocal (CD associated to Meige syndrome, writer's cramp) for 10% (5/50) and generalized (without identified lesional or genetic cause) in 2% cases (1/50). All had a predominant cervical dystonia. Cervical pain existed for 72% (36/50) of patients: 24% had mild pain, 30% had a moderate pain and 18% a severe pain. Mean PNRs score was  $3,3 \pm 3$  [0-10].

Three patients didn't have BoNT injection, because of a lack of efficiency for 2 people and minor cervical deviation in one case. Others had injections every  $3 \pm 0,8$  months [1-6] for about  $8,7 \pm 7,5$  years [0,3-29]. BoNT used was onabotulinum toxin A (BOTOX®) (82%, 41/50), incobotulinum toxin A (XEOMIN®) (6%, 3/50) or abobotulinum toxin A (DYSPORE®) (6%, 3/50). Mean dose of onabotulinum toxin injected per session was  $174,3 \pm 51,7$  UI [40-270]. Concomitant oral medication was taken by 32% of patients (16/50), 22% (11/50) benefited from physiotherapist sessions and 23,9% (11/46) declared to perform self-exercises  $\geq 1$  time a week. More details figure in **TABLE 1**.

30/50 patients (60%) didn't benefit from TENS for four reasons: no dystonic cervical pain (46,7%), pain relieved by BoNT injections (30%), no significant dystonic pain (13,3%), arthritis pain (10%).

Concerning the 20 other patients, 3 used a TENS for cervical pain before study start. These 3 patients hadn't been included, but their data have been collected to analyze TENS use patterns and epidemiologic characteristics. 17 subjects were prescribed a TENS during a specific consultation 2 to 4 weeks after the BoNT injection. Two patients (10%) withdrawn the study, because of study constraint or spontaneous pain relief. Data from the 15 remaining patients were analyzed for the primary outcome (**FIGURE 7**).

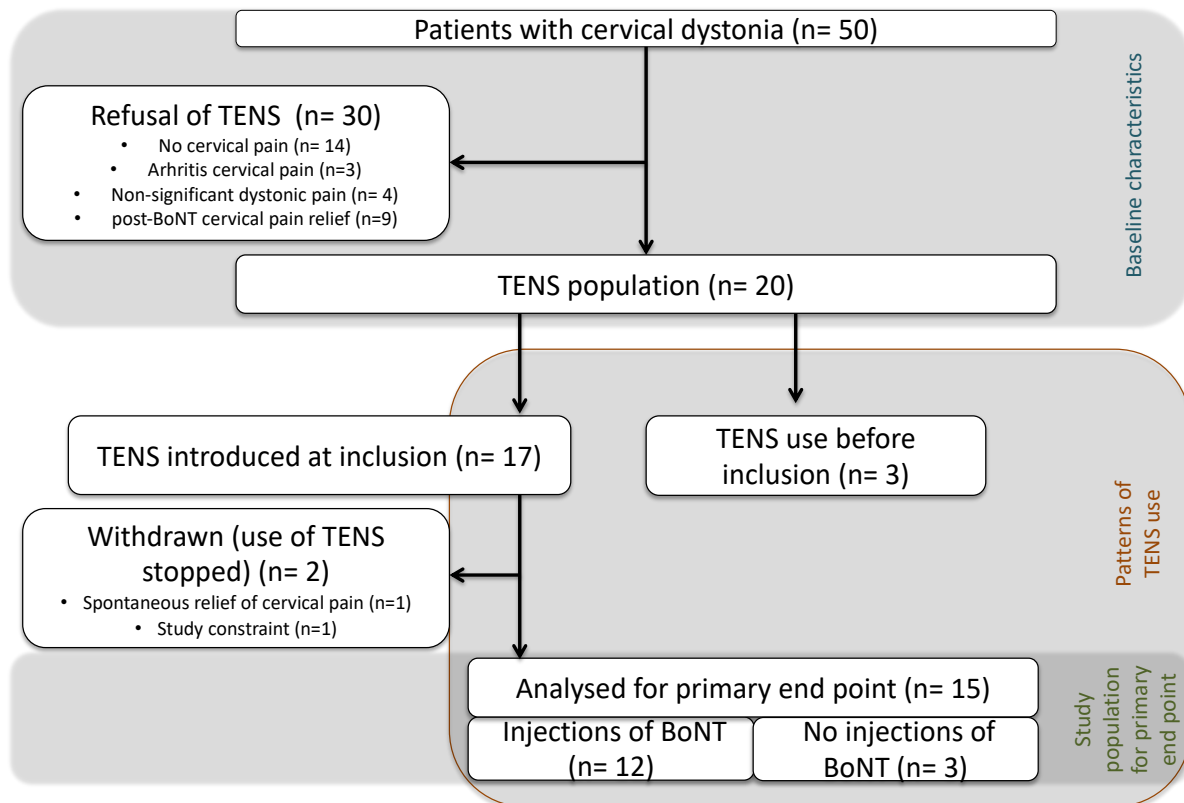
In comparison with the 30 subjects who refused TENS, the 20 patients treated with TENS were significantly younger (55,8 vs 61,2 years,  $p=0,012$ ), had more cervical pain (100 vs 53,3%,  $p<0,0001$ ) and a higher PNRS score (5,9 vs 1,5,  $p<0,0001$ ), benefited from BoNT injections for less time (5,2 vs 10,7 years,  $p=0,002$ ). A higher proportion were seen by a physical therapist in the TENS group (40 vs 10%,  $p=0,033$ ).

**Tableau 1** : Baseline characteristics. Data are presented as mean  $\pm$  SD or n (%). P-value is calculated when comparing subpopulations using TENS vs. no TENS. BMI body mass index, BoNT botulinum neurotoxin, CD cervical dystonia, PNRS pain numeric rating scale. Dose injected are expressed in UI.

	Total (n=50)	TENS (n=20)	No TENS (n=30)	P-value¥
Age (years)	61,2 $\pm$ 12,9	55,8 $\pm$ 12,9	64,8 $\pm$ 11,9	0,012
Age at symptom onset (years)	47,5 $\pm$ 11,2	44,3 $\pm$ 12,1	49,6 $\pm$ 10,1	0,12
Gender (female)	35 (70)	13 (65)	22 (73,3)	0,55
BMI (kg/m <sup>2</sup> )	24,4 $\pm$ 4,4	23,6 $\pm$ 4,3	24,96 $\pm$ 4,5	0,39
CD type				
Focal	40 (80)	12 (60)	28 (93,3)	0,007
Segmental	4 (8)	4 (20)	0	
Multifocal	5 (10)	3 (15)	2 (6,7)	
Generalized	1 (2)	1 (5)	0	
Cervical pain	36 (72)	20 (100)	16 (53,3)	<0,0001
PNRS [min-max]	3,3 $\pm$ 3 [0-10]	5,9 $\pm$ 1,7 [3-10]	1,5 $\pm$ 2,3 [0-8]	<0,0001
BoNT injections	47 (94,0)	17 (85)	30 (100)	
Onabotulinumtoxin A (BOTOX®)	41 (82)	13 (65)	28 (93,3)	0,007
Total dose injected (UI)	174,3 $\pm$ 51,7	171,3 $\pm$ 59,5	176,1 $\pm$ 47,7	0,56
Muscles injected	3,3 $\pm$ 1,5	3,6 $\pm$ 1,6	3,1 $\pm$ 1,4	0,233
Time between two injections (months)	3 $\pm$ 0,8	2,9 $\pm$ 0,4	3,0 $\pm$ 1,0	0,944
Duration of BoNT injections (years)	8,7 $\pm$ 7,5	5,2 $\pm$ 7,1	10,7 $\pm$ 7,1	0,002
No BoNT injection	3 (6)	3 (15)	0	
Concomitant antidystonic medication (n=49)	16 (32)	6 (30)	10 (33,3)	1
Benzodiazepines ‡	14 (87,5)	5 (83,3)	9 (90)	1
Dopaminergics ‡	1 (6,2)	1 (16,7)	0	
Antidopaminergics ‡	0	0	0	0,38
Anticholinergics ‡	2 (12,5)	1 (16,7)	1 (10)	1
Baclofen ‡	1 (6,2)	0	1 (10)	1
Association ‡	3 (18,8)	2 (33,3)	1 (10)	
Physical therapy with a physiotherapist (n=49)	11 (22)	8 (40)	3 (10)	0,033
Sessions per month	4,9 $\pm$ 3	6 $\pm$ 2,8	2 $\pm$ 0	0,055
Self-exercise of physical therapy (n=44)	11 (28,9)	6 (50)	5 (19,2)	0,169

Baseline demographic and clinical characteristics are summarized in **TABLE 1**.

Focusing on pain intensity, it was qualified mild for 5% of patients, moderate in 60% of cases and severe for 35%.



**Figure 7 : Flow Chart.**

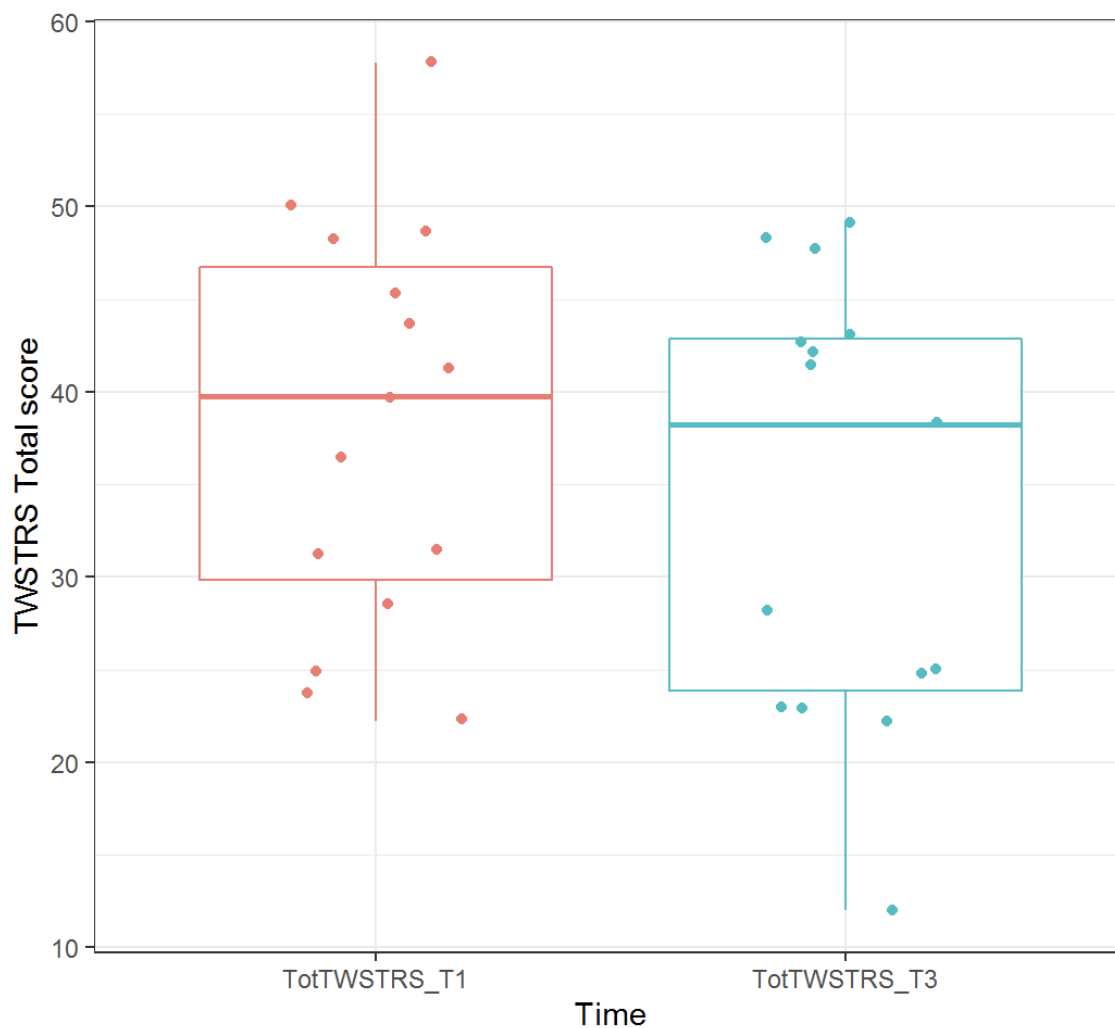
### 2.3.2. Primary outcome

TWSTRS Total score didn't increase significantly after TENS introduction with a score difference between T1 and T3 significantly superior to -8 (4,62, 95% confidence interval [CI] -1,00 – 9,13, p=0,001) (-8 corresponds to the MCIC of TWSTRS Total score for which a patient feels worse). (**FIGURE 8**).

### 2.3.3. Secondary outcome

The greatest subscore variations between T1 and T3 were observed for TWSTRS Severity and Pain subscales. Neither TWSTRS subscores or PNRs score had variation significantly different from 0 between T1 and T3, looking at parameters of distribution (**TABLE 2**).





**Figure 8 :** TWSTRS Total score at T1 and T3 in subjects who completed study (n=15). Dot = TWSTRS Total score for each subject; line in box = median; top & bottom of box = interquartile range; whiskers = minimum & maximum.

**Tableau 2 :** TWSTRS subscore variations between T1 and T3. Data are presented as mean  $\pm$  SD or n (%). BMI body mass index, BoNT botulinum neurotoxin, CD cervical dystonia, PNRS pain numeric rating scale. Dose injected are expressed in UI.

	TENS subpopulation analyzed for primary end point (n=15)	
Score difference between T1 and T3	Mean $\pm$ SD [min – max]	Median ; IQR
TWSTRS-Severity	0,6 $\pm$ 1 [-0,9 – 2,9]	0,6 ; 1,1
TWSTRS-Disability	0,1 $\pm$ 1,5 [-2,7 – 3]	0 ; 1,8
TWSTRS-Pain	0,6 $\pm$ 1,8 [-2,2 – 3,4]	0,8 ; 2,6
PNRS	0,1 $\pm$ 2,7 [-5 – 5]	0 ; 3,5

### 2.3.4. TENS' use pattern

Concerning patients who were introduced TENS at inclusion and completed study, the satisfaction survey recorded a median duration of TENS use of 72,3 ±45,8 minutes per day.

Patients related a mean time to onset of 5 ±9,1 minutes after electrodes application and 80% (12/15) of the subjects experimented a residual effect of 1 to 2 hours after TENS' removal. Adverse events occurred in 53,3% (8/15) of cases, described as electrodes detachment or electrical shock feeling in neck, reversible after electrodes adjustment or adjunction of a conductive adhesive gel for TENS pads. No allergic reaction due to electrodes was recorded. 80% (12/15) of participants were satisfied from TENS at the end of the follow-up period and were motivated to pursue its use (**TABLE 3**).

Three subjects (20%) didn't want to pursue TENS' use due to insufficient pain relief. The first one, who revealed to be the elderly (81 years old), had a cervical pain more linked to arthritis. The second patient had the highest PNRS score at baseline (10/10), one of the most important TWSTRS Pain subscore (16,25). The latest person, who doesn't beneficiate from BoNT injections because of a lack of efficacy and a minor head deviation, related a sufficient pain

**Tableau 3 :** TENS use pattern. Data concern people who completed the study, more(n=18) or less (n=15) those who used a TENS before inclusion. Data are presented as mean ± SD [min -max] or n (%).

	TENS subpopulation analyzed for primary end point (n=15)
Duration of TENS' use (minutes per day)	72,3 ±45,8 [30 - 15]
Onset of action (minutes)	5 ±9,1 [0 - 30]
Residual effect after TENS removal	12 (80)
Pain relief (%)	26,7 ±22,5 [0 - 60]
Adverse events (electrodes detachment, electrical shock feeling)	8 (53,3)
Motivation for long term use	12 (80)
TENS use discontinuation	3 (20)
Insufficient dystonic pain relief	2 (13,3)
Arthritic pain	1 (6,7)

## 2.4. Discussion

There are several strengths related to this work. Prospective and analytic observational design prevented from recall bias and allowed data completion. The population studied was representative from CD patients, as for age at symptoms onset, sex ratio and prevalence of cervical pain(66).

The results obtained from this study clearly highlighted the safety of TENS use in CD, something that had never been studied before according to actual literature. They are enhanced by the fact that patients had proper compliance, with a duration of TENS use up to the probably minimal effective time of 30 minutes per day (59).

CD-related pain relief after TENS hadn't been statistically analyzed to prevent the alpha inflation due to multiple comparisons in a small sample. Yet, our results found a trend to pain relief according to TWSTRS Pain sub-score, more questionable regarding PNRS score. Indeed, TWSTRS Pain subscore calculate the average of current, least and worst pain during the last week. Such a composite score maximizes the reliability and validity of pain assessment and thus, shows a greater stability which is especially important in clinical trials with relative small sample sizes or when monitoring changes over time (70).

There are several hypotheses to explain TENS-related improvement in dystonia. TENS has been demonstrated to reduce somatosensory and pain-related cortical potentials (71). *Tinazzi et al.* noted that TENS remodulate motor cortex excitability by stimulation of large-diameter afferent muscular fibers, reducing corticomotoneuronal excitability of agonist muscles (stimulated by TENS) and increasing excitability of the motor cortex targeting antagonist muscles (64,65,72). Another classical mechanism suggested to describe TENS efficacy on cervical pain may consist in local activation of adrenergic and opioid receptors (59).

These findings also suggest a potential effect of TENS on CD motor component. Our study can't prove CD severity improvement, suggesting either another mechanism in cervical dystonia or a minor effect underscored by lack of statistical power and/or insufficient follow-up time.

Interesting fact, CD patients selected for TENS use were significantly younger, had higher pain intensity, were more likely to have physiotherapist sessions and benefice from BoNT injections for less time, which is consistent with findings of Charles et al (66). This could be explained by an efficacy of BoNT injections on CD proportional to its period of implementation, leading patients at the beginning of therapeutic care to combine different treatment for dystonia and pain alleviation. Moreover, some patient refractory to BoNT therapy and seeking alternative treatments may be interested by TENS. The clinician could thus draw on these characteristics to define a specific user profile of TENS.

TENS efficacy and tolerability profile were satisfactory, as tested in Cochrane reviews (54,56).

Some limitations have to be commented. First, a bias associated with small samples results in a lack of statistical power. Data from 2 patients who exit clinical study, including TWSTRS, PNRS and patterns of TENS use, can't be included in primary analysis, because patient didn't present themselves to the last checkpoint visit at T3. Nevertheless, reasons for withdrawal weren't the consequence of TENS use (spontaneous pain relief, other health problem and study constraint). Concerning basic characteristics, patients in TENS group were significantly injected with BoNT other than onabotulinumtoxin (incobotulinumtoxin and abobotulinumtoxin), which could sign a different profile of patient or another prescription habit. Nevertheless, no significant efficacy or tolerability difference was founded in mixed treatment comparison published in 2015 (73).

## **2.5. Conclusion**

This study suggests that TENS can safely be used in cervical dystonia and may help in dystonia-related pain control. Long-term efficacy has to be addressed in larger series of patients on a longer period.

These discoveries may also lead to much-needed progress in elucidating the underlying pathophysiology of dystonia.

## 3. DISCUSSION

### 3.1. Apports de l'étude

#### 3.1.1. TENS dans la dystonie cervicale

L'utilisation du TENS conventionnel à visée antalgique chez 15 patients avec DC s'est révélée sûre comme l'attestent nos résultats : la variation du score TWSTRS Total entre T1 et T3 chiffrée à 4,62 (IC95% -1,00 – 9,13,  $p=0,001$ ) est significativement supérieure à la valeur de la DMCI fixée à -8 (**ANNEXE 7.1**) La variabilité du score total TWSTRS après 3 à 4 mois d'utilisation semble même tendre vers une amélioration au vu de l'intervalle de confiance du résultat du critère de jugement principal. Cet effet est plus marqué pour les sous-scores sévérité et douleur de l'échelle TWSTRS sans qu'une significativité ait été testée pour ces dernières analyses. En plus d'une efficacité sur la composante douloureuse de la dystonie, une réduction de la contraction musculaire et donc de la part motrice de la DC peut être évoquée.

Le rapport bénéfice-risque favorable du TENS se voit également lors du recueil des données d'utilisation du dispositif auprès des patients. L'effet bénéfique estimé par la population de notre étude est concordant avec l'amélioration du score PNRS chiffrée à 26% (IC 95% 18 – 34%) dans la méta-analyse de Gibson et al. en 2017 (54). Les effets secondaires bien que fréquents, restent mineurs à type de décharges électriques et de décollement d'électrodes et sont résolus après adaptation de la taille des électrodes. Les seuls motifs d'arrêt du TENS sont liés au soulagement spontané de la douleur, à une douleur cervicale non suffisamment soulagée chez des patients présentant souvent une comorbidité douloureuse (arthrose).

Notre étude a enfin permis d'esquisser un profil de patients éligibles et répondeurs au TENS.

L'analyse des caractéristiques cliniques et épidémiologiques à l'entrée retrouve des sujets sous TENS significativement plus douloureux, ayant une durée d'évolution moins longue de leur dystonie, des injections de toxine depuis moins longtemps, et ayant plus recours à une kinésithérapie. La dose de toxine administrée lors des séances, le nombre

de muscles injectés et le recours aux traitement médicamenteux oraux était quant à eux similaires chez les patients sans et avec TENS.

De façon intéressante, il existerait une corrélation positive entre l'amélioration du score TWSTRS sous TENS et les score TWSTRS total et PNRS à l'inclusion (**ANNEXES 7.2 et 7.3**).

Il y aurait donc un intérêt à introduire un TENS à visée antalgique chez les patients souffrant de douleur liée à leur DC de façon précoce, et ce d'autant plus que leur dystonie est sévère et la douleur intense.

### **3.1.2. La prise en charge globale du patient dystonique**

Comme abordé dans l'introduction de ce travail, le traitement de la DC demeure symptomatique avec une efficacité partielle des mesures médicamenteuses et rééducatives prises individuellement, nécessitant souvent leur combinaison pour une efficacité suffisante.

Les données de notre étude à ce sujet retrouvent que la majorité des patients bénéficient d'un traitement par toxine botulique, seuls un tiers prennent de façon concomitante une médication orale anti-dystonique et un dixième suivent des séances de kinésithérapie. A titre de comparaison, dans le recueil épidémiologique de Comella et al. (34), les traitements les plus fréquents dans la DC étaient la toxine botulique (86%) suivie des médicaments oraux (58%) puis la kinésithérapie (37%). Le taux d'utilisation faible des médicaments oraux peut s'expliquer du fait d'une efficacité limitée et d'une tolérance médiocre. Le faible pourcentage de patients bénéficiant de kinésithérapie dans notre étude est expliqué en grande partie du fait d'un souci d'accessibilité. Son efficacité est pourtant reconnue en association au traitement de référence qu'est la toxine botulique (46,74). Nous soulevons là un point d'amélioration de la prise en charge.

Le manque d'efficacité de la prise en charge actuelle de la DC est décrit et analysé dans le sondage de Comella et Bathia en 2012 (34) : concernant l'efficacité de la toxine botulique par exemple, 25% des sujets déclaraient n'obtenir aucune amélioration des symptômes et 13% être aggravés, avec un taux d'insatisfaction de 24%. La kinésithérapie et auto-exercices n'apportaient aucun bénéfice pour 32% des patients.

Bien que ce taux d'insatisfaction reflète en partie un défaut d'information sur les traitements disponibles et leurs limites, il amène tout de même à reconnaître l'insuffisance de cette prise en charge centrée sur la composante motrice de la maladie. Les symptômes non moteurs dont la douleur restent fréquents et pourtant peu abordés avec le patient (5,50). Notre étude retrouve une prévalence forte de la douleur, d'intensité non négligeable (modérée à sévère) chez près de la moitié des sujets (ANNEXE 7.4).

La prise en charge plus systématique des symptômes non moteurs constitue un levier majeur pour optimiser le traitement actuel.

Ce travail trouve là tout son intérêt, proposant une nouvelle modalité de traitement axée sur l'une des composantes non motrices de la DC qu'est la douleur.

## **3.2. Forces et limites de l'étude**

### **3.2.1. Validité interne**

Ce travail présente plusieurs points forts dans sa construction. L'échelle TWSTRS est spécifique et multimodale (prenant en compte non seulement la sévérité de la dystonie mais aussi son retentissement sur le handicap fonctionnel et la douleur), valide, reproductible et recommandée pour l'évaluation de la DC dans les études cliniques (22,24–27). L'échelle PNRS fait partie des standards d'évaluation de la douleur (68,70).

Le protocole a été établi en vue de limiter les biais d'évaluation. Les scores TWSTRS et PNRS ont été cotés par le même examinateur aux temps T1 et T3, permettant une meilleure comparabilité des scores dans l'analyse des critères de jugement.

Enfin, la validité des résultats concernant la bonne tolérance du TENS dans la DC est appuyée par une durée d'utilisation quotidienne du TENS supérieure aux 30% recommandés par la plupart des études pour évaluer son impact (59).

Certaines limites sont cependant à relever. Les principales sont représentées par le caractère monocentrique avec possible biais de sélection (adressage de patients symptomatiquement plus sévères au CHU), le faible effectif, l'absence de placebo (qui reste cependant difficile à mettre en œuvre, les patients devant « ressentir une sensation de picotements » pour définir le seuil de stimulation optimal), l'absence d'analyse

multivariée (non réalisable du fait du faible effectif) pour prendre en compte les facteurs de confusion. Concernant le potentiel biais d'attrition en lien avec les sorties d'études, sa part est limitée car non en lien avec un souci de tolérance du TENS.

### **3.2.2. Validité externe**

La population étudiée est représentative de celle des patients dystoniques cervicaux (4,8,9,34,36,66). La proportion de sujets dystoniques douloureux rejoint celle de la plupart des publications, estimée aux alentours de 70% (4,50,66).

Concernant le TENS, sa sécurité d'utilisation dans la DC est cohérente avec les données de publications (54–56). Bien que difficile à mettre en évidence (55), la tendance à une amélioration de la douleur cervicale dystonique sous TENS est également corroborée par les données fondamentales, avec une action périphérique sur les afférences sensitives (53,59,75), une correction de la dédifférenciation du cortex somatosensoriel par la modulation des afférences sensitives et stimuli sensoriels (76) ainsi qu'une modulation du contrôle inhibiteur descendant dysfonctionnel de la douleur (77).

L'efficacité du TENS sur la composante motrice de la douleur, comme suggéré dans notre étude, pourrait être expliquée d'un point de vue physiologique par la réduction de l'excitabilité corticale du muscle agoniste via les afférences sensitives du muscle associé, levant l'inhibition corticale antagoniste exercée par le muscle agoniste sur les aires corticales du muscle antagoniste (17,64,65,72).

### **3.2.3. Applicabilité**

L'un des avantages de l'échelle TWSTRS est l'existence d'une différence minimale cliniquement pertinente (DMCI) (28,29). Elle correspond à la plus petite différence que les patients considèrent comme importante et permet de faire ainsi la distinction, essentielle pour un clinicien, entre un résultat statistiquement significatif et un résultat cliniquement pertinent. La différence de score TWSTRS sous TENS ayant été comparée à cette DMCI, les résultats de notre étude sont également pertinents pour le patient.

Notre étude est réalisée dans le cadre de soins courants, les sujets étant recrutés et observés lors de leur suivi habituel en neurologie. La représentativité de notre cohorte avec celle de la littérature appuie cette constatation.



Une des limites de l'utilisation du TENS en pratique courante dans la DC est liée aux effets secondaires à type de décharges électriques par décollement des électrodes (observée chez 44,4% de nos patients). En effet, la région cervicale est fortement mobile en période d'activité du patient. A cela s'ajoute une nuque courte ou fine pour certains patients rendant l'adhésion des patchs difficile.

Deux solutions sont proposées : l'adaptation de la taille des électrodes en fonction de la morphologie du patient et la prescription d'un gel pour électrodes afin d'augmenter l'adhésivité. Dans notre étude, l'ensemble des patients ayant eu ce type d'effet secondaire ont poursuivi l'utilisation du TENS du fait d'une tolérance améliorée après application des mesures suscitées.

Une autre solution pourrait consister à placer les électrodes plus bas au niveau de la jonction cervico-thoracique ou des insertions scapulaires du trapèze, voire sur une région corporelle non adjacente à la zone douloureuse. En effet, une revue récente de la littérature apporte des arguments physiopathologiques et cliniques pour un effet antalgique à distance du TENS (75,78).

Un point à soulever est la difficulté pour certains patients, notamment les plus âgés, d'apposer eux même les électrodes sur la nuque. Ce problème a pu être contourné par l'aide de l'entourage familial ou la prescription d'un passage infirmier pour l'aide à la pose.

## **4. CONCLUSION**

### **4.1. TENS et dystonie, tordre le cou aux préjugés**

Les préjugés—présumer et prendre des décisions en se fondant sur des renseignements et hypothèses inexacts ou faussés—parsèment l'histoire. Personne n'en étant immunisé, il n'est pas surprenant qu'ils influencent notre façon d'exercer la médecine. Un besoin de plus de vérité et non de préjugés demeure actuel, en particulier dans un domaine où la souffrance d'un malade est en jeu.

C'est dans cet intérêt que ce travail s'inscrit, avec désormais un argument pour l'utilisation sécurisée du TENS dans la DC. Son bénéfice dans la douleur cervicale est esquissé et pourra faire l'objet d'autres études en vue d'une confirmation. Cela pourrait conduire à une reconnaissance d'une nouvelle indication du TENS, permettant au clinicien, aidé de sa connaissance, du contexte et attentes du patient, de compléter l'éventail des propositions thérapeutiques et ainsi optimiser la prise en charge de cette pathologie pour le moment purement symptomatique.

### **4.2. Ouverture**

Comme précédemment citées, de plus en plus d'études évoquent un bénéfice du TENS sur la composante motrice de certaines dystonies (7,8,9,11). Suite aux résultats de notre étude sur le caractère non aggravant de l'utilisation du TENS dans la DC, des essais sur de plus grands effectifs et une période de temps plus prolongée seraient intéressants pour rechercher un effet positif du TENS sur la sévérité de la dystonie.

Gardons à l'esprit le besoin de poursuivre les investigations sur la physiopathologie de la DC, ainsi que l'optimisation de la prise en charge pluridisciplinaire associant la kinésithérapie, les médicaments anti-dystoniques, la psychothérapie et l'éducation thérapeutique.

## 5. BIBLIOGRAPHIE

1. Vingerhoets F, Russmann H, Carruzzo A, Combremont P, Ghika J. Mouvements anormaux (dystonie, athétose, chorée, ballisme). *EMC - Neurol.* 1 janv 2004;1(1):3-41.
2. Albanese A, Bhatia K, Bressman SB, DeLong MR, Fahn S, Fung VSC, et al. Phenomenology and classification of dystonia: A consensus update: Dystonia: Phenomenology and classification. *Mov Disord.* 15 juin 2013;28(7):863-73.
3. Béreau M, Tranchant C. Les mouvements anormaux : mise au point. *Rev Médecine Interne.* août 2018;39(8):641-9.
4. Chan J, Brin MF, Fahn S. Idiopathic cervical dystonia: Clinical characteristics. *Mov Disord.* 1991;6(2):119-26.
5. Stamelou M, Edwards MJ, Hallett M, Bhatia KP. The non-motor syndrome of primary dystonia: clinical and pathophysiological implications. *Brain.* 1 juin 2012;135(6):1668-81.
6. Norris SA, Jinnah HA, Espay AJ, Klein C, Brüggemann N, Barbano RL, et al. Clinical and demographic characteristics related to onset site and spread of cervical dystonia: Onset Site and Spread Of Cervical Dystonia. *Mov Disord.* déc 2016;31(12):1874-82.
7. Pirio Richardson S, Wegele AR, Skipper B, Deligtisch A, Jinnah HA, For the Dystonia Coalition Investigators. Dystonia treatment: Patterns of medication use in an international cohort. *Neurology.* 7 févr 2017;88(6):543-50.
8. Defazio G, Jankovic J, Giel JL, Papapetropoulos S. Descriptive Epidemiology of Cervical Dystonia. *Tremor Hyperkinetic Mov.* 4 nov 2013;3(0):03.
9. Jahanshahi M, Marion M-H, Marsden CD. Natural History of Adult-Onset Idiopathic Torticollis. *Arch Neurol.* 1 mai 1990;47(5):548-52.
10. Muntz AG, Koehler PJ. How psychogenic is dystonia? views from past to present. *Brain.* 1 mai 2010;133(5):1552-64.

11. Eidelberg D, Moeller JR, Ishikawa T, Dhawan V, Spetsieris P, Przedborski S, et al. The metabolic topography of idiopathic torsion dystonia. *Brain*. 1995;118(6):1473-84.
12. Deuschl G, Seifert C, Heinen F, Illert M, Lücking CH. Reciprocal inhibition of forearm flexor muscles in spasmodic torticollis. *J Neurol Sci*. nov 1992;113(1):85-90.
13. Berardelli A. The pathophysiology of primary dystonia. *Brain*. 1 juill 1998;121(7):1195-212.
14. Quartarone A, Rizzo V, Terranova C, Morgante F, Schneider S, Ibrahim N, et al. Abnormal sensorimotor plasticity in organic but not in psychogenic dystonia. *Brain*. 1 oct 2009;132(10):2871-7.
15. Byl NN, Merzenich MM, Jenkins WM. A primate genesis model of focal dystonia and repetitive strain injury: I. Learning-induced dedifferentiation of the representation of the hand in the primary somatosensory cortex in adult monkeys. *Neurology*. 1 août 1996;47(2):508-20.
16. Kaji R, Rothwell JC, Katayama M, Ikeda T, Kubori T, Kohara N, et al. Tonic vibration reflex and muscle afferent block in writer's cramp. *Ann Neurol*. août 1995;38(2):155-62.
17. Tinazzi M, Rosso T, Fiaschi A. Role of the somatosensory system in primary dystonia. *Mov Disord*. juin 2003;18(6):605-22.
18. Conte A, Defazio G, Mascia M, Belvisi D, Pantano P, Berardelli A. Advances in the pathophysiology of adult-onset focal dystonias: recent neurophysiological and neuroimaging evidence. *F1000Research*. 26 mars 2020;9:67.
19. Charlesworth G, Bhatia KP. Primary and secondary dystonic syndromes: an update. *Curr Opin Neurol*. août 2013;26(4):406-12.
20. Gupta A, Lang AE. Psychogenic movement disorders: *Curr Opin Neurol*. août 2009;22(4):430-6.
21. Reichel G. Cervical dystonia: A new phenomenological classification for botulinum toxin therapy. *Basal Ganglia*. mars 2011;1(1):5-12.

22. Consky ES, Basinski A, Belle L, Ranawaya R, Lang AE. The Toronto Western Spasmodic Torticollis Rating Scale (TWSTRS): assessment of validity and inter-rater reliability (abstract). *Neurology*. 1990;40:445.
23. Consky ES, Lang AE. Clinical assessments of patients with cervical dystonia. In: *Therapy with botulinum toxin*. In: *Therapy with Botulinum Toxin*. Jankovic J, Hallett M. New York; 1994. p. 211-37.
24. Kaji R, Osawa M, Yanagisawa N. [Inter-rater reliability while using the Toronto Western Spasmodic Torticollis Rating Scale (TWSTRS) in patients with cervical dystonia]. *Brain Nerve Shinkei Kenkyu No Shinpo*. janv 2009;61(1):65-71.
25. Cano SJ, Hobart JC, Fitzpatrick R, Bhatia K, Thompson AJ, Warner TT. Patient-based outcomes of cervical dystonia: A review of rating scales. *Mov Disord*. sept 2004;19(9):1054-9.
26. Gayraud D, Viallet F. Évaluation d'une dystonie cervicale. Utilité des échelles d'évaluation : échelle TWSTRS. *Rev Neurol (Paris)*. déc 2008;164(12):F263-74.
27. Jost WH, Hefter H, Stenner A, Reichel G. Rating scales for cervical dystonia: a critical evaluation of tools for outcome assessment of botulinum toxin therapy. *J Neural Transm*. mars 2013;120(3):487-96.
28. Dashtipour K, Mari Z, Jankovic J, Adler CH, Schwartz M, Brin MF. Minimal clinically important change in patients with cervical dystonia: Results from the CD PROBE study. *J Neurol Sci*. 15 oct 2019;405:116413.
29. Espay AJ, Trosch R, Suarez G, Johnson J, Marchese D, Comella C. Minimal clinically important change in the Toronto Western Spasmodic Torticollis Rating Scale. *Parkinsonism Relat Disord*. juill 2018;52:94-7.
30. Comella CL, Stebbins GT, Goetz CG, Chmura TA, Bressman SB, Lang AE. Teaching tape for the motor section of the toronto western spasmodic torticollis scale. *Mov Disord*. juill 1997;12(4):570-5.
31. Albanese A, Asmus F, Bhatia KP, Elia AE, Elibol B, Filippini G, et al. EFNS guidelines on diagnosis and treatment of primary dystonias: EFNS dystonia guidelines. *Eur J Neurol*. janv 2011;18(1):5-18.

32. Turton K, Chaddock JA, Acharya KR. Botulinum and tetanus neurotoxins: structure, function and therapeutic utility. *Trends Biochem Sci.* nov 2002;27(11):552-8.
33. Sangla S. Aspects thérapeutiques actuels de la toxine botulique en neurologie. *EMC - Kinésithérapie - Médecine Phys - Réadapt.* janv 2007;3(1):1-13.
34. Comella C, Bhatia K. An international survey of patients with cervical dystonia. *J Neurol.* avr 2015;262(4):837-48.
35. Tsui JosephKC, Jon Stoessl A, Eisen A, Calne S, Calne D. DOUBLE-BLIND STUDY OF BOTULINUM TOXIN IN SPASMODIC TORTICOLLIS. *The Lancet.* août 1986;328(8501):245-7.
36. Blackie JD, Lees AJ. Botulinum toxin treatment in spasmodic torticollis. *J Neurol Neurosurg Psychiatry.* 1 août 1990;53(8):640-3.
37. Lorentz IT, Subramaniam SS, Yiannikas C. Treatment of idiopathic spasmodic torticollis with botulinum toxin a: A double-blind study on twenty-three patients. *Mov Disord.* 1991;6(2):145-50.
38. Dressler D, Paus S, Seitzinger A, Gebhardt B, Kupsch A, Bock U, et al. Long-term efficacy and safety of incobotulinumtoxinA injections in patients with cervical dystonia. *J Neurol Neurosurg Psychiatry.* 1 sept 2013;84(9):1014-9.
39. Castelão M, Marques RE, Duarte GS, Rodrigues FB, Ferreira J, Sampaio C, et al. Botulinum toxin type A therapy for cervical dystonia. *Cochrane Movement Disorders Group, éditeur. Cochrane Database Syst Rev [Internet].* 12 déc 2017 [cité 15 août 2020]; Disponible sur: <http://doi.wiley.com/10.1002/14651858.CD003633.pub3>
40. Dressler D, Altenmueller E, Bhidayasiri R, Bohlega S, Chana P, Chung TM, et al. Strategies for treatment of dystonia. *J Neural Transm.* mars 2016;123(3):251-8.
41. Jankovic J. Medical treatment of dystonia: Dystonia Treatment. *Mov Disord.* 15 juin 2013;28(7):1001-12.

42. Bertrand CM. Selective peripheral denervation for spasmodic torticollis: Surgical technique, results, and observations in 260 cases. *Surg Neurol.* août 1993;40(2):96-103.
43. Wilson TJ, Spinner RJ. Selective Cervical Denervation for Cervical Dystonia: Modification of the Bertrand Procedure. *Oper Neurosurg.* 1 mai 2018;14(5):546-55.
44. Rodrigues FB, Duarte GS, Prescott D, Ferreira J, Costa J. Deep brain stimulation for dystonia. *Cochrane Movement Disorders Group, éditeur. Cochrane Database Syst Rev [Internet].* 10 janv 2019 [cité 14 sept 2020]; Disponible sur: <http://doi.wiley.com/10.1002/14651858.CD012405.pub2>
45. Tassorelli C, Mancini F, Balloni L, Pacchetti C, Sandrini G, Nappi G, et al. Botulinum toxin and neuromotor rehabilitation: An integrated approach to idiopathic cervical dystonia. *Mov Disord.* déc 2006;21(12):2240-3.
46. Bleton J-P. Physiotherapy of focal dystonia: a physiotherapist's personal experience: Physiotherapy of focal dystonia. *Eur J Neurol.* 8 juin 2010;17:107-12.
47. van den Dool J, Visser B, Koelman JHT, Engelbert RH, Tijssen MA. Cervical dystonia: effectiveness of a standardized physical therapy program; study design and protocol of a single blind randomized controlled trial. *BMC Neurol.* déc 2013;13(1):85.
48. van den Dool J, Visser B, Koelman JH, Engelbert RH, Tijssen MA. Long-Term Specialized Physical Therapy in Cervical Dystonia: Outcomes of a Randomized Controlled Trial. *Arch Phys Med Rehabil.* août 2019;100(8):1417-25.
49. Delnooz CCS, Horstink MWIM, Tijssen MA, van de Warrenburg BPC. Paramedical treatment in primary dystonia: A systematic review. *Mov Disord.* 15 nov 2009;24(15):2187-98.
50. Torres JAKL, Rosales RL. Nonmotor Symptoms in Dystonia. In: *International Review of Neurobiology [Internet].* Elsevier; 2017 [cité 14 sept 2020]. p. 1335-71. Disponible sur: <https://linkinghub.elsevier.com/retrieve/pii/S0074774217300478>
51. Melzack R, Wall PD. Pain Mechanisms: A New Theory. *Science.* 19 nov 1965;150(3699):971-8.

52. DeSantana JM, Da Silva LFS, De Resende MA, Sluka KA. Transcutaneous electrical nerve stimulation at both high and low frequencies activates ventrolateral periaqueductal grey to decrease mechanical hyperalgesia in arthritic rats. *Neuroscience*. nov 2009;163(4):1233-41.
53. Santos CMF, Francischi JN, Lima-Paiva P, Sluka KA, Resende MA. Effect of transcutaneous electrical stimulation on nociception and edema induced by peripheral serotonin. *Int J Neurosci*. juill 2013;123(7):507-15.
54. Gibson W, Wand BM, O'Connell NE. Transcutaneous electrical nerve stimulation (TENS) for neuropathic pain in adults. Cochrane Pain, Palliative and Supportive Care Group, éditeur. *Cochrane Database Syst Rev* [Internet]. 14 sept 2017 [cité 24 août 2020]; Disponible sur: <http://doi.wiley.com/10.1002/14651858.CD011976.pub2>
55. Kroeling P, Gross A, Graham N, Burnie SJ, Szeto G, Goldsmith CH, et al. Electrotherapy for neck pain. Cochrane Back and Neck Group, éditeur. *Cochrane Database Syst Rev* [Internet]. 26 août 2013 [cité 24 août 2020]; Disponible sur: <http://doi.wiley.com/10.1002/14651858.CD004251.pub5>
56. Gibson W, Wand BM, Meads C, Catley MJ, O'Connell NE. Transcutaneous electrical nerve stimulation (TENS) for chronic pain - an overview of Cochrane Reviews. Cochrane Pain, Palliative and Supportive Care Group, éditeur. *Cochrane Database Syst Rev* [Internet]. 3 avr 2019 [cité 24 août 2020]; Disponible sur: <http://doi.wiley.com/10.1002/14651858.CD011890.pub3>
57. Calvino B, Grilo RM. Central pain control. *Joint Bone Spine*. janv 2006;73(1):10-6.
58. Haute Autorité de Santé HAS. Évaluation des appareils de neurostimulation électrique transcutanée (TENS) [Internet]. Saint-Denis La Plaine; 2009. Disponible sur: [https://www.has-sante.fr/jcms/c\\_857722/fr/evaluation-des-appareils-de-neurostimulation-electrique-transcutanee-tens](https://www.has-sante.fr/jcms/c_857722/fr/evaluation-des-appareils-de-neurostimulation-electrique-transcutanee-tens)
59. DeSantana JM, Walsh DM, Vance C, Rakel BA, Sluka KA. Effectiveness of transcutaneous electrical nerve stimulation for treatment of hyperalgesia and pain. *Curr Rheumatol Rep*. déc 2008;10(6):492-9.

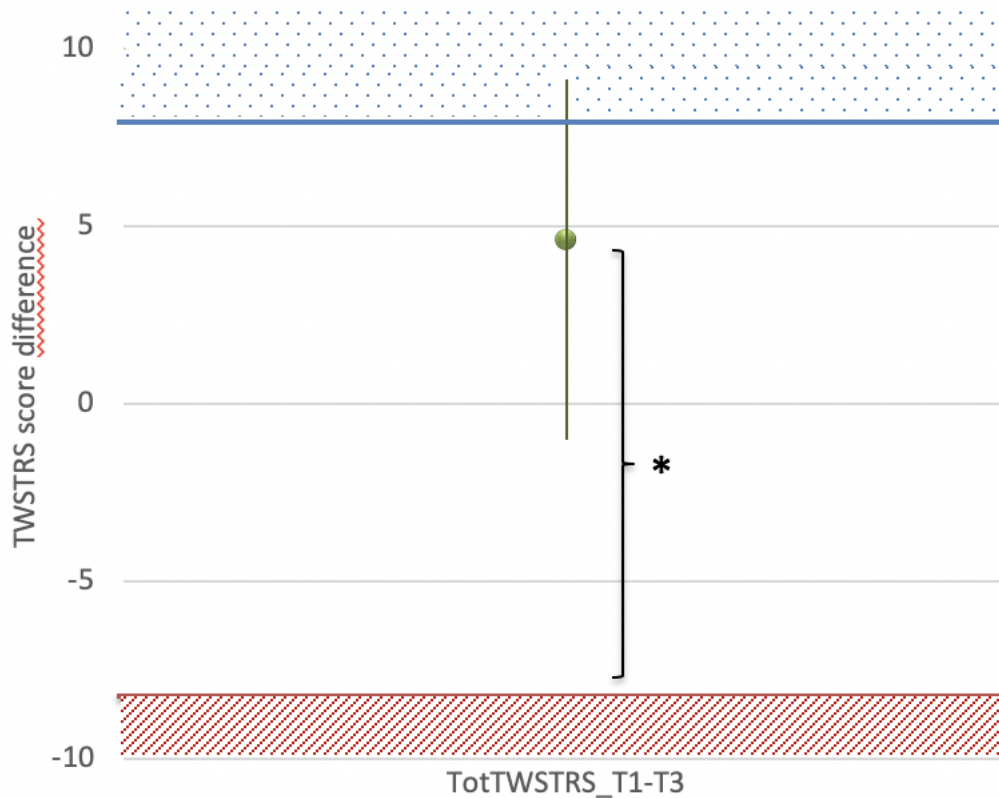


60. Mense S. Neurobiological basis for the use of botulinum toxin in pain therapy. *J Neurol.* 1 févr 2004;251(0):1-1.
61. Avenali M, De Icco R, Tinazzi M, Defazio G, Tronconi L, Sandrini G, et al. Pain in focal dystonias – A focused review to address an important component of the disease. *Parkinsonism Relat Disord.* sept 2018;54:17-24.
62. Bending J, Cleeves L. Effect of electrical nerve stimulation on dystonic tremor. *The Lancet.* déc 1990;336(8727):1385-6.
63. Foley-Nolan D, Kinirons M, Coughlan RJ, O'connor P. Post Whiplash Dystonia Well Controlled by Transcutaneous Electrical Nervous Stimulation (TENS): Case Report. *J Trauma Inj Infect Crit Care.* juill 1990;30(7):909-10.
64. Tinazzi M, Farina S, Bhatia K, Fiaschi A, Moretto G, Bertolasi L, et al. TENS for the treatment of writer's cramp dystonia: A randomized, placebo-controlled study. *Neurology.* 14 juin 2005;64(11):1946-8.
65. Tinazzi M, Zarattini S, Valeriani M, Stanzani C, Moretto G, Smania N, et al. Effects of transcutaneous electrical nerve stimulation on motor cortex excitability in writer's cramp: Neurophysiological and clinical correlations. *Mov Disord.* nov 2006;21(11):1908-13.
66. Charles PD, Adler CH, Stacy M, Comella C, Jankovic J, Manack Adams A, et al. Cervical dystonia and pain: characteristics and treatment patterns from CD PROBE (Cervical Dystonia Patient Registry for Observation of OnabotulinumtoxinA Efficacy). *J Neurol.* juill 2014;261(7):1309-19.
67. Charles PD, Manack Adams A, Davis T, Bradley K, Schwartz M, Brin MF, et al. Neck Pain and Cervical Dystonia: Treatment Outcomes from CD PROBE (Cervical Dystonia Patient Registry for Observation of OnabotulinumtoxinA Efficacy). *Pain Pract Off J World Inst Pain.* nov 2016;16(8):1073-82.
68. Dworkin RH, Turk DC, Farrar JT, Haythornthwaite JA, Jensen MP, Katz NP, et al. Core outcome measures for chronic pain clinical trials: IMMPACT recommendations. *Pain.* janv 2005;113(1-2):9-19.

69. Farrar JT, Young JP, LaMoreaux L, Werth JL, Poole MR. Clinical importance of changes in chronic pain intensity measured on an 11-point numerical pain rating scale: *Pain*. nov 2001;94(2):149-58.
70. Jensen MP, Turner JA, Romano JM, Fisher LD. Comparative reliability and validity of chronic pain intensity measures: *Pain*. nov 1999;83(2):157-62.
71. Hoshiyama M, Kakigi R. After-effect of transcutaneous electrical nerve stimulation (TENS) on pain-related evoked potentials and magnetic fields in normal subjects. *Clin Neurophysiol*. avr 2000;111(4):717-24.
72. Tinazzi M, Zarattini S, Valeriani M, Romito S, Farina S, Moretto G, et al. Long-lasting modulation of human motor cortex following prolonged transcutaneous electrical nerve stimulation (TENS) of forearm muscles: evidence of reciprocal inhibition and facilitation. *Exp Brain Res*. mars 2005;161(4):457-64.
73. Han Y, Stevens AL, Dashtipour K, Hauser RA, Mari Z. A mixed treatment comparison to compare the efficacy and safety of botulinum toxin treatments for cervical dystonia. *J Neurol*. avr 2016;263(4):772-80.
74. De Pauw J, Van der Velden K, Meirte J, Van Daele U, Truijten S, Cras P, et al. The effectiveness of physiotherapy for cervical dystonia: a systematic literature review. *J Neurol*. oct 2014;261(10):1857-65.
75. Sabino GS, Santos CMF, Francischi JN, de Resende MA. Release of Endogenous Opioids Following Transcutaneous Electric Nerve Stimulation in an Experimental Model of Acute Inflammatory Pain. *J Pain*. févr 2008;9(2):157-63.
76. Paracka L, Wegner F, Blahak C, Abdallat M, Saryyeva A, Dressler D, et al. Sensory Alterations in Patients with Isolated Idiopathic Dystonia: An Exploratory Quantitative Sensory Testing Analysis. *Front Neurol*. 17 oct 2017;8:553.
77. Tinazzi M, Squintani GM, Bhatia KP, Segatti A, Donato F, Valeriani M, et al. Pain in cervical dystonia: Evidence of abnormal inhibitory control. *Parkinsonism Relat Disord*. août 2019;65:252-5.
78. Gozani SN. Remote Analgesic Effects Of Conventional Transcutaneous Electrical Nerve Stimulation: A Scientific And Clinical Review With A Focus On Chronic Pain. *J Pain Res*. nov 2019;Volume 12:3185-201.

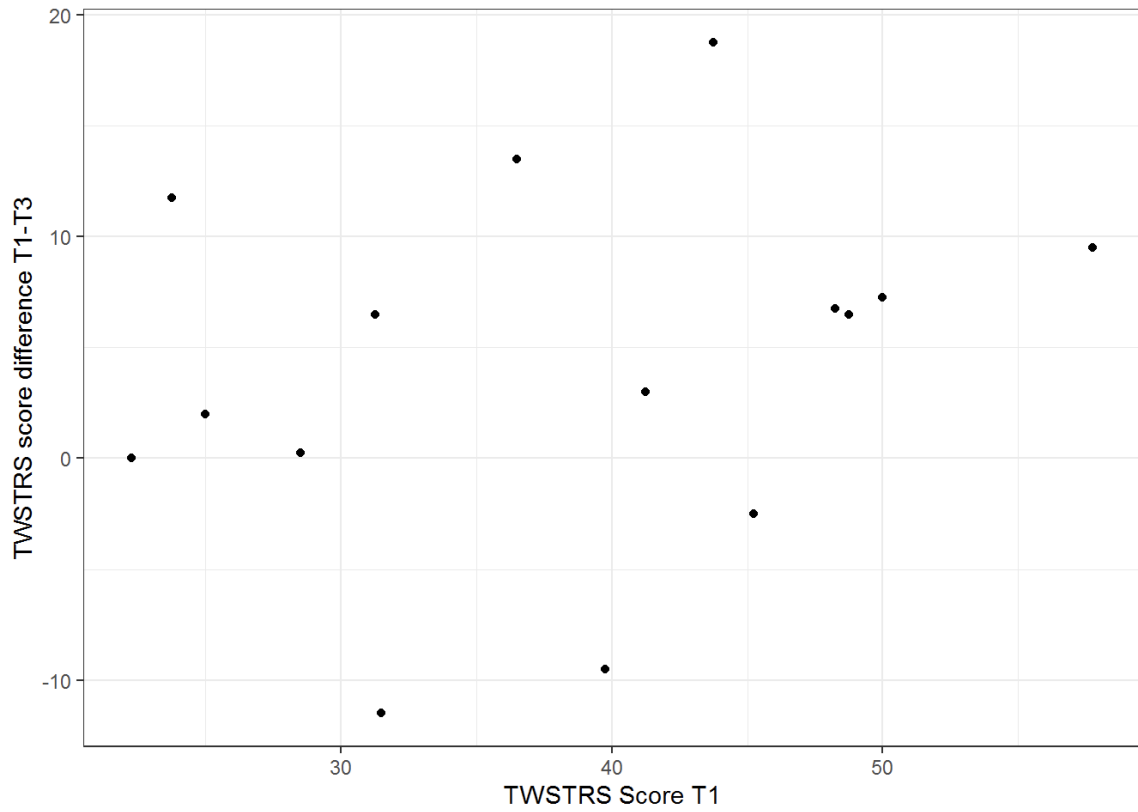
## 6. ANNEXES

### 6.1. Différence de score TWSTRS Total entre T1 et T3



Le point correspond à la différence de score TWSTRS entre T1 et T3 (TotTWSTRS\_T1-T3); les barres verticales représentent l'intervalle de confiance à 95%; la zone hachurée indique les valeurs de la différence de score TWSTRS pour lesquelles l'aggravation du score TWSTRS Total est cliniquement pertinente (inférieures à la DMCI -8); la zone pointillée comprend les valeurs pour lesquelles existe une amélioration cliniquement significative du score TWSTRS Total entre T1 et T3 (supérieures à +8).

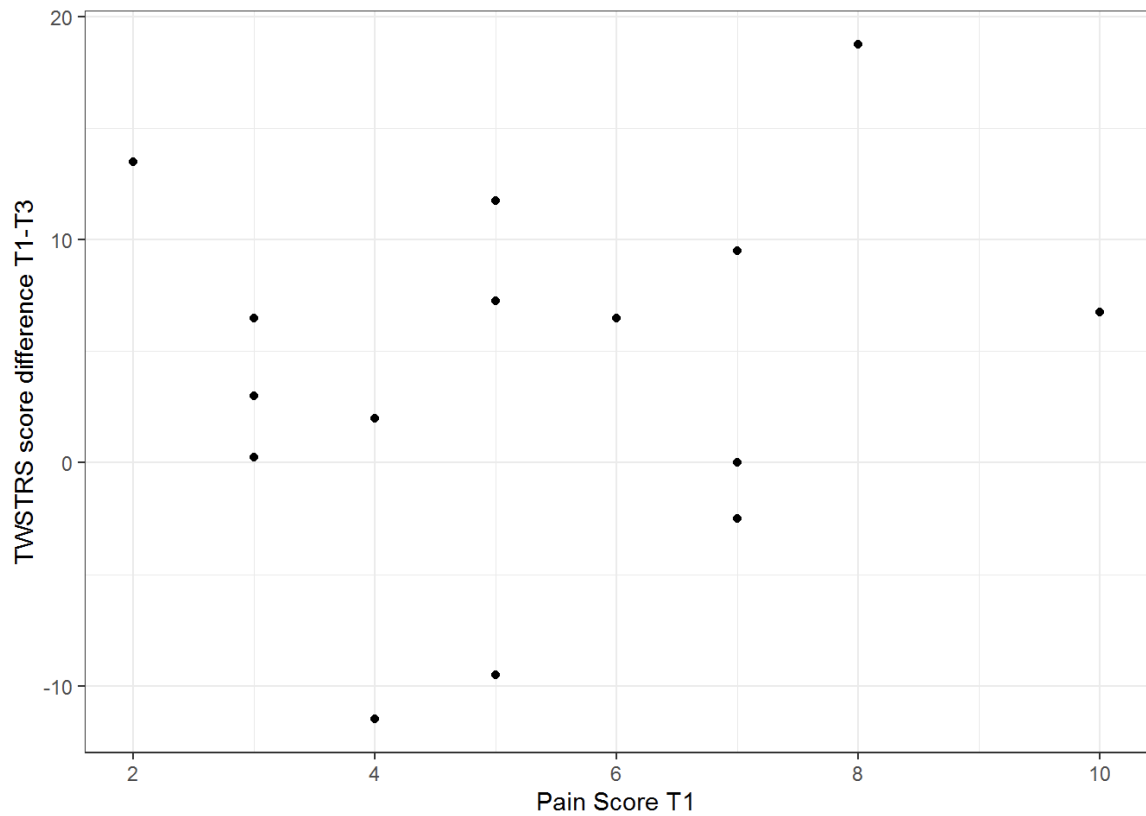
## 6.2. Évolution du score TWSTRS Total sous TENS en fonction du score TWSTRS Total initial



*T1* visite de contrôle à un mois de la dernière injection de toxine botulique, correspondant à l'introduction du TENS

*T3* visite de contrôle à 3-4 mois de l'utilisation du TENS

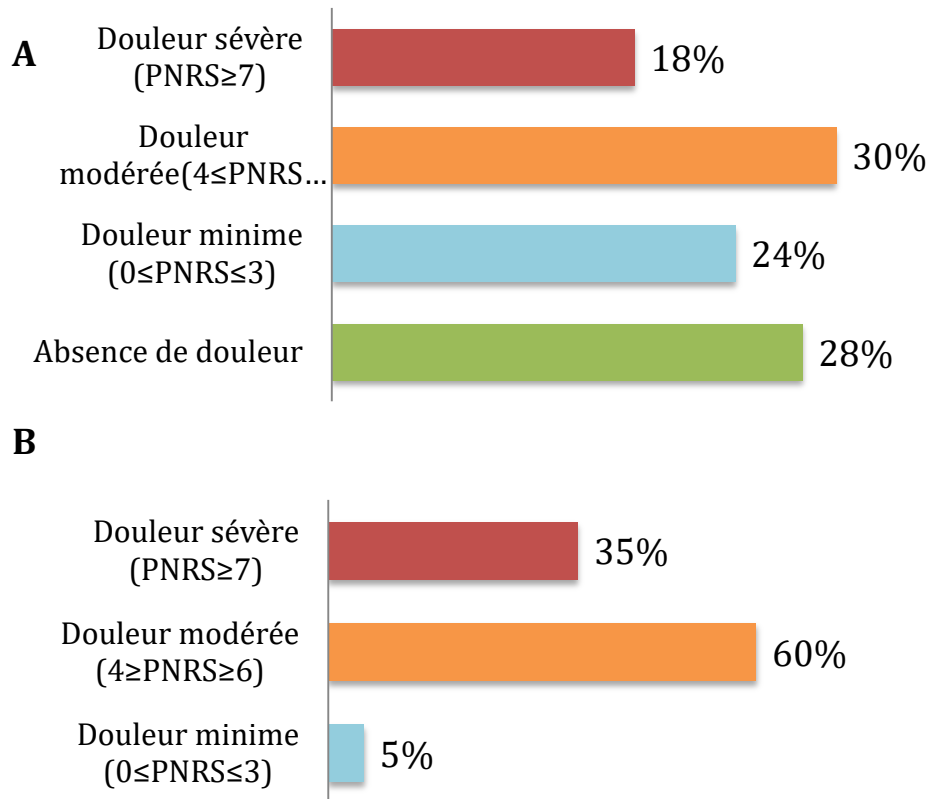
### 6.3. Évolution du score TWSTRS Total sous TENS en fonction du score PNRS initial



*T1* visite de contrôle à un mois de la dernière injection de toxine botulique, correspondant à l'introduction du TENS

*T3* visite de contrôle à 3-4 mois de l'utilisation du TENS

#### 6.4. Caractéristiques de la douleur cervicale chez les patients dystoniques



(A) Ensemble de la population dystonique cervicale (n=50)

(B) Sous-groupe de patients CD utilisant un TENS (n=20)

## 6.5. Score Toronto Western Spasmodic Torticollis Rating Scale (TWSTRS)

Score 1 - SÉVÉRITÉ (/35)
<p><b>A/ Amplitude maximale du mouvement (spontané lié à la dystonie cervicale)</b>            L'amplitude maximale est déterminée en demandant au patient de laisser sa tête dévier complètement, sans résistance ni utilisation de gestes antagonistes, après des manœuvres d'activation, lors de la marche et en position assise. Lorsque le degré de déviation se situera entre deux cotations, on choisira la plus élevée.</p>
<p>1) Rotation G/D            0 - aucun            1 - légère &lt; 1/4 rotation (1-22°)            2 - modérée 1/4 &lt; &lt; 1/2 rotation (23-45°)            3 - moyenne 1/2 &lt; &lt; 3/4 rotation (46-67°)            4 - sévère &gt; 3/4 rotation (68-90°)</p>
<p>2) Latérocolis, inclinaison G/D, exclure l'élévation de l'épaule            0 - aucune            1 - légère 1-15 °            2 - moyenne 16-35 °            3 - sévère &gt; 35 °</p>
<p>3) Antécolis, rétrocolis (antécolis ou rétrocolis sur 3)            • <i>Antécolis</i>            0 - aucune            1 - déviation légère du menton vers le bas            2 - déviation moyenne (mi-distance)            3 - déviation sévère (touche sternum)            • <i>Rétrocolis</i>            0 - aucune            1 - déviation légère du menton en haut            2 - déviation moyenne (mi-distance)            3 - déviation sévère (contre nuque)</p>
<p>4) Glissement latéral droit/gauche            0 - absent            1 - présent</p>
<p>5) Glissement antérieur/postérieur            0 - absent            1 - présent</p>
<p><b>B/ Durée (pondérée d'un coefficient 2, donc de 0 à 10)</b>            L'examineur donnera une note globale estimée lors de l'examen standardisé, après avoir évalué l'amplitude maximale de mouvement, pondérée d'un coefficient 2.</p> <p>0 - pas de déviation            1 - déviation occasionnelle &lt; 25 % temps, le plus souvent sous maximale            2 - déviation occasionnelle &lt; 25 % temps, le plus souvent maximale              - ou déviation intermittente (25 % &lt; &lt; 50 %), le plus souvent sous-maximale            3 - déviation intermittente (25 % &lt; &lt; 50 %), le plus souvent maximale              - ou déviation fréquente (50 % &lt; &lt; 75 %), le plus souvent sous-maximale            4 - déviation fréquente (50 % &lt; &lt; 75 %), le plus souvent maximale              - ou déviation constante (&gt; 75 %), le plus souvent sous-maximale            5 - déviation constante (&gt; 75 %), le plus souvent maximale</p>

### Score 1 - SÉVÉRITÉ (/35) - suite

#### C/ Effets geste antagoniste

Ceux du patient (s'il en a), ou proposé par le praticien :

- 0 - soulagement complet par un ou plusieurs gestes antagonistes
- 1 - soulagement partiel par les aides sensorielles
- 2 - peu ou pas d'effet des aides sensorielles

#### D/ Élévation de l'épaule

- 0 - absente
- 1 - légère <1/3 amplitude, intermittente ou constante
- 2 - modérée 1/3 < < 2/3 amplitude et constante ou sévère > 2/3 amplitude et intermittente
- 3 - sévère > 2/3 amplitude et constante

#### E/ Amplitude du mouvement actif (sans l'aide de gestes antagonistes)

- 0 - capable de bouger la tête jusqu'à la position opposée maximale
- 1 - capable de bouger la tête bien au-delà de la ligne médiane, mais pas maximale
- 2 - capable de bouger la tête jusqu'à ligne médiane, à peine au-delà
- 3 - capable de bouger la tête jusqu'à ligne médiane, sans la franchir
- 4 - mouvement de la tête faible ou absent à partir de la posture dystonique

#### F/ Temps en position médiane

Durée pendant laquelle le patient est capable de maintenir la tête à  $\pm 10^\circ$  de la position neutre sans utiliser de gestes antagonistes (moyenne des deux essais).

- 0 - plus de 60 secondes
- 1 - 46 à 60 secondes
- 2 - 31 à 45 secondes
- 3 - 16 à 30 secondes
- 4 - moins de 15 secondes

**Score de gravité total : Somme de A à F sur 35 (maximum)**

### Score 2 - HANDICAP FONCTIONNEL (/30)

#### 1) Travail (professionnel ou ménager)

- 0 - aucune difficulté
- 1 - conforme aux attentes normales, exécution au niveau habituel, légère perturbation liée à la dystonie cervicale
- 2 - la plupart des activités ne sont pas limitées, certaines activités sont très difficiles ou gênées mais restent possibles avec un niveau de performance inférieur
- 3 - travail avec un niveau de performance inférieur à la normale, la plupart des activités sont gênées, toutes sont possibles avec un niveau de performance inférieur
- 4 - incapacité d'assurer un travail volontaire ou rémunéré, toujours capable de réaliser des tâches domestiques de manière satisfaisante
- 5 - capacité très faible ou nulle de réaliser un travail

#### 2) Activités de la vie quotidienne (par exemple : s'habiller, manger, faire sa toilette, se laver, se raser, se maquiller ...)

- 0 - aucune difficulté
- 1 - activités non limitées, malgré une légère interférence liée au torticolis
- 2 - la plupart des activités ne sont pas limitées, certaines activités sont très difficiles ou gênées mais restent possibles grâce aux aides sensorielles
- 3 - la plupart des activités sont difficiles ou gênées mais encore possibles, aidées par les stimuli sensoriels complexes (extrêmes)
- 4 - toutes les activités sont difficiles, certaines sont impossibles ou nécessitent une assistance
- 5 - dépend d'un tiers pour la plupart des tâches visant à prendre soin de sa personne



### 3) Conduite de véhicules

- 0 - aucune difficulté (ou n'a jamais conduit)
- 1 - aptitude à la conduite non limitée, mais gênée par le torticolis
- 2 - aptitude à la conduite non limitée, mais nécessite des aides sensorielles (telles que se toucher le menton ou le visage, se tenir contre l'appui tête) pour contrôler le torticolis
- 3 - conduite possible uniquement sur de courtes distances
- 4 - conduite généralement impossible à cause du torticolis
- 5 - impossibilité de conduire ou de faire de long parcours en tant que passager à cause du torticolis

### 4) Lecture

- 0 - aucune difficulté
- 1 - aptitude à la lecture non limitée en position assise normale, mais gênée par le torticolis
- 2 - aptitude à la lecture non limitée en position assise normale, mais nécessite des aides sensorielles pour contrôler le torticolis
- 3 - aptitude à la lecture non limitée mais nécessite des aides sensorielles complexes, ou uniquement en positions autre qu'assise (position allongée)
- 4 - aptitude à la lecture limitée malgré les aides sensorielles à cause du torticolis
- 5 - incapable de lire plus que quelques phrases à cause du torticolis

### 5) Télévision

- 0 - aucune difficulté
- 1 - aptitude à regarder la télévision non limitée en position assise, mais gênée par le torticolis
- 2 - aptitude à regarder la télévision non limitée en position assise normale, mais nécessite des aides sensorielles pour contrôler le torticolis
- 3 - aptitude à regarder la télévision non limitée mais nécessite des aides sensorielles complexes, ou uniquement en positions autre qu'assise (position allongée)
- 4 - aptitude à regarder la télévision limitée malgré les aides sensorielles à cause du torticolis
- 5 - incapable de regarder la télévision plus que quelques minutes à cause du torticolis

### 6) Activités hors du domicile (par exemple faire des courses, se promener, aller au cinéma ou au restaurant et activités de loisirs)

- 0 - aucune difficulté
- 1 - activités non limitées, mais gênées par le torticolis
- 2 - activités non limitées, mais dont l'accomplissement nécessite des aides sensorielles simples
- 3 - se livre à des activités extérieures uniquement en présence d'un tiers à cause du torticolis
- 4 - activités externes limitées, certaines activités sont impossibles ou abandonnées à cause du torticolis
- 5 - pratiquement jamais d'activités externes

**Score handicap fonctionnel : somme de 1 à 6 (0 à 5 par items), maximum 30**

### Score 3 – DOULEURS (/20)

#### 1) Sévérité de la douleur (dans le nycthémère)

Noter l'intensité de la douleur cervicale au cours de la semaine écoulée, sur une échelle de 0 à 10, la note 0 correspondant à l'absence de douleur et la note 10 à la douleur la plus insupportable (ou maximale)

- Douleur habituelle de 0-10
- Douleur la moins forte de 0-10
- Douleur la pire de 0-10

**Score: (2\*usuelle + mieux + pire)/4 de 0-10**

#### 2) Durée des douleurs cervicales

- 0 - aucune douleur
- 1 - douleur présente < 10% du temps
- 2 - douleur présente 10 < < 25 % du temps

**Score 3 – DOULEURS (/20) - suite**

- 3 - douleur présente 25 < < 50 % du temps
- 4 - douleur présente 50 < < 75 % du temps
- 5 - douleur présente > 75 % du temps

**3) Contribution de la douleur au handicap**

- 0 - pas de limitation ou de perturbation liée à la douleur
- 1 - la douleur n'est pas gênante mais constitue une cause d'incapacité
- 2 - la douleur perturbe la réalisation de certaines activités, mais ne contribue pas notablement à l'incapacité
- 3 - la douleur contribue en partie au handicap (moins de 50%), mais pas en totalité
- 4 - la douleur est une source majeure de handicap (>50%), mais non exclusive
- 5 - la douleur est la source principale de handicap, sans la douleur la plupart des activités compromises pourraient être réalisées correctement malgré la déviation de la tête

**Score de douleur total : Somme de 1 à 3, maximum 20****SCORE GLOBAL : Somme des 3 scores, maximum 85**

## 6.6. Grille de notation TWSTRS

Score 1 – SÉVÉRITÉ (/35)												
<b>A/ Amplitude maximale du mouvement (/12)</b>												
1) Rotation G/D	0	1	2	3	4							
2) Latérocolis, inclinaison G/D	0	1	2	3								
3) Antécolis, rétrocolis												
Antécolis	0	1	2	3								
ou												
Rétrocolis	0	1	2	3								
4) Glissement latéral D/G	0	1										
5) Glissement antérieur/postérieur	0	1										
<b>B/ Durée (pondérée * 2) (5)/10</b>	0 (1)	2 (2)	4 (3)	6 (4)	8 (5)							
<b>C/ Effets du geste antagoniste (/2)</b>	0	1	2									
<b>D/ Élévation de l'épaule (/3)</b>	0	1	2	3								
<b>E/ Amplitude du mouvement (/4)</b>	0	1	2	3	4							
<b>F/ Temps en position médiane (/4)</b>	0	1	2	3	4							
Score 2 – HANDICAP FONCTIONNEL (/30)												
1) Travail				0	1	2	3	4	5			
2) Activités de la vie quotidienne				0	1	2	3	4	5			
3) Conduite				0	1	2	3	4	5			
4) Lecture				0	1	2	3	4	5			
5) Télévision				0	1	2	3	4	5			
6) Activités extérieures				0	1	2	3	4	5			
Score 3 - DOULEURS (/20)												
<b>1) Sévérité de la douleur (dans le nyctémère) (0-10)</b>												
Usuelle	0	1	2	3	4	5	6	7	8	9	10	
Au mieux	0	1	2	3	4	5	6	7	8	9	10	
Au pire	0	1	2	3	4	5	6	7	8	9	10	
<b>Score</b>	0	1	2	3	4	5	6	7	8	9	10	
<i>(2*usuelle + mieux + pire) (/4)</i>												
<b>2) Durée des douleurs cervicales (0-5)</b>							0	1	2	3	4	5
<b>3) Contribution de la douleur au handicap (0-5)</b>							0	1	2	3	4	5
SCORE GLOBAL /85 (1/35 +2/30 +3/20)												

## 6.7. Protocole d'examen vidéo TWSTRS

<b>1. Debout - vues de face, de côté et de dos, 10 secondes chacune</b>
<b>2. Marche - environ 7 mètres, aller et retour</b> a) sans instructions x 2 b) avec instructions de ne pas résister à la déviation (c'est-à-dire laisser la tête dévier au maximum) x 2
<b>3. Assis - dans la position préférée ou la plus confortable</b> a) sans instructions x 30 secondes, et b) avec instructions de ne pas résister à la déviation x 30 secondes
<b>4. Manœuvres de distraction ou activation : (assis) (D et G séparément) x 10 secondes chacune</b> a) pianoter avec les doigts b) ouvrir et fermer le poing c) pronation et supination de l'avant-bras d) bras tendus, maintenus en dessous du niveau du nez, toucher le nez du doigt x 3 e) taper du pied
<b>5. Temps en position médiane</b> Avec résistance active à la déviation mais sans l'aide de gestes antagonistes ni de support. Demander au patient de garder la tête en rectitude aussi longtemps que possible - maximum 60 secondes x 2 tentatives. Demander au patient de ne pas parler.
<b>6. Effet des « gestes antagonistes »</b> y compris se toucher la joue, se tenir le menton, se tenir la nuque ou l'arrière de la tête, appuyer la tête contre un mur et autres gestes préférés par le patient.
<b>7. Amplitude du mouvement actif (x 2 à chaque fois)</b> Rotation, flexion latérale, flexion en avant, extension
<b>8. Écrire un nom, une phrase, des termes ou phrases répétitifs x 10 secondes</b>
<b>9. Rester couché en décubitus dorsal x 20 secondes</b>

---

**RÉSUMÉ DE LA THÈSE :**

La dystonie cervicale est une pathologie neurologique chronique invalidante dont l'un des principaux facteurs incapacitants et handicapants en est la douleur associée. Le TENS à seuil sensitif dans un but antalgique pourrait constituer un complément voire une alternative aux injections de toxine botulique, mais seuls quelques rapports de cas ont été publiés sur le sujet avec des résultats plus ou moins encourageants.

TENDYS, une étude observationnelle prospective non comparative, a étudié la sécurité et l'efficacité du TENS sur la douleur liée à une dystonie cervicale chez 17 patients suivis au service de neurologie de l'Hôpital Central à Nancy entre septembre 2019 et juillet 2020. En s'appuyant sur l'échelle spécifique TWSTRS, les résultats suggèrent que l'utilisation du TENS en mode « *gate controle* » à visée antalgique dans l'indication dystonie cervicale n'aggrave pas la dystonie et permet de soulager la douleur associée. Ce premier travail amène donc à la conduite d'essais à plus grande échelle afin de confirmer ces résultats et améliorer la prise en charge et la compréhension de cette maladie rare.

---

**TITRE EN ANGLAIS :** Conventional TENS in Cervical Dystonia (TENDYS)

---

**THÈSE : MÉDECINE SPÉCIALISÉE - ANNÉE 2020**

---

**MOTS CLEFS :** Dystonie cervicale, douleur, TENS, toxine botulique, TWSTRS

---

**INTITULÉ ET ADRESSE :**

UNIVERSITÉ DE LORRAINE

Faculté de Médecine de Nancy

9, avenue de la Forêt de la Haye

54505 VANDOEUVRE LÈS NANCY Cedex

---