



**Karolinska
Institutet**

**Institutionen för klinisk vetenskap,
intervention och teknik, CLINTEC
Enheten för logopedi
Logopedprogrammet
Examensarbete i logopedi**

Uppföljning av logopedisk behandling för patienter med träningsinducerad vocal cord dysfunction

Lena Hamberg
Sanna Karlsson

Examensarbete i logopedi,
30 högskolepoäng
Vårterminen 2014

Handledare
Per-Åke Lindestad
Kristina Nyberg

Uppföljning av logopedisk behandling för patienter med träningsinducerad vocal cord dysfunction

Lena Hamberg
Sanna Karlsson

Sammanfattning. Olika behandlingsalternativ finns beskrivna för patienter med vocal cord dysfunction. Vid Karolinska Universitetssjukhuset erbjuds denna patientgrupp logopedisk behandling. I föreliggande studie beskrivs bakgrund och behandlingseffekt för 148 personer som diagnostiserades med träningsinducerad vocal cord dysfunction vid Karolinska Universitetssjukhuset och sedan erhöll logopedbehandling under 2005-2012. Studien bygger på journaluppgifter och en enkät som skickades till de 148 personerna. Svarsfrekvensen var 35 %, det vill säga 52 personer besvarade enkäten. 84,6 % ansåg sig hjälpta av behandlingen. 42 personer hade fortsatt fysträna i oförändrad utsträckning. Ingen av dessa hade behandlats av annan yrkeskategori än logoped. Av dem beskrevs 81 % enligt journalanteckningar, och 62 % enligt enkätsvar ha fått minskade symptom och/eller en förmåga att hantera eventuella kvarstående symptom. Resultaten indikerar att logopedisk behandling med andningsträning förefaller vara ett verksamt behandlingsalternativ för patientgruppen.

A follow-up study of logopedic treatment for patients with exercise-induced vocal cord dysfunction

Lena Hamberg
Sanna Karlsson

Abstract. Several treatment options are described for patients with vocal cord dysfunction. At Karolinska University hospital, these patients are offered treatment by speech and language pathologists. The current study describes traits and treatment effects for 148 people diagnosed with exercise-induced vocal cord dysfunction at Karolinska University hospital who received treatment by speech and language pathologists in 2005-2012. Data were collected from medical records and through a questionnaire that was sent to the 148 individuals. 52 individuals answered the questionnaire which gave a response rate of 35 %. 84,6 % felt helped by the treatment. 42 individuals still practiced athletics to the same extent, and had not received treatment by other professions. Of these 42, 81 % were described through medical records and 62 % through questionnaire responses, having milder symptoms and/or an ability to control symptoms. The results indicate that logopedic respiratory retraining therapy could be effective for these patients.

Vid in- och utandning är stämbanden abducerade i normala fall, för att luft ska kunna strömma in och ut från lungorna (Bartlett, 1989). Då vi sväljer, hostar eller harklar, adduceras stämbanden. Andningen styrs centralt av nervceller i förlängda märgen (Mitchell, Loeschcke, Massion & Severinghaus, 1963).

Vocal cord dysfunction (VCD) definieras som plötsligt påkommen andnöd och stridor, främst under inandning, orsakat av adduktion av glottisk- och/eller supraglottisk vävnad under andning (Mathers-Smith, 2001; Kenn & Balkissoon, 2011). En eventuell supraglottisk förträngning sker i nivå med plica aryepiglottica eller fickbanden (Björck, Bergström, Nygren & Hedlin, 2006). VCD ingår enligt ICD-10 under diagnosen "Paradoxal stämbandsrörlighet" med kod J387E (Björck et al., 2006; Socialstyrelsen, 2011). I denna diagnoskod ingår, förutom VCD, även andra typer av andningssvårigheter.

Hos personer med träningsinducerad VCD uppkommer symptomen ofta i samband med hård fysisk ansträngning och avklingar snabbt om aktiviteten avbryts. Icke träningsinducerad VCD kan ha utlösande faktorer i form av kall luft, starka dofter och emotionell stress (Kenn & Balkissoon, 2011). Att funktionen i larynx kan förväntas vara normal mellan VCD-anfallen beskrivs av Chiang, Goh, Ho, Tang och Chay (2008). Dock menar Treole, Trudeau och Forrest (1999) att tendens till paradoxala stämbandsrörelser även kan observeras under respiration *mellan* VCD-anfallen.

Synonyma termer till VCD förekommer såsom paradoxical vocal fold motion (PVFM) och paradoxical vocal cord dysfunction (PVCD). Vissa definitioner särskiljer även träningsinducerade symptom från icke-träningsinducerade symptom, "exercise-induced laryngeal obstruction" (EILO) versus "inducible laryngeal obstruction" (ILO) (Mathers-Schmidt, 2001; Sullivan, Heywood & Beukelman, 2001; Andrianopoulos, Gallivan & Gallivan, 2000). Vid vissa center i världen definieras även typ av träningsinducerad VCD beroende på vilken nivå som obstruktionen sker. Träningsinducerad VCD på glottisk nivå kallas för "exercise-induced" VCD (EI-VCD) och träningsinducerad VCD på supraglottisk nivå kallas för "exercise-induced laryngomalacia" (EIL) (Nordang, Morén, Johansson, Wenngren & Nordvall, 2009; Maat, Hilland, Røksund, Halvorsen, Olofsson, Aarstad & Heimdal, 2011).

Förekomst av VCD är vanligast hos ungdomar och drabbar flickor i större utsträckning än pojkar (Maat et al., 2011; Newman, Mason & Schmaling, 1995). I en studie av Fahey, Bryant, Karas, Goldberg, Destefano och Gracco (2005) beskrivs att detta eventuellt beror på att glottisöppningen hos kvinnor är mindre samt att larynx är kortare och trängre än hos män, vilket skulle kunna göra kvinnor mer sårbara för VCD. Detta diskuteras även i en avhandling av Maat (2011). Att en stor andel patienter med VCD är högpresterande och deltar i tävlingsidrott på hög nivå beskrivs bland annat av Björck et al. (2006), Wood och Milgrom (1996) samt Brugman och Newman (1993). Medvetenheten om diagnosen VCD har ökat i världen under de senaste 30 åren (Mathers-Smith 2001) men prevalensen är svår att fastställa då tillståndet definieras olika i olika studier (Kenn & Balkissoon, 2011).

Gällande diagnostisering av VCD är det avgörande med en grundlig anamnes. Informationen som då inhämtas används för att urskilja karaktäristiska drag kring patientens andningsbesvär och utesluta differentialdiagnoser till VCD (Mathers-Smith 2001). Det anses vara "the golden standard" att även videofilma patientens larynx under ett VCD-anfall (Kenn & Balkissoon, 2011; Nordang et al., 2009). Att endast låta patienten imitera sina symptom under videofilmningen anses inte tillräckligt för att ställa diagnos eftersom det har visat sig att larynxbild och stridor under ett VCD-anfall skiljer sig från det som patienten uppvisar under imitation (Christopher, Wood & Eckert, 1983). Även ansträngningstest med spirometri ingår ofta vid diagnostisering av VCD (Mathers-Schmidt

2001). Spirometrin registrerar patientens luftflöde (liter/sekund) vid ut- och inandning. Mathers-Schmidt beskriver att kurvan för maximalt inspiratoriskt luftflöde inte är normal vid ett VCD-anfall utan kan visa sig ”avkapad”. Mathers-Schmidt och Brilla (2005) diskuterar dock huruvida spirometri är en pålitlig metod för att säkerställa en VCD-diagnos då en något avkapad inandningsloop kan kvarstå även när VCD-symptomen inte längre förekommer. Kenn och Balkissoon (2011) beskriver hur man kan använda ämnet metakolin för att trigga igång ett VCD-anfall vid spirometriundersökning, men de beskriver också att denna metod saknar validering.

VCD har flera differentialdiagnoser. Ansträngningsutlöst astma är den vanligaste, med VCD-liknande symptom så som andnöd och stridor (Mathers-Schmidt, 2001). Dock finns klara fysiologiska och symptomatiska skillnader mellan astma och VCD. Fysiologiskt sett skiljer sig VCD, där obstruktion sker i de övre luftvägarna, från astma, där obstruktionen istället sker i de nedre luftvägarna (Mathers-Schmidt, 2001). Vid astma tar symptomen några minuter på sig att starta och kan sedan vara upp till flera timmar. Patienten har svårt att andas ut och uppger ofta ett obehag över bröstorg och/eller nedre luftvägar. Vid VCD däremot tar symptomen några sekunder på sig att starta och varar sedan upp till några minuter. Patienten har svårt att andas in och förlägger ofta obehaget till halsen (Kenn & Balkissoon, 2011). Studier visar dock att många patienter med VCD feldiagnostiseras med astma och därmed får en behandling som inte hjälper. Överkonsumtion av astmamedicin kan också innebära en risk för onödiga biverkningar (Kenn & Balkissoon, 2011). Man bör dock vara medveten om att samsjuklighet med astma ofta förekommer hos VCD-patienter. I en studie av Newman et al. (1995) beskrivs förekomst av astma hos ca 50 % av patienter med VCD. Ytterligare differentialdiagnos till VCD är laryngospasm (Punj, Darlong & Pandey, 2008). Också laryngospasm kan samförekomma med VCD, men är till skillnad från VCD en naturlig skyddsreflex som överadducerar larynxmuskulaturen, vilket ger en delvis eller total glottisslutning. Detta orsakas av extern stimuli (Hampson-Evans, Morgan och Farrar, 2008). Även trachealstenos, en medfödd eller förvärvad förträngning av trachea, är en differentialdiagnos till VCD med symptom som t.ex. dyspné och stridor (Gartnett, 2012).

Flera teorier förekommer kring etiologin bakom VCD. Kenn och Balkissoon (2011) spekulerar kring att den laryngeala reflex som finns för att skydda de nedre luftvägarna, hos VCD-patienter är hypersensibel och triggas av faktorer så som exempelvis gastroesofageal reflux, ”post nasal drip” (sekret från näsan som rinner bak i svalget) och/eller kemiska irritationsämnen. Den hypersensibla laryngeala reflexen kan eventuellt även orsaka symptom hos VCD-patienter som hosta, harklingar och heshet (Kenn & Balkissoon, 2011). Röstpåverkan hos VCD-patienter beskrivs av Murry och Sapienza (2010). Författarna menar att de paradoxala stämband rörelserna kan påverka röstproduktionen. Vertigan, Theodoros, Winworth & Gibson, visade i en studie från 2007 att dysfoni förekom hos en tredjedel av VCD-patienterna. Cukier-Blaj, Bewley, Aviv och Murry (2008) spekulerar vidare kring huruvida VCD kan vara en kompensatorisk respons av en nedsatt sensorik i larynx till följd av inflammation på grund av laryngo-faryngeal reflux. Detta eftersom de paradoxalt nog kunde se att stämbandens adduktion lättare utlöstes hos patienter med patologiskt låga sensitivitetströsklar i stämbandsslemhinnan. Även Hampson-Evans et al. (2008) beskriver hur de upptäckte att en nedsatt sensorik i larynx, på grund av bedövning under invasivt ingrepp, kunde orsaka VCD-liknande symptom hos patienten i form av laryngospasm. Övriga orsaksteorier inkluderar bland annat skada i centrala nervsystemet (Lo, Ho & Hwang, 2005), en reflex initierad av vagusnerven (Doshi & Weinberger, 2006), en form av laryngeal dystoni eller övre

luftvägskänslighet för laryngeala irriteranter (Mathers-Schmidt, 2001), strukturella anatomiska avvikelser så som laryngomalaci (Verdolini, Rosen & Branski 2005), eller en flödesberoende kollaps i larynx (Nordang et al., 2009). En annan orsak till att strukturer i larynx kollapsar vid VCD föreslås vara trötthet i m. cricoarytenoideus posterior (Sandnes, Andersen, Hilland, Ellingsen, Halvorsen, Heimdal & Røksund, 2013). Kenn och Balkissoon (2011) beskriver att psykologiska faktorer kan vara en bakomliggande orsak till VCD. Även Husein, Husein, Gardner, Chiang, Larson, Obert, Thompson, Trudeau, Dell, och Forrest (2008) kopplar samman VCD med psykologiska faktorer samt beskriver att VCD-patienter har svårigheter att hantera stress jämfört med den generella populationen. Dock nämner Husein et al. (2008) att VCD-symptomen hos vissa patienter i högre grad kopplas samman med en sjukdomshistoria innehållande gastroesofageal reflux och astma, snarare än med en psykologisk sjukdomshistoria. Mathers-Schmidt och Brilla (2005) spekulerar kring att VCD-symptom kan medföra psykologiska pålagringar hos patientgruppen, medan Nordang et al. (2009) anser att det inte föreligger något samband mellan VCD och psykologiska faktorer. Matrka (2014) menar att oavsett om det är psykologiska eller fysiologiska faktorer som ligger bakom VCD kan stress och oro utlösa VCD-symptom.

Olika behandlingsalternativ för VCD-patienter finns beskrivna, exempelvis: Logopedisk behandling i form av avspännings- och andningsövningar (Sullivan et al., 2001; Mathers-Schmidt, 2001; Newsham, Klaben, Miller & Saunders, 2002), inspiratory muscle training (IMT) (Mathers-Schmidt & Brilla, 2005; Sandnes et al., 2013), biofeedback i form av ytelektromyografi eller träning av andningstekniker med samtidig visuell laryngoskopi (Warnes & Allen, 2005; Altman, Mirza, Ruiz & Sataloff, 2000), inhalering av ipratropiumbromid (Doshi & Weinberger, 2006) och operation (Nordang et al., 2009; Maat et al., 2011). Den logopediska behandlingen som är aktuell för patientgruppen består av avspännings- och andningsövningar och har föreslagits benämnas som "respiratory retraining therapy" (Murry, Tabae, Owczarzak & Aviv, 2006) och "laryngeal control therapy" (Husein et al., 2008).

I en studie av Sullivan et al. (2001) ingick 20 elitidrottande tonårsflickor med träningsinducerad VCD och som erhöll logopedisk behandling med avspännings- och andningsövningar. Även patienternas familjemedlemmar och tränare var involverade i hemmaträningen som bestod av övningar från behandlingen. Nittiofem procent av de 20 flickorna rapporterade kontroll av sina VCD-symptom sex månader efter avslutad logopedbehandling. Samtliga flickor hade fram till uppföljningen fortsatt med den idrott där VCD-symptomen uppkom i samma utsträckning som före behandlingen. I studierna av Mathers-Schmidt (2001) och Newsham et al. (2002) fann man att denna typ av logopedisk behandling kraftigt kan reducera eller helt eliminera VCD-anfall. Patienten lär sig att känna igen och upptäcka ökade spänningar i larynx och kan förhindra att VCD-anfall uppstår genom att använda sig av en avspänd andningsteknik som aktiverar diafragma och abdominal muskulatur. Mathers-Schmidt (2001) beskriver i sin studie två patienter med VCD. Den enes symptom triggades igång under fysisk träning och den andres av luftvägsirriteranter samt luftburna allergener. Båda patienterna erhöll logopedisk behandling bestående av avspännings- och andningsövningar. Båda uppnådde en positiv behandlingseffekt men i olika grad. För patienten med träningsinducerad VCD eliminerades VCD-anfallen helt och effekten höll i sig i minst ett år. För patienten vars VCD-symptom triggades igång av luftburna irriteranter minskade grad och duration av VCD-symptom, men VCD-anfallen fanns fortfarande.

I en fallstudie av Archer, Hoyle, McCluskey och Macdonald (2000) beskrivs att en 22-årig kvinna med VCD inte uppnådde önskvärd effekt av logopedbehandlingen hon erhölet. Doshi och Weinberger (2006) beskriver att logopedisk behandling främst leder till att patienter lär sig *hantera* sina VCD-symptom. De ställer sig därför tveksamma till om behandlingen är optimal för idrottsutövande patienter med träningsinducerad VCD, då dessa individer kan vara beroende av att symptomen helt försvinner för att inte vara hindrade i sin träning.

I en prospektiv, experimentell fallstudie av Mathers-Schmidt och Brilla (2005) indikerade resultaten att IMT skulle kunna vara gynnsam för personer med VCD då patienten ökade sin respiratoriska muskelstyrka och subjektivt upplevde att VCD-symptomen minskade. Man kunde även med hjälp av fiberskopi se att larynx bilden inte längre visade några tecken på stämbandsadduktion under situation som tidigare framkallade VCD. Även Sandnes, et al. (2013) kom i en pilotstudie fram till att IMT möjligtvis kunde vara en effektiv behandlingsform vid träningsinducerad VCD. Gällande biofeedback beskriver Warnes och Allen (2005) hur patienter med hjälp av ytelektromyografi lärde sig att ändra och kontrollera sin laryngeala muskelaktivitet.

Operation, i form av supraglottoplastik, beskrivs som ett behandlingsalternativ för patienter med träningsinducerad VCD på supraglottisk nivå, i en artikel av Nordang et al. (2009). Av totalt 6 opererade patienter följdes 4 upp efter sex månader med kontrollfilmning av larynx under fysisk ansträngning. För samtliga 4 beskrevs en uppvisad reducerad supraglottisk obstruktion.

I följande stycke ges en beskrivning av behandlingsprogrammet för diagnostisering och behandling av patienter med VCD vid Karolinska Universitetssjukhuset (Björk et al., 2006; Nygren, 2013). Diagnostisering av VCD görs av en ÖNH-läkare/foniater genom noggrann anamnesupptagning och inspektion av larynx med ett nasofiberskop. Vid undersökningen utesluts annan patologi samt anatomiska avvikelser i larynx och övre delen av trachea. Larynx inspekteras under både respiration och fonation. För att se maximal abduktion av stämbanden ombeds patienten även att sniffandas in genom näsan. I lärandesyfte får patienten därefter i de flesta fall försöka imitera sina VCD-symptom och ofta kan då en adduktion av stämbanden ses under inspirationsfasen. Läkaren använder videodokumentationen för att förklara för patienten hur stämbanden ab- och adduceras och att dessa rörelser kan styras viljemässigt. Att videofilma larynx under ett äkta VCD-anfall är problematiskt eftersom symptomen ofta uppstår i samband med *hård* fysisk ansträngning. Om patienten tror sig kunna utlösa VCD-symptom genom en *lättare* fysisk aktivitet som kan utföras på plats, t.ex. springa upp och ned för trappor, får patienten göra det och undersöks direkt efter, innan symptomen hunnit avklinga, med laryngoskopi. Även ett ansträngningstest med spirometri utförs hos fysioterapeut. En noggrann bedömning av andningsljud med hjälp av stetoskop görs före, under och efter ansträngningstestet. För att andningsbesvär ska utlösas hos patienten får denne springa på ett löpband under 8 minuter, med en arbetspuls på 80 % av maxpuls, och tillåts endast att andas genom munnen. Spirometrin utförs innan, direkt efter, samt 5, 10 och 15 minuter efter den fysiska ansträngningen. De patienter som får en VCD-diagnos ställd erbjuds logopedbehandling. Logopedbehandlingen består av ett program som bygger på kunskap från Mathers-Smith (2001) och Sullivan et al. (2001) samt Mathers-Smith och Brilla (2005). Det innefattar ett nybesök, tre behandlingstillfällen samt ett uppföljningsbesök ca tre månader efter avslutad behandling. Fokus för behandlingen är avspännings- och andningsövningar. Vid nybesöket informerar logopeden patienten om behandlingens innehåll och mål, om grundläggande anatomi och om vad som sker fysiologiskt vid ett VCD-anfall. Då görs även

viloandningsövningar där målet är att patienten hittar en djup avspänd bukandning. Nybesöket avslutas med en röstinspelning, och en inspelning görs även vid uppföljningsbesöket (Nygren, 2013). Under behandlingsbesöken görs talandningsövningar med målet att patienten ska hitta en passiv avspänd bukinandning i pauserna. Slutligen görs övningar med syftet att behålla djup bukandning så länge som möjligt även under fysisk ansträngning, innan patienten fått högre puls och andningen övergår i bröstkorgsandning. Under behandlingsbesöken görs även avspänningsövningar för hela kroppen, med särskilt fokus kring larynxområdet, med bibehållen avspänd bukandning. Då tidigare studier beskriver att stress kan ha ett samband med uppkomst av VCD-symptom (Kenn & Balkissoon, 2011; Mathers-Schmidt & Brilla, 2005; Husein et al., 2008; Matrka, 2014) samtalar logopeden och patienten kring eventuella krav som ställs på patienten, både av patienten själv och av omgivningen. Det övergripande målet med behandlingen är att förbättra patientens möjligheter att hitta avspänning på stämbandsnivå, för att minska andningsbesvären vid VCD.

I ett examensarbete i logopedi vid Lunds universitet gjordes en retrospektiv studie av behandlingseffekt för 27 patienter med vocal cord dysfunction. 19 av dessa hade genomgått logopedisk behandling mellan åren 2004-2011 enligt samma program som erbjuds vid Karolinska Universitetssjukhuset. 5 av dessa deltog i en uppföljande telefonintervju där 4 uppgav minskade eller hanterbara besvär. Författarna uttryckte dock att det låga antalet deltagare i studien medförde att inga generella slutsatser kunde dras av resultaten (Moberg & Thulin, 2011).

Den föreliggande studien ingår i det större forskningsprojektet "Vocal cord dysfunction - outcome of treatment", bedrivet av foniatern Kristina Nyberg vid Karolinska Universitetssjukhuset. Syftet med forskningsprojektet är att kartlägga den patientgrupp som diagnostiserats med VCD vid Karolinska Universitetssjukhuset fr.o.m. 2005 t.o.m. 2012, samt utvärdera handläggningen av dessa, inklusive den logopediska behandlingen.

Syftet med föreliggande studie var att kartlägga bakgrundsfaktorer och undersöka eventuell effekt av logopedisk behandling hos patienter med träningsinducerad VCD.

Frågeställningar var:

1. Upplever sig patienter hjälpta av logopedisk behandling?
2. Upplever patienter att eventuella kvarstående VCD-symptom är minskade och/eller kan hanteras, *vid behandlingens avslut?*
3. Hur stämmer patientens upplevelser av behandlingens effekt överens med den behandlande logopedens?
4. Hur beskriver patienter sina VCD-symptom vid tidpunkten för enkätens ifyllnad, *minst ett år efter* erhållen logopedbehandling?
5. Minskar patienter med VCD på sin fysiska träning på grund av VCD-symptomen?

Metod

Deltagare

Inklusionskriterier för deltagande i studien var personer som diagnostiserats med "Paradoxala stämbandsrörelser" (J387E) på Öron-, näs- och halskliniken vid Karolinska Universitetssjukhuset i Stockholm mellan åren 2005-2012 som bedömts ha träningsinducerad VCD samt erhållit logopedisk behandling.

Under åren 2005-2012 diagnostiserades och bedömdes 300 personer vid Karolinska Universitetssjukhuset ha VCD. 152 av dessa remitterades ej vidare till logoped efter diagnostiseringsprocessen och kommer att beskrivas närmare i forskningsprojektet "Vocal cord dysfunction – outcome of treatment". 148 av de 300 erhöll logopedisk behandling med fokus på avspännings- och andningsövningar. Samtliga 148 personer hade *träningsinducerad* VCD. Dessa blev tillfrågade att delta i studien genom utskick av informationsblad, samtyckesformulär och enkät (beskrivna under "Material"). Svar inkom från 56 av de 148 personerna. Fyra av enkäterna var dock ofullständigt besvarade och fick därför uteslutas från studien. De 52 personer (svarsfrekvens 35 %) som skickade tillbaka enkätsvar som godkändes kommer att benämnas som *deltagare*. I tabellerna 1 och 2 presenteras information om de 52 deltagarna och de 96 personer som ej besvarade enkäten (inklusive de 4 som svarade ofullständigt) och som här benämns *övriga*.

Tabell 1.

Könsfördelning hos studiens 52 deltagare och övriga 96 personer

	Kvinnor	Män
Deltagare	47	5
Övriga	76	20

Tabell 2.

Ålder vid ställd VCD-diagnos, antal logopedbesök samt år sedan påbörjad logopedbehandling, hos studiens 52 deltagare och övriga 96 personer

	N	Medelvärde	Standardavvikelse	Min	Max
Ålder vid diagnosticering					
Deltagare	52	15,3	3,1	9	26
Övriga	96	15,5	4,1	8	38
Antal logopedbesök					
Deltagare	52	4	1,4	1	5
Övriga	96	3,3	1,6	1	5
År sedan påbörjad logopedbehandling					
Deltagare	52	4,2	2	1	9
Övriga	96	5,1	2,3	1	9

* = En person ur varje grupp exkluderades på grund av att uppgifter saknades.

Bortfallsanalys. En bortfallsanalys gjordes för att jämföra studiens 52 deltagare med de övriga 96 personerna. Gällande antalet logopedbesök saknas uppgift för 1 deltagare samt 1 person bland de övriga 96 personerna, på grund av att de gick hos logoped med

ett journalsystem som författarna ej hade tillgång till. Dessa 2 personer exkluderades ur beräkningen kring antalet logopedbesök.

Deltagarna hade i genomsnitt något fler logopedbesök ($M = 4$) än övriga personer ($M = 3.3$) $t(144) = 2.57$ $p < 0.05$. Deltagarna hade också mera nyligen påbörjat sin logopedbehandling $t(146) = -2.36$ $p < 0.05$. Däremot förelåg ingen signifikant skillnad mellan deltagare och övriga personer gällande ålder vid ställd VCD-diagnos $t(146) = -0.32$ $p > 0.05$, eller andelen män och kvinnor de två grupperna $X^2(1) = 3.02$ $p > 0.05$.

Material

Ett register över de 148 deltagarna hade upprättats i Excel av handledarna innan denna studie påbörjades. Informationen hade hämtats från diagnostiserande läkares- och behandlande logopeders journalanteckningar i journalsystemet Take Care. I registret framgick personuppgifter som namn, adress och personnummer, samt uppgifter om kön, ålder vid diagnos, datum för diagnos, metod för diagnostisering, förekomst av allergier och astma, om VCD-symptom förekom vid tillfällena utöver fysisk träning, samt antal logopedbesök. Inför bearbetning av data, upprättade författarna en kopia av registret vilket avidentifierades på uppgifter som kunde kopplas till enskild person.

Enkät. Författarna utformade en enkät (Bilaga A) i samråd med handledarna. Enkäten innehöll frågor om huruvida deltagarna kände sig hjälpta av den logopediska behandlingen, om de kunde hantera eventuellt kvarstående symptom vid behandlingens slut samt om de fått upphörda eller kraftigt minskade symptom vid behandlingens slut och också huruvida symptom fanns kvar vid tidpunkten för enkätens ifyllnad. Frågor fanns också om de faktorer som under tiden för behandlingen framkallade VCD-symptomen fanns kvar, samt om personerna fått behandling för VCD av annan yrkeskategori än logoped. I syfte att beskriva aktuell patientgrupp inhämtades information om astma och/eller allergi, röstbesvär, psykologkontakt, stresskänslighet, om personerna ställde höga krav på sig själva, rökning, nivå på fysisk träning, om VCD-symptom uppkom i situationer utöver fysisk träning, samt om personen hade valt att minska på sin fysiska träning och om VCD-symptomen hade något inflytande i det beslutet. Enkäten bestod av 12 huvudfrågor med Ja/Nej svar eller flervalsalternativ, för kvantitativ analys. På vissa frågor ombads också personerna att svara med egna ord för att ge underlag för en kvalitativ analys. Enkäten testades inte i någon pilotstudie eller gällande validitet och/eller reliabilitet.

Tillvägagångssätt (procedur)

En ansökan om etikprövning skickades in till Regionala etikprövningsnämnden i Stockholm under december 2013 och godkändes i januari 2014 (Dnr: 2013/2070-31/1). Då etikprövningen godkänts, uppförde handledarna för studien ett register i Excel (beskrivet under "Material"). Författarna fick därefter ta del av registret innehållande personuppgifter. Personerna i registret tilldelades varsitt nummer för avidentifiering.

Enkät, samtyckesformulär och information om studien (beskrivna under "Material"), samt förfrankerade och adresserade svarskuvert skickades ut till de 148 personerna. Samtliga blanketter var numrerade med de avidentifieringskoder personerna hade blivit tilldelade. Enkäten tog uppskattningsvis ca 15 min att fylla i. De medskickade

svarskuverten var adresserade till ett postfack vid logopedkliniken på Karolinska Universitetssjukhuset. Författarna till studien hade tillgång till postfacket, och inhämtade inkomna svar regelbundet under sju veckor efter första utskicket.

Ca två veckor efter enkätutskick, skickades en påminnelse till de personer vars svar ej ännu inkommit, tillsammans med nya förfrankade och adresserade svarskuvert.

Av de 148 personerna svarade totalt 56 varav 52 enkäter godkändes för analys. Då enkäten skickades ut under 2014 innebar det att tidpunkten för ifyllande av enkät var mellan ett och nio år efter erhållen logopedbehandling, för samtliga deltagare.

Svaren på enkätfrågorna lades sedan in i det avidentifierade registret.

Deadline för enkätsvar som inkluderades i studiens analys sattes till fem veckor efter att påminnelse skickats ut.

Statistisk analys/Databearbetning

Nedan följer en beskrivning av studiens analyser:

Analys 1. Hur stor andel av deltagarna upplevde sig hjälpta av logopedbehandlingen? Antalet deltagare som besvarat enkätfråga 1 med "ja" eller "ja, men inte helt" dividerades med totala antalet deltagare.

Analys 2. Hur stor andel av deltagarna uppgav att de vid tidpunkten för enkätens ifyllnad valt att minska på sin fysiska träning, där VCD-symptomen hade inflytande i beslutet? Antalet deltagare som besvarat enkätfråga 9d med "nej" och sedan beskrivit att detta var på grund av VCD, dividerades med det totala antalet deltagare.

Enkätfråga 1 och 3 vägde tungt i studiens analys gällande kortsiktig behandlingseffekt. För att undersöka om svaren på enkätfråga 1 verkligen avspeglade de behandlingseffekter som enkätfråga 3 hade i syfte att utreda, utfördes analys 3.

Analys 3. Förelåg något samband mellan enkätfråga 1 och enkätfråga 3? Resultatet beräknades genom programmet IBM SPSS Statistics, version 22. En dikotom variabel skapades av svarskategorierna på respektive enkätfråga: De deltagare som hade besvarat enkätfråga 3 med alternativen 1, 2, eller 1+2 tilldelades index 1, medan de deltagare som hade kryssat i ruta 3, 4, 5 eller någon kombination av dessa tilldelades index 2. De två första svarsalternativen tolkades som positiv behandlingseffekt, medan resterande svar var svåra att tolka som positiva eller negativa. Svaren till enkätfråga 1 tilldelades index enligt följande: De som svarat "Ja", samt "Ja, men inte helt" tilldelades index 1, och de som svarat "nej" tilldelades index 2. Svartsalternativen "Ja" och "Ja, men inte helt" slogs samman då de båda innebar att deltagarna upplevt sig hjälpta av den logopediska behandlingen. Genom en Pearson's Chi² korstabulering räknades sambandet ut. Då uträkningen baserades på dikotoma nominalvariabler användes korrelationskoefficienten Cramér's V (Φ). Effektstorleken estimeras utifrån måtten: $\Phi 0.1$ = liten effekt, $\Phi 0.3$ = medelstor effekt, $\Phi 0.5$ = stor effekt (Spatz, 2011).

Analys 4 och 5 syftade till att undersöka kortsiktig behandlingseffekt. Endast de 42 deltagare som *under tidsperioden för den logopediska behandlingen* fortsatt med sin fysiska träning i samma utsträckning som före logopedbehandlingen, och enbart fått logopedisk behandling för sin VCD (enligt journalanteckningar eller enkäter) inkluderades i dessa analyser.

Analys 4. Hur stor andel av dessa 42 deltagare uppgav i enkäten att den logopediska behandlingen avslutades för att personens symptom upphört eller kraftigt minskat och/eller att personerna hade fått förmåga att hantera eventuellt kvarstående symptom? Antalet

deltagare som besvarat enkätfråga 3 med alternativ 1 och/eller alternativ 2, dividerades med de 42 deltagare som uppfyllde inklusionskriterierna för analysen.

Analys 5. Hur stor andel av dessa 42 deltagare beskrevs i journalanteckningar ha fått upphörda eller lindrigare symptom och/eller fått förmåga att hantera eventuellt kvarstående symptom under tiden för den logopediska behandlingen? Antalet deltagare som i journalanteckningar beskrevs ha fått lindrigare symptom och/eller kunna hantera sina symptom efter logopedbehandlingen, dividerades med de 42 deltagare uppfyllde inklusionskriterierna för analysen.

Analys 6 syftade till att undersöka långsiktig behandlingseffekt. Endast de 22 deltagare som *vid tidpunkten för enkätens ifyllnad* fortsatt med sin fysiska träning i samma utsträckning som före logopedbehandlingen, och enbart fått logopedisk behandling för sin VCD (enligt journalanteckningar eller enkäter) inkluderades i denna analys.

Analys 6. Hur stor andel av dessa 22 deltagare uppgav i enkäten att de vid tidpunkten för enkätens ifyllnad hade upphörda eller lindrigare symptom jämfört med före den logopediska behandlingen? Antalet deltagare som besvarat enkätfråga 8 med ”nej” adderades med de som besvarat enkätfråga 8 med ”ja” och enkätfråga 8a med ”lindrigare”. Detta antal deltagare dividerades sedan med det totala antalet deltagare som uppfyllde inklusionskriterierna för analysen.

Analys 7. En kvalitativ beskrivning av dessa 22 deltagare. Deltagarna delades in i 4 grupper utifrån den grad av symptom de i enkäten uppgav sig ha vid tidpunkten för enkätens ifyllnad. Via journaldata undersöktes sedan retrospektivt mängden logopedbehandling och hur deltagarna hade tillägnat sig andningsteknikerna i vila och i fysisk träning. Syftet med analysen var att se huruvida det förelåg likheter/skillnader inom och/eller mellan grupperna.

Forskningsetiska överväganden

Studien godkändes av Regionala etikprövningsnämnden i Stockholm (Dnr: 2013/2070-31/1). En anmälan i personuppgiftshandtering (PUH) gjordes för registret med personuppgifter.

Samtliga deltagare, och i de fall deltagaren var under 18 år, vårdnadshavare, gav sitt samtycke till insamlande av information från enkätsvar och journalanteckningar, genom att fylla i och återsända ett samtyckesformulär. Genom att ge sitt samtycke godkände deltagarna att data samlades om deras synpunkter på behandlingen, samt att denna information fick användas och även jämföras med relevant information hämtad ur deltagarnas journaler. Eftersom personer kan uppleva det känsligt att lämna ut denna typ av uppgifter informerades personerna skriftligen om att deltagande inte innebar några hälsorelaterade risker, att medverkan i studien var frivillig, att alla personuppgifter skulle komma att avidentifieras, att personen var fri att avbryta sitt deltagande när som helst utan given anledning samt att avbrutet deltagande, eller val att avstå från deltagande, ej skulle påverka personens rätt till eventuell framtida behandling.

Enkätsvar, samtyckesformulär, ett USB-minne med det icke-avidentifierade registret, samt kodnyckel förvarades i låst skåp på låst avdelning, på Karolinska Universitetssjukhuset i Huddinge.

Resultat

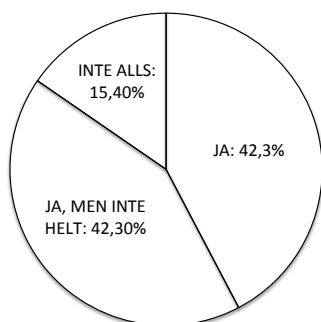
I enkätsvar framkom att majoriteten av deltagarna antingen hade lätt att bli stressade och/eller ställde höga krav på sig själva. Det framkom även att nästan en fjärdedel av deltagarna hade haft psykologkontakt. Ytterligare beskrivande information, inhämtad ur enkätsvar, kring de totalt 52 deltagarna, presenteras i tabell 3.

Tabell 3.

Förekomst av astma, allergi, röstbesvär, psykologkontakt, rökning, höga krav, stresskänslighet, minskad fysisk träning EJ beroende på VCD, situationer där VCD-symptom förekommer, samt träningsnivå vid tidpunkt för behandling hos de 52 deltagarna

	Antal deltagare	(%)
Hade vid tidpunkten för enkätens ifyllnad:		
Astma	15	28,8
Allergi	22	42,3
Röstbesvär	9	17,3
Lätt för att bli stressad och/eller höga krav	48	92,3
Lätt för att blir stressad	1	1,9
Höga krav	14	26,9
Lätt för att bli stressad och höga krav	33	63,5
Haft psykologkontakt	12	23,1
Minskat på sin idrott, men EJ p.g.a. VCD	12	23,1
Vid tidpunkt för behandling:		
VCD-symptom vid fysisk träning	52	100
Träningsnivå:		
Egenträning	7	13,4
Klubbnivå	32	61,5
Distriktsnivå	9	17,3
Landslagsnivå	4	7,7
VCD-symptom i situationer utöver träning	16	30,8

På frågan ”Hur stor andel av deltagarna upplevde sig hjälpta av logopedbehandlingen de erhållit?” svarade som framgår av figur 1, en majoritet av deltagarna (44/52; 84,6%) att de blivit hjälpta. Jämnstora andelar av dessa upplevde sig hjälpta utan förbehåll (”Ja”) respektive delvis hjälpta (”Ja, men inte helt”).



Figur 1. Procentandel deltagare gällande huruvida de upplevde sig hjälpta av logopedbehandlingen.

Av de totalt 52 deltagarna uppgav 25 % att de vid tidpunkten för enkätens ifyllnad valt att minska på sin fysiska träning, och att VCD-symptomen hade inflytande i beslutet.

Genom analys 3 framkom att ett medelstarkt till starkt samband förelåg mellan enkätfråga 1 och 3 ($\varphi = 0,44$; $p < 0,001$).

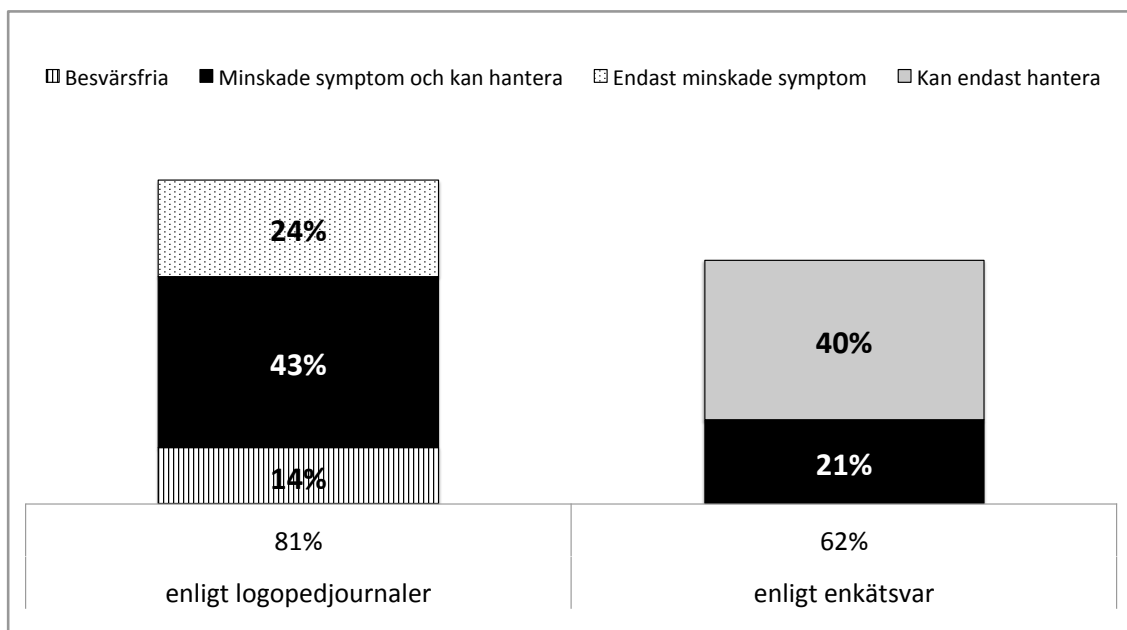
Av de 42 deltagare som inkluderades i analys 4 och 5 framkom att 61,9 % (26/42) av deltagarna uppgav att logopedbehandlingen avslutades för att de fått förmåga att hantera sina symptom. Av de 26 uppgav 9 deltagare även att symptomen upphört eller kraftigt minskat. Resterande 16 deltagare uppgav att logopedbehandlingen avslutades på grund av att de ej erbjöds mer, eller övriga orsaker som personerna fick beskriva med egna ord (exempelvis att behandlingen avbröts på grund av flytt). 81 % (34/42) av de 42 deltagarna beskrevs av behandlande logoped ha fått upphörda eller lindrigare symptom och/eller ha fått förmåga att hantera symptomen under tiden för behandlingen. En sammanställning av symptom och förmåga att hantera symptom för samtliga deltagare i analys 5, presenteras i tabell 4.

Tabell 4.

Information, inhämtad ur journaler, om de 42 deltagare som under logopedbehandlingen fortsatt fysträna i samma utsträckning som före behandlingen, och enbart fått logopedbehandling för sin VCD. Grad av symptom- och förmåga att hantera symptom under tiden för behandlingen, är jämfört med före behandlingen

	Deltagare (N = 42)
Upphörda symptom	6
Lindrigare symptom + Kan hantera symptom	18
Lindrigare symptom	10
Ej lindrigare symptom+ Kan ej hantera symptom	1
Uppgifter kring symptom och förmåga att hantera symptom saknas/är oklara	7

I figur 2 illustreras en jämförelse mellan den procentandel deltagare som i behandlande logopeders journalanteckningar beskrevs ha fått upphörda eller lindrigare symptom och/eller förmåga att hantera eventuellt kvarstående symptom (utan beskriven behandling av annan yrkeskategori eller minskad fysisk träning) samt den procentandel deltagare som uppgav att den logopediska behandlingen avslutades på grund av kraftigt upphörda eller kraftigt minskade symptom och/eller att de kan hantera eventuellt kvarstående symptom (utan beskriven behandling av annan yrkeskategori eller minskad fysisk träning).



Figur 2. Andel deltagare som enligt logopedjournaler hade fått minskade symptom och/eller kunde hantera sina symptom vid behandlingens avslut, och andel deltagare som genom enkäten uppgav att logopedbehandlingen avslutades på grund av att deltagaren kunde hantera sina symptom och/eller hade fått upphörda eller kraftigt minskade symptom

Av de 22 deltagarna i analys 6 uppgav sig 68,2 % (15/22) ha upphörda eller lindrigare symptom vid tidpunkten för enkätens ifyllnad, jämfört med före den logopediska behandlingen. En sammanställning kring hur samtliga deltagare i analysen upplevde sina symptom vid tidpunkten för enkätens ifyllnad, jämfört med före den logopediska behandlingen, presenteras i tabell 5.

Tabell 5.

Information inhämtad ur enkätsvar om de 22 deltagare som vid tidpunkten för enkätens ifyllnad fortsatt med fysträning i samma utsträckning som före behandlingen, och enbart fått logopedbehandling för sin VCD. Grad av symptom, är jämfört med före behandlingen

	Deltagare (N = 22)
Upphörda symptom	3
Lindrigare symptom	12
Oförändrade symptom	6
Allvarligare symptom	1

Resultaten från analys 7 visade att en spridning fanns mellan deltagarna inom alla grupper gällande variabler så som antal behandlingstillfällen och i vilken grad de tagit till sig andningsteknikerna i vila samt under fysisk träning. Dock beskrevs det genom journalanteckningar att de 3 deltagare som vid tidpunkten för ifyllnad av enkäten uppgav

att VCD-symptomen helt hade upphört, hade tagit till sig avspännings- och andningsteknikerna *både* i vila och i fysisk träning vid logopedbehandlings avslut. Nedan följer en mer detaljerad beskrivning av de 22 deltagarna i analys 7, indelade i grupper utifrån den grad av symptom de uppgav sig ha vid tidpunkten för enkätens ifyllnad:

De 3 deltagare som uppgav att VCD-symptomen hade upphört vid tidpunkten för ifyllnad av enkäten: Antalet logopedbesök varierade inom gruppen: 1 deltagare hade genomgått två besök, och de andra 2 hade genomgått 5 besök. Samtliga beskrevs, genom journalanteckningar, ha tagit till sig andningsteknikerna både i vila samt i fysisk träning vid logopedbehandlings avslut.

De 12 deltagare som uppgav sig ha lindrigare symptom vid tidpunkten för ifyllnad av enkäten: Antalet logopedbesök varierade inom gruppen. 11 av de 12 deltagarna tog till sig andningsteknikerna helt i vila och 1 deltagare till viss del i vila. 3 kunde helt använda andningsteknikerna i fysisk träning och ytterligare 3 i de flesta fall (men ej vid t.ex. fysisk träning i samband med extra hög stress).

De 6 deltagare som uppgav sig ha oförändrade symptom vid tidpunkten för ifyllnad av enkäten: Antalet logopedbesök varierade inom gruppen. 5 av de 6 deltagarna tog till sig andningsteknikerna helt i vila och 1 till viss del. 2 av de 6 kunde applicera teknikerna helt i fysisk träning och ytterligare 2 till viss del i fysisk träning.

Den deltagare som uppgav att hen vid tidpunkten för ifyllnad av enkäten hade allvarligare symptom: Denna deltagare genomgick hela det logopediska behandlingsprogrammet med 5 besök, under 2010-2011, och uppgav att behandlingen avslutades för att hen inte erbjöds mer behandling, samt att hen vid tidpunkten för enkätens ifyllnad ej önskade ytterligare behandling. Deltagaren uppgav även att hen vid tidpunkten för enkätens ifyllnad ej var orolig då symptom uppkom. Enligt journalanteckningen hade denna deltagare efter erhållen logopedbehandling fått en mer adekvat bukandning i vila, men bröstkorgsandning förekom fortfarande. Vidare beskrevs hur deltagaren även uppgav sig kunna hantera sina symptom under fysisk träning, även om symptomen fortfarande existerade under hård fysisk ansträngning.

Diskussion

Av resultaten framkom att en majoritet av deltagarna minst ett år efter erhållen behandling uppgav att de upplevde sig hjälpta av den logopediska behandlingen. Då svarsfrekvensen var relativt låg, 35 %, kan dock inte resultaten med säkerhet generaliseras. Tidigare studier har visat att svarsfrekvensen för enkäter som skickats ut med post i medeltal är 55,6 % med standardavvikelsen 19,7 (Baruch, 1999). Asch, Jedrziewski och Christakis (1997) menar dock att även studier med en lägre svarsfrekvens kan ha svar som är generaliserbara, om ingen systematisk skillnad föreligger mellan den grupp som besvarat enkäten och den grupp som inte besvarat den. Därför gjordes en bortfallsanalys i föreliggande studie som visade att de 52 deltagarna hade genomgått något fler logopedbesök och även mer nyligen påbörjat sin behandling, jämfört med de övriga 96 personerna. En möjlig tolkning av dessa skillnader skulle kunna vara att patienter som mer nyligen fått logopedbehandling, och även erhållit mer logopedbehandling (antal logopedbesök) i högre grad känner sig angelägna om att delta i studien på grund av att erfarenheterna är mer färska och också befästa under en längre tidsperiod. Inga signifikanta skillnader fanns gällande andelen kvinnor och män och inte

heller gällande ålder vid VCD-diagnos mellan de 52 deltagarna och de övriga 96 personerna. Detta innebär att deltagarna i dessa avseenden var representativa för patientgruppen (Asch et al., 1997).

De behandlande logopederna beskrev i journalanteckningarna att 81 % av deltagarna fått lindrigare VCD-symptom och/eller hade fått förmåga att hantera VCD-symptomen under tiden för den logopediska behandlingen. Dessa resultat indikerar att behandlingen var ett verksamt sätt att behandla VCD hos studiens deltagare. Att det inte var en lika stor andel av deltagarna själva (61,9 %) som på enkätfråga 3 uppgav att logopedbehandlingen avslutades för att de hade fått upphörda eller kraftigt minskade symptom, och/eller kunde hantera symptomen, kan ha berott på att deltagarnas svar på detta baseras på en enkätfråga som frågar om orsak till att behandlingen avslutades och inte efter deltagarens upplevda behandlingseffekt. Deltagare kan därför ha tolkat och besvarat enkätfråga 3 på ett sätt som inte representerade behandlingseffekten. Exempelvis kan de ha upplevt att symptomen hade blivit lindrigare under behandlingens gång, men att orsaken till att behandlingen avslutades var att de inte erbjöds mer behandling. Deltagarna kan också ha upplevt sig hjälpta, men inte på de sätt som föreslås i enkätfråga 3. Exempelvis genom att deltagaren fått större kunskap om VCD och vad det innebär. Att ett medelstarkt-starkt samband ändå förelåg mellan enkätfråga 1 och 3, indikerar dock att de personer som ansåg sig hjälpta av logopedbehandlingen också uppgav att den avslutades för att de fått upphörda eller kraftigt minskade symptom och/eller för att de kunde hantera VCD-symptomen. Att deltagare som inledde behandlingen år 2005 svarar på enkäten nio år efter påbörjad logopedbehandling kan medföra att de inte minns exakta förhållanden vid logopedbehandlingens avslut. Deltagarna kan också ha haft skilda åsikter jämfört med behandlande logopeder angående logopedbehandlingens effekt. På vilket sätt logopeden frågade patienten vid sista besöket kring hur denne tyckte sig ha upplevt eventuell behandlingseffekt, kan ha varit avgörande för hur patienten svarade på denna fråga vid logopedbesöket. Patienterna kan ha känt sig obekväma med att säga till logopeden att de ej upplevde sig hjälpta av behandlingen, men vågade sedan vara mer kritiska i den anonyma enkäten.

Då deltagarna besvarade enkäten minst ett år efter erhållen behandling är den föreliggande studien en av få som utvärderat långtidseffekt av logopedisk behandling med andningsträning för VCD-patienter (Doshi & Weinberger, 2006). Det finns svårigheter med långtidsuppföljningar eftersom faktorer kan ha ändrats i deltagarnas liv som kan påverka resultaten. En sådan var att en stor andel av deltagarna inte längre utövade fysisk träning i samma utsträckning som före den logopediska behandlingen. Detta gjorde att mindre än hälften av de inkomna svaren kunde inkluderas i analys 6. Gällande resultaten från de deltagare som uppgav upphörda eller lindrigare symptom minst ett år efter erhållen behandling, kan det inte med säkerhet tolkas som att effekten berodde på den logopediska behandlingen. Det skulle även kunna ha skett en spontan förbättring eller bero på tillväxt av larynx. Det finns en teori om att storleken på larynx kan spela in gällande VCD-symptom (Fahey et al., 2005; Maat, 2011) och att tillväxt av larynx skulle kunna minska VCD-symptom över tid.

För de deltagare som valt att minska på sin fysiska träning, där VCD-symptomen hade inflytande detta beslut, kan den logopediska behandlingseffekten eventuellt anses vara otillräcklig. Deltagarna kan dock ha upplevt en viss positiv behandlingseffekt, men ej tillräcklig för att kunna fortsätta med sin fysiska träning i den utsträckningen de önskade, i linje med spekulationer av Doshi och Weinberger (2006). Å andra sidan, kan man resonera kring att de som uppgav att de slutat med sin idrott av orsaker utöver

VCD kanske ändå skulle tvingats sluta med sin idrott på grund av sin VCD, om de hade velat fortsätta med den fysiska träningen eller fysträna i högre utsträckning.

Gällande framtida logopedisk behandling med andningsträning för VCD-patienter finns resultat från föreliggande studie som både bekräftar komponenter i det nuvarande behandlingsprogrammet som används vid Karolinska Universitetssjukhuset, och som också öppnar för diskussion om förslag på förändringar. Att 17,3 % av deltagarna upplevde sig ha röstproblem vid tidpunkten för enkätens ifyllnad, kan stärka teorin som Murry och Sapienza (2010) har kring att det finns en koppling mellan VCD och påverkad röstproduktion. Andelen är dock lägre än vad Vertigan et al. (2007) beskrev om att dysfoni förekommer hos en tredjedel av VCD-patienter. Behandlande logoped bör därmed vara medveten om att röstpåverkan kan förekomma tillsammans med VCD, och ta därför hänsyn till detta under anamnesupptagningen. Resultat från föreliggande studie visar vidare att VCD-patienter har större chans att uppnå lindrigare symptom och/eller en förmåga att hantera sina symptom, jämfört med att bli helt besvärsfria, efter behandling med avspännings- och andningsövningar. Att patienten informeras om dessa resultat kan ge underlag till att resonera kring förväntad behandlingseffekt. Vidare kan de kvalitativa resultaten från föreliggande studie tyda på att det kan vara av vikt att se till att patienten lyckas implementera andningsteknikerna i sin fysiska träning. De tre deltagarna som uppgav sig vara besvärsfria, minst ett år efter erhållen logopedbehandling, beskrevs kunna detta, medan det varierade hos de deltagare som hade kvar någon grad av VCD-symptom. I studien av Sullivan et al. (2001) framkom att patienterna förväntades träna själva på övningarna från den logopediska behandlingen mellan behandlingstillfällena, samt även att familjemedlemmar och tränare var involverade i denna hemmaträning. Önskvärt vore därför att logopeder rutinmässigt informerar samtliga VCD-patienter om hur mycket de förväntas träna på andning- och avspänningsövningarna på egen hand mellan besöken. Newsham, et al. (2002) föreslår 3-5 ggr per dag. Denna information skulle ge alla patienter samma möjlighet att själva påverka effekten av sin behandling. Under de logopediska behandlingsbesöken bör journalföras i vilken utsträckning, och i vilka situationer patienten tränar hemma på avspännings- och andningsteknikerna, samt hur involverade föräldrar och tränare är i träningen. Att en majoritet, 92,3 %, av deltagarna i den föreliggande studien uppgav att de lätt blir stressade och/eller ställer höga krav på sig själva, att 23,1 % haft psykologkontakt samt att flera deltagare även uppgav sig få utlösta VCD-symptom i stressiga situationer som inte är kopplade till fysisk träning, anser författarna är en indikation på att psykologiska faktorer kan kopplas till patientgruppen. Detta är i enlighet med vad som beskrivs av Kenn och Balkissoon (2011), Husein et al. (2008) samt Matrka (2014). Det styrker en fortsatt information och rådgivning kring stresshantering till VCD-patienter, vilket redan idag är en del i behandlingsprogrammet vid Karolinska Universitetssjukhuset (Björk et al., 2006). Eventuellt skulle behandlingsprogrammet även kunna kompletteras med någon form av inspiratorisk muskelträning, vilket i tidigare studier visat sig vara effektivt för patientgruppen (Mathers-Schmidt & Brilla, 2005; Sandnes et al., 2013).

Den logopediska behandlingen med fokus på avspännings- och andningsövningar benämns i litteratur bland annat som "laryngeal control therapy" (Husein et al., 2008) och "respiratory retraining therapy" (Murry et al., 2006). Det vore idealt att internationellt benämna behandlingen likadant, och författarna till den föreliggande studien ger stöd till namnet "respiratory retraining therapy" (Murry et al., 2006), då namnet speglar de övningar patienten får utföra under behandling. En svensk benämning att använda i klinisk

verksamhet skulle kunna vara ”andningsbehandling” eller ”andningsträning”, i linje med att den behandling patienter med röststörning erbjuds benämns ”röstbehandling”.

Studien har vissa brister. Att resultaten inte kan jämföras med resultat från en kontrollgrupp gör att bakomliggande orsaker till symptomlindring, så som exempelvis spontanförbättring, inte kan uteslutas. Enkäten hade varken testats för validitet eller reliabilitet och enkätfrågornas utformning utgick inte från något existerande frågeformulär. Önskvärt hade varit om författarna i förväg hade låtit patienter, som inte deltog i den föreliggande studien, besvara enkätfrågorna i en pilotstudie.

Vissa av enkätfrågorna var heller inte optimalt formulerade. Exempelvis var enkätfråga 3 formulerad på ett sätt som efterfrågade deltagarnas upplevelse kring *varför* behandlingen *avslutades*, inte deltagarnas upplevelser kring VCD-symptomens karaktär och förmågan att hantera symptomen vid behandlingens avslut, vilket var det egentliga syftet med frågan. Önskvärt hade varit att enkätfråga 3 delats upp i två frågor där den ena frågan utrett deltagarnas syn på orsak till behandlingens avslutande, och den andra frågan undersökt huruvida deltagarna tyckte sig ha upplevt någon effekt av behandlingen. Fler och mer nyanserade svarsalternativ till fråga 3 hade också möjligen fångat upp eventuella deltagare som ansett sig ha fått ”*något* lindrigare symptom” av behandlingen. I nuvarande svarsalternativ ingår bara huruvida deltagarna upplevt att behandlingen avslutades för att symptomen hade *upphört* eller *kraftigt minskat*. Ytterligare hade en kompletterande kvalitativ fråga i enkätfråga 1, kring *på vilket sätt* behandlingen hade hjälpt deltagarna, eventuellt kunnat spegla en mer nyanserad bild av hur deltagarna tycker sig blivit hjälpta av behandlingen. Det saknas även en enkätfråga som undersöker huruvida deltagarna anser att de vid tidpunkten för enkätens ifyllnad kunde hantera sina VCD-symptom. Detta innebär att undersökning av den långsiktigt positiva logopediska behandlingseffekten endast involverar de som fått symptomlindring. Enkätfråga 7 besvarar endast om yrkesgrupp utöver logoped behandlat deltagaren *efter* den logopediska behandlingen, och utesluter därför möjligheten till att ta reda på om deltagaren fått behandling av annan yrkesgrupp *före* eller *samtidigt* som logopedbehandlingen pågick. Frågan hade kunnat formuleras annorlunda, exempelvis: ”Har du behandlats av yrkeskategori utöver logoped, gällande din VCD?”. Ytterligare brist i studien är den inte definierar vad som i enkäten menas med att kunna ”hantera” symptomen. Alla behandlande logopeder definierade inte heller begreppet i journalanteckningarna vilket gjorde att det var otydligt vad deltagare och logopeder utvärderade. I de förklaringar som dock förekommer framgår det att ”hantera” kan innebära en förmåga att tillämpa avspännings-, och andningstekniker för att få VCD-symptom att bli lindrigare, och att få symptomen att avklinga snabbare då de uppkommer. Det kan också handla om att personen tillämpar förebyggande strategier, genom exempelvis tempoväxling, för att förhindra VCD-anfall, då hen får känningar av det.

Mer forskning behövs gällande behandling för patienter med VCD. Önskvärt vore en prospektiv randomiserad studie av logopedisk behandling för personer med träningsinducerad VCD och med en kontrollgrupp. Syftet med en sådan studie vore att undersöka huruvida personer som erhållit logopedisk behandling, innehållande avspännings-, och andningsövningar, anser att VCD-symptomen och förmågan att hantera symptom efter behandling skiljer sig signifikant från personer i en kontrollgrupp. För att i framtida studier kunna jämföra effekt av olika behandlingsalternativ för patientgruppen är det önskvärt att patienters symptom definieras och diagnostiseras på samma sätt i hela landet. Då det anses vara “the golden

standard” att vid diagnostisering av VCD videofilma larynx just under ett anfall (Kenn & Balkissoon, 2011; Nordang et al., 2009) vore det lämpligt att detta även gjordes vid Karolinska Universitetssjukhuset. Det vore även intressant att kunna koppla VCD-patienters upplevda behandlingseffekt, efter logopedisk behandling, till larynxbild. Då operation erbjuds till patienter med allvarlig grad av supraglottisk obstruktion vid vissa center i världen (Nordang et al., 2009) vore det också intressant att se huruvida patienter med supraglottisk obstruktion upplever en behandlingseffekt av logopedisk behandling med andningsträning. För att kunna se huruvida olika nivåer och grader av obstruktion får effekt av olika typer av behandlingsalternativ, krävs att filmning av larynx under VCD-anfall görs rutinmässigt.

Författarna till föreliggande studie lade även märke till att journalförd information om deltagarna varierade. Eventuellt skulle ett frågeformulär kunna upprättas, baserat på befintlig kunskap kring patientgruppen. Detta skulle förslagsvis kunna användas av läkare och logoped under anamnesupptagning, alternativt att patienten själv fyller i frågeformuläret. Ett sådant frågeformulär skulle kunna leda till att dokumentationen kring patienterna blir mer samordnad, och detta skulle i sin tur kunna utgöra ett enhetligt underlag för framtida forskning kring patientgruppen.

För att skapa underlag för framtida forskning gällande utvärdering av logopedisk behandling av VCD-patienter är det viktigt med en utvärderingsmetod som är utformad för den aktuella patientgruppen. Ett egenskattningsformulär används idag rutinmässigt vid Karolinska Universitetssjukhuset för att utvärdera logopedisk behandling för VCD-patienter. Patienten får benämna och skatta sina främsta symptom på en visuell analogskala för att man ska kunna utvärdera eventuell behandlingseffekt på de just de specifika besvär som patienten själv formulerar (E. Lundström, personlig kommunikation, 12 mars, 2014). Författarna till den föreliggande studien föreslår att skattningsformuläret utvecklas så att både *grad* och *frekvens* av symptom skattas. Det bör även framkomma huruvida patienten tycker sig kunna hantera symptom, och i så fall på vilket sätt. Slutligen bör det också tydliggöras i vilka situationer symptomen uppkommer. Utvärdering av behandlingen skulle även kunna kompletteras med att patienten återigen genomför en ansträngningsspirometri hos fysioterapeut, för att studera huruvida patientens kurva för maximalt inspiratoriskt luftflöde är ändrad jämfört med före den logopediska behandlingen.

Slutsats av studien är att logopedisk behandling med andningsträning förefaller vara ett verksamt behandlingsalternativ för patientgruppen. Mer forskning behövs och även nationella riktlinjer kring definition av diagnosen, bedömning samt utvärdering av olika behandlingsalternativ.

Referenser

- Altman, K.W., Mirza, N., Ruiz, C. & Sataloff, R.T. (2000). Paradoxical vocal fold motion: Presentation and treatment options. *Journal of Voice*, 14(1), 99-103.
- Andrianopoulos, M.V., Gallivan, G.J. & Gallivan, K.H. (2000). PVCM, PVCD, EPL, and irritable larynx syndrome: What are we talking about and how do we treat it? *Journal of Voice*, 14(4), 607-618.

- Archer, G.J., Hoyle, J.L., McCluskey, A. & Macdonald, J. (2000). Inspiratory vocal cord dysfunction, a new approach in treatment. *The European Respiratory Journal*, 15(3), 617-618.
- Asch, D.A., Jedrzewski, M.K., & Christakis, N.A. (1997). Response rates to mail surveys published in medical journals. *Journal of Clinical Epidemiology*, 50(10), 1129-1136.
- Bartlett, D., Jr. (1989). Respiratory functions of the larynx. *Physiological Reviews*, 69(1), 33-57.
- Baruch, Y. (1999). Response rate in academic studies: a comparative analysis. *Human relations*, 52(4), 421-438.
- Björck, G., Bergström, H., Nygren, U. & Hedlin, G. (2006). Vocal cord dysfunction-differentialdiagnos till astma. Symptombeskrivning och förslag till handläggning. *Läkartidningen*, 103(48), 3832-3836.
- Brugman, S. M., Newman, K. (1993) Vocal cord dysfunction. *Medical/Scientific Update*, 11(5), 1-5.
- Chiang, W.C., Goh, A., Ho, L., Tang, J.P.L. & Chay, O.M. (2008). Paradoxical vocal cord dysfunction: When a wheeze is not asthma. *Singapore Medical Journal*, 49(4), 110-112.
- Christopher, K.L., Wood II, R.P. & Eckert, R.C. (1983). Vocal-cord dysfunction presenting as asthma. *New England Journal of Medicine*, 308(26), 1566-1570.
- Cukier-Blaj S., Bewley A., Aviv J.E. & Murry, T. (2008) Paradoxical vocal fold motion: a sensory-motor laryngeal disorder. *The Laryngoscope*, 118(2), 367–370.
- Doshi, D.R., & Weinberger, M.M., (2006). Long-term outcome of vocal cord dysfunction. *Annals of Allergy, Asthma & Immunology*, 96(6), 794-799.
- Fahey, J.T., Bryant, N.J., Karas, D., Goldberg, B., Destefano, R. & Gracco, L.C. (2005). Exercise-induced stridor due to abnormal movement of arytenoid area: Videoendoscopic diagnoses and characterization of the “at risk” group. *Pediatric Pulmonology*, 39(1), 51-55.
- Gartnett, J.D. (2012). Subglottic stenosis in adults, *EMedicine*. Hämtad den 22 januari, 2014, från <http://emedicine.medscape.com/article/865437-overview>
- Hampson-Evans, D., Morgan, P. & Farrar, M. (2008). Pediatric laryngospasm. *Paediatric Anaesthesia*, 18(4), 303-307.
- Husein, O.F., Husein, T.N., Gardner, R., Chiang, T., Larson, D.G., Obert, K., Thompson, J., Trudeau, M.D., Dell, D.M. & Forrest, L.A. (2008). Formal psychological testing in patients with paradoxical vocal fold dysfunction. *Laryngoscope*, 118(4), 740–747.

- Kenn, K. & Balkissoon, R. (2011). Vocal cord dysfunction: what do we know? *European Respiratory Journal*, 37(1), 194-200.
- Lo, H.I., Ho, H.C. & Hwang, J.H. (2005). Paradoxical vocal cord motion - a case report. *Auris, Nasus, Larynx*, 32(4), 427-430.
- Maat, R.C. (2011). *Exercise-induced laryngeal obstruction. Diagnostic procedures and therapy*. Opublicerad doktorsavhandling, Bergens Universitet, Bergen, Norge.
- Maat, R.C., Hilland, M., Røksund, O.D., Halvorsen, T., Olofsson, J., Aarstad H.J. & Heimdal J-H. (2011). Exercise-induced laryngeal obstruction: natural history and effect of surgical treatment. *European Archives of Oto-Rhino-Laryngology*, 268(10), 1485-1492.
- Mathers-Schmidt, B. (2001). Paradoxical vocal fold motion: A tutorial on a complex disorder and the speech-language pathologist's role. *American Journal of Speech and Language Pathology*. 10, 111-125.
- Mathers-Schmidt, B. & Brilla, L. (2005). Inspiratory muscle training in exercise-induced paradoxical vocal fold motion. *Journal of Voice*, 19(4), 634-644.
- Matrka, L. (2014). Paradoxical vocal fold movement disorder. *Otolaryngologic Clinics of North America*, 47, 135-146.
- Mitchell, R.A., Loeschke, H.H., Massion, W.H. & Severinghaus, J.W. (1963). Respiratory responses mediated through superficial chemosensitive areas on the medulla. *Journal of Applied Physiology*, 18, 523-533.
- Moberg, M., Thulin, I. (2011). *Logopediskt och foniatriskt omhändertagande vid ansträngningsutlöst andningsfunktionsstörning - retrospektiv studie vid Röst- och Talvårdsavdelningen, Skånes Universitetssjukhus i Lund*. Opublicerad logoped-examensuppsats, Lunds universitet: Avdelningen för logopedi, foniatri och audiologi, Institutionen för kliniska vetenskaper, Lund.
- Murry, T., Tabaei, A., Owczarzak, V., Aviv, J.E. (2006). Respiratory retraining therapy and management of laryngopharyngeal reflux in the treatment of patients with cough and paradoxical vocal fold movement disorder. *The Annals of Otolaryngology, Rhinology, and Laryngology*, 115(10), 754-758.
- Murry, T. & Sapienza, C. (2010). The role of voice therapy in the management of paradoxical vocal fold motion, chronic cough, and laryngospasm. *Otolaryngologic Clinics of North America* 43, 73-83.
- Newman, K.B., Mason, U.G. & Schmalzing, K.B. (1995). Clinical features of vocal cord dysfunction. *American Journal of Respiratory and Critical Care Medicine*, 152(4), 1382-1386.

- Newsham, K.R., Klaben, B.K., Miller, V.J. and Saunders, J.E. (2002) Paradoxical vocal cord dysfunction: management in athletes. *Journal of Athletic Training*, 37(3), 325-328.
- Nordang, L., Morén, S., Johansson, H.M., Wenngren, E. & Nordvall, L. (2009). Ansträngningsastma kan vara laryngeal obstruktion: Inte ovanligt bland unga idrottare - viktigt att undvika felbehandling. *Läkartidningen*, 106(38), 2351-2353.
- Nygren, U. (2013). Vocal cord dysfunction (VCD), Föreläsning vid logopedprogrammet, Enheten för logopedi, Karolinska Institutet, 19 september, 2013.
- Punj, J., Darlong, V. & Pandey, R. (2008). Paradoxical vocal cord motion - another cause to differentiate from laryngospasm. *Paediatric Anaesthesia*, 18(10), 979-980.
- Sandnes, A., Andersen, T., Hilland, M., Ellingsen, T.A., Halvorsen, T., Heimdal, J-H. & Røksund, O.D. (2013). Laryngeal movements during inspiratory muscle training in healthy subjects. *Journal of Voice*, 27(4), 448-453.
- Socialstyrelsen. (2011). *Diagnoskoder (ICD-10)*. Hämtad den 22 januari, 2014, från <http://www.socialstyrelsen.se/klassificeringochkoder/sokdiagnoskod-10-se/j00-j99/j387e>
- Spatz, C. (2011). *Basic statistics: Tales of distributions* (10:e uppl.). Belmont, CA: Wadsworth.
- Sullivan, M.D., Heywood, B.M. & Beukelman, D.R. (2001). A treatment for vocal cord dysfunction in female athletes: an outcome study. *The Laryngoscope*, 111(10), 1751-1755.
- Treole, K., Trudeau, M.D. & Forrest, L.A. (1999). Endoscopic and stroboscopic description of adults with paradoxical vocal fold dysfunction. *Journal of Voice*, 13(1), 143-152.
- Verdolini, K., Rosen, C.A., & Branski, R.C. (2005). *Classification manual for voice disorders - I*. New Jersey: Lawrence Erlbaum Associates.
- Vertigan, A.E., Theodoros, D.G., Winworth, A.L. & Gibson, P.G. (2007). Perceptual voice characteristics in chronic cough and paradoxical vocal fold movement. *Folia Phoniatrica et Logopaedica*, 59(5), 256-267.
- Warnes, E. & Allen, K.D. (2005). Biofeedback treatment of paradoxical vocal fold motion and respiratory distress in an adolescent girl. *Journal of Applied Behavior Analysis*, 38(4), 529-532.
- Wood II, R.P. & Milgrom, H. (1996). Vocal cord dysfunction. *Journal of allergy and clinical immunology*, 98(3), 481-485.