

ARTIGO ORIGINAL

Aprendizagem motora por meio de tarefa virtual não imersiva em pessoas com distrofia muscular de cinturas.

Motor learning through a non-immersive virtual task in people with limb-girdle muscular dystrophies

Marcelo Prumes¹, Talita Dias da Silva^{2,3,4}, Camila Aparecida de Oliveira Alberissi⁵, Camila Miliani Capelini⁴, Lilian Del Ciello de Menezes², João Batista Francalino da Rocha¹, Francis Meire Favero⁶, Carlos Bandeira de Mello Monteiro^{1,4,5}



¹Laboratório de Delineamento de Estudos e Escrita Científica. Centro Universitário Saúde ABC (FMABC), Santo André, SP, Brazil.

²Departamento de Cardiologia, Escola Paulista de Medicina, Universidade Federal de São Paulo (UNIFESP), São Paulo, SP, Brazil.

³Faculdade de Medicina, Universidade Cidade de São Paulo (UNICID), São Paulo, SP, Brazil.

⁴Programa de Pós-Graduação em Ciências da Reabilitação, Faculdade de Medicina da Universidade de São Paulo, São Paulo, SP, Brazil.

⁵Escola de Artes, Ciências e Humanidades (EACH), Universidade de São Paulo (USP), São Paulo, SP, Brazil.

⁶Setor de Investigação nas Doenças Neuromusculares, Departamento de Neurologia e Neurocirurgia, Universidade Federal de São Paulo (UNIFESP), São Paulo, SP, Brazil.

Autor correspondente
carlosmonteiro@usp.br

Historia do artigo
Recebido: Outubro 2019
Revisado: Maio 2020
Aceito: Setembro 2020

Resumo

Introdução: As distrofias musculares de cinturas (DMC) são distúrbios neuromusculares e genéticos que progridem com fraqueza e dano dos músculos proximais, desenvolvendo-se com perda de funcionalidade. Sugere-se ambientes de realidade virtual como uma alternativa eficaz para o desempenho das atividades da vida diária. No entanto, não há evidências na literatura sobre o uso da realidade virtual nessa população.

Objetivo: Avaliar o desempenho motor através de um protocolo de aprendizagem motora em uma tarefa de timing coincidente.

Método: 10 participantes com DMC e 10 indivíduos saudáveis foram selecionados e incluídos no estudo para realizar uma tarefa de realidade virtual não imersiva dividida em três fases: aquisição (20 tentativas), retenção (5 tentativas) e transferência (5 tentativas, com aumento de velocidade).

Resultados: Observou-se que a acurácia do movimento melhorou do início ao final da aquisição ($p = 0,01$); no entanto, existe uma diferença marginal entre os grupos no bloco A1 ($p = 0,089$). Em relação à variabilidade de toques, observada pelo erro variável, ambos os grupos melhoraram o desempenho em todas as fases.

Conclusão: Mesmo com desempenho inferior ao grupo controle no início da prática, os indivíduos com DMC mostraram potencial para otimizar a função motora durante a prática de uma atividade de realidade virtual não imersiva e foram capazes de corresponder seu desempenho com o grupo controle após poucas tentativas.

Palavras-chave: distrofias musculares, realidade virtual, aprendizagem motora, distrofias musculares de cinturas.

Suggested citation: Prumes M, Silva TD, Alberissi CAO, Capelini CM, Menezes LDC, Rocha JBF, Favero FM, Monteiro CBM. Motor learning through a non-immersive virtual task in people with limb-girdle muscular dystrophies. *J Hum Growth Dev.* 2020; 30(3):461-471. DOI: <http://doi.org/10.7322/jhgd.v30.11115>

Síntese dos autores

Por que este estudo foi feito?

Distrofia Muscular de Cinturas (DMC) é um tipo peculiar de distrofia muscular caracterizada por fraqueza e atrofia dos músculos proximais dos membros superiores e inferiores, com perda progressiva de funcionalidade. No entanto, ainda não há cura. Sabe-se que a funcionalidade na participação social dessa doença depende dos programas de reabilitação. Para tanto, programas que utilizam realidade virtual na reabilitação podem ser eficazes para a realização de atividades de vida diária nessa população.

O que os pesquisadores fizeram e encontraram?

Um protocolo de aprendizagem motora realizado por meio de uma tarefa de realidade virtual não imersiva comparou participantes com DMC e indivíduos com desenvolvimento típico. Assim, observou-se que apesar das diferenças entre os grupos, ambos melhoraram o desempenho em todas as fases do protocolo.

O que essas descobertas significam?

Pessoas com DMC apresentam desempenho inferior em tarefa de realidade virtual devido a dificuldades motoras. Porém, podem melhorar a função motora por meio da prática, auxiliando na reabilitação desses indivíduos.

INTRODUÇÃO

As distrofias musculares (DMs) são um grupo heterogêneo de doenças hereditárias que compartilham características clínicas semelhantes e alterações distróficas na biópsia muscular¹ associadas a fraqueza e perda musculoesquelética progressiva². As DMs podem ser transmitidas como traços autossômicos dominantes, autossômicos recessivos ou ligados ao cromossomo X; casos esporádicos também podem surgir como resultado de nova mutação³ e são caracterizados clinicamente por intensa variabilidade na gravidade e fenótipo, e por alterações anatômicas do padrão distrófico não específico na fibra muscular⁴. A fraqueza e atrofia muscular ocorrem devido à degeneração do tecido muscular durante este processo⁵⁻⁸, e ocorre a destruição e recuperação das fibras musculares, que são substituídas por tecido fibroso e adiposo⁵⁻⁹.

Aproximadamente 40 tipos de DMs, que diferem uns dos outros pelo mecanismo genético de herança, idade de início dos primeiros sintomas, envolvimento dos grupos musculares afetados e velocidade de progressão da doença, são identificados¹⁰⁻¹². Um tipo peculiar de distrofia muscular é a distrofia muscular de cinturas (DMC), que são um grupo diverso de doenças neuromusculares genéticas que geralmente se manifestam nos músculos proximais da cintura pélvica e escapular e têm uma idade típica de início entre 10 e 30 anos de idade¹³⁻¹⁵.

A DMC é caracterizada por fraqueza e atrofia dos músculos proximais dos membros superiores e inferiores, com perda progressiva da funcionalidade. A fraqueza distal e axial é reconhecida em algumas formas, mas os músculos faciais e bulbar geralmente são poupados¹⁶. A evolução da fraqueza muscular geralmente é simétrica, mas varia na gravidade da atrofia das fibras musculares e na velocidade de progressão entre homens e mulheres e entre indivíduos^{17,18}.

Atualmente, não há cura para DMs. No entanto, o tratamento e continuidade funcional podem consistir em medicamentos, cirurgia e/ou serviços de reabilitação, incluindo treinamento de força, treinamento da capacidade aeróbia ou o uso de adaptações, como suporte para os braços, para permitir a realização das atividades diárias^{19,20}.

Alguns estudos têm sido realizados com DMC direcionados principalmente à cardiologia²¹⁻²³, genética²⁴⁻²⁶, biologia molecular^{27,28} e diagnóstico diferencial²⁹. No entanto, com os avanços recentes no desenvolvimento

de tecnologia assistida por computador, os programas facilitam cada vez mais o uso de ambientes de realidade virtual na reabilitação, e os benefícios da nova tecnologia podem fornecer algumas melhorias para indivíduos com DMC.

A realidade virtual permite que um indivíduo com DMC seja exposto a uma interface virtual e facilita a capacidade de interagir com elementos e alvos. Embora alguns estudos com o uso da realidade virtual em indivíduos com diferentes distrofias tenham sido realizados e apresentem resultados positivos, como Freitas *et al.*³⁰ que analisou diferentes interações de dispositivos em uma tarefa de realidade virtual em indivíduos com Distrofia Muscular de Duchenne (DMD), Heutinck³¹, o qual usou jogos de computador de realidade virtual com suporte dinâmico de braço em meninos com DMD, e Masetti³² que comparou tarefas virtuais e reais em DMD. Não encontramos pesquisas utilizando realidade virtual em indivíduos com DMC.

Além disso, com o desenvolvimento da tecnologia assistida por computador, os programas muitas vezes incluem ambientes de realidade virtual como possibilidades a serem usados como tarefas de reabilitação, proporcionando movimento, contração muscular repetida e possível aprendizado motor³³. Diferentes estudos têm utilizado o conhecimento da realidade virtual e da aprendizagem motora para verificar a melhora do desempenho nas distrofias musculares^{30,32-36} e outras doenças motoras, como paralisia cerebral³⁷⁻⁴¹, síndrome de Down^{42,43} e transtorno do espectro autista⁴⁴⁻⁴⁶.

A aprendizagem motora é um fenômeno que se refere às mudanças internas relativamente permanentes envolvidas na capacidade de realizar habilidades motoras⁴⁷. Essas mudanças ocorrem para garantir o alcance do objetivo e advêm da experiência e prática que resultam na aquisição e transferência de habilidades motoras^{48,49}. O fenômeno da aprendizagem motora, embora não seja diretamente observável, permite discernir claramente as mudanças na interação com os objetos e com outros seres humanos. Assim, a aprendizagem motora pode ser inferida por meio do desempenho, enquanto sua melhora pode ser observada pelo aumento da consistência, da fluência no movimento, da redução do erro de execução e da redução do tempo total de movimento para realizar a tarefa⁵⁰.

Assim, para verificar se a aprendizagem motora tem

sido sólida, ao invés de comparar o desempenho na fase inicial em relação à fase final de aquisição, é necessário recorrer ao desempenho em testes de aprendizagem, ou seja, possibilitar um teste de transferência que consiste da habilidade de adaptar um comportamento motor praticado em um contexto diferente por meio de uma pequena alteração na tarefa motora⁵¹⁻⁵³.

Devido à escassez de estudos utilizando realidade virtual em DMC e de acordo com as deliberações acima, organizamos um protocolo de aprendizagem motora utilizando uma tarefa de realidade virtual denominada timing coincidente, conforme utilizado por Monteiro *et al.*³⁷, Monteiro *et al.*⁴⁷, Martins *et al.*⁴¹ e Moraes *et al.*⁴⁶. Os resultados do presente estudo fornecerão evidências para determinar se há melhora no desempenho durante a prática de aquisição com retenção e transferência da tarefa de realidade virtual em indivíduos com DMC. Portanto, nosso objetivo é avaliar o desempenho motor de indivíduos com DMC por meio de um protocolo de aprendizagem motora em uma tarefa virtual de timing coincidente.

MÉTODOS

Participantes

Participaram de um estudo transversal 20 indivíduos com idade média de $27,9 \pm 8,16$ divididos em

dois grupos⁵⁴: um grupo experimental (GE), formado por 10 indivíduos com diagnóstico genético de DMC, e um grupo controle (GC), composto por 10 indivíduos com desenvolvimento típico (DT), sem alterações de postura e movimento, pareado por idade e sexo com o GE (Figura 1).

Os participantes assinaram o termo de consentimento livre e esclarecido antes do início dos testes. Para este protocolo, foram considerados elegíveis todos os pacientes em acompanhamento clínico na Associação Brasileira de Distrofia Muscular que tivessem autorização de seus pais ou responsáveis para participar do estudo, bem como diagnóstico de distrofia muscular do tipo cinturas confirmado por método molecular e/ou expressão de proteína musculoesquelética.

Os critérios de exclusão foram: indivíduos com comprometimento cognitivo que impeça a compreensão da tarefa, malformações no sistema nervoso central e/ou síndrome neurológica. Este estudo foi aprovado pelo comitê de ética em pesquisa da Faculdade de Medicina do ABC (nº CAEE: 39396814.9.1001.0082 - aprovado em 20/01/2015 pelo nº 980.629). Também foi aprovado pelo Comitê de Ética em Pesquisa da Universidade de São Paulo (USP) sob nº. CAEE: 02949412.2.0000.5390.



Figura 1: Desenho experimental: seleção de sujeitos e etapas da tarefa

Instrumento: TIMING COINCIDENTE

Uma tarefa de timing coincidente foi usada para entender o sistema visomotor humano, incluindo como o controle motor processa as informações envolvidas na interceptação de um objeto em movimento. Neste estudo, o software de timing coincidente utilizou imagens tridimensionais e possibilitou que a tarefa fosse realizada

pressionando a barra de espaço de um teclado. A tarefa de timing coincidente pode fornecer resultados que mostram a possibilidade de aprendizagem motora a partir do desempenho obtido pela diminuição dos erros ou da variabilidade dos erros⁴¹.

Para o software de timing coincidente, 10 esferas que acendiam uma luz vermelha eram exibidas na tela do

computador em sequência até que a última esfera fosse alcançada, que era considerada o alvo. Os participantes receberam feedback imediato sobre a acerto ou erro na execução da tarefa, seja por meio de diferentes sons (interação auditiva - sons diferenciados para acerto ou erro) ou por meio de imagens que mudavam de cor (interação visual - verde para acerto e vermelho para erro). Os indivíduos foram instruídos a colocar a mão próxima a barra de espaço do teclado do computador e foram informados que quando a primeira esfera/superior fosse ativada, eles poderiam mover a mão quando achassem apropriado tocar a barra de espaço exatamente no momento em que a última esfera (esfera alvo) fosse ativada (acesa).⁴¹ (Figura 2).

Procedimento

Todos os participantes foram posicionados confortavelmente em uma cadeira adequada para permitir a execução da tarefa. Cada participante foi devidamente orientado sobre o que deveria ser feito em cada etapa. Vinte tentativas da tarefa foram realizadas com o membro superior dominante em velocidade moderada, ou seja, 500 m/s entre as luzes de cada círculo para a fase de aquisição. Após a aquisição, os participantes descansaram por 5 minutos, onde não tiveram contato com a tarefa, e então fizeram cinco tentativas na fase de retenção. Para a fase de transferência, foram feitas mais cinco tentativas com aumento de velocidade (200 m/s) (Figura 1).



Figura 2: Ilustração da tarefa de timing coincidente realizada em um computador conforme proposto por Silva et al⁵⁵.

Notas: (A) Demonstração de erro realizada pelo participante (luz vermelha - sem sucesso nessa tentativa); (B) demonstração de acerto realizado pelo participante (luz verde - sucesso nessa tentativa); (C) um exemplo de um participante executando a tarefa usando a barra de espaço do teclado.

Análise estatística

Como medidas de desempenho (variáveis dependentes), usamos erros absoluto (EA), variável (EV) e constante (EC), que representam precisão, variabilidade e tendência direcional de desempenho, respectivamente. Os dados foram analisados em blocos de cinco tentativas cada, com quatro blocos de aquisição (A1 a A4), um bloco de retenção (R) e um bloco de transferência (T). As variáveis dependentes foram analisadas utilizando MANOVA com fator 2 (grupo: distrofia muscular de cintura - “DMC”, desenvolvimento típico - “Controle”) por 4 (blocos: primeiro ao quarto blocos de aquisição - A1 versus A2, A1 versus A3, e A1 versus A4). Para as comparações das fases de retenção e transferência, usamos o fator 2 (A4 versus R e A4 versus T, respectivamente). Para os fatores

blocos, usamos medidas repetidas. O eta-quadrado parcial (η^2) foi utilizado para medir o tamanho do efeito e foi interpretado como pequeno (tamanho do efeito > 0,01), médio (tamanho do efeito > 0,06) ou grande (tamanho do efeito > 0,14)⁵⁶. Comparações post-hoc foram realizadas usando o teste de diferença mínima significativa de Tukey (DMS) ($p < 0,05$).

RESULTADOS

A MANOVA encontrou um efeito principal para os blocos (λ de Wilks = 0,717, $F_{9,126} = 2,06$, $p = 0,038$, $\eta^2 = 0,11$). Nenhum outro efeito ou interação foi encontrado.

Para análise, foram consideradas as medidas dos erros constantes (EC), absolutos (EA) e variáveis (EV)

em milissegundos. O erro constante refere-se à falta de antecipação e atraso de movimento; ou seja, por meio dessa variável, avalia-se a tendência direcional do movimento. O erro absoluto representa a diferença absoluta entre o momento em que a bola chega ao alvo e o tempo de resposta; portanto, demonstra acurácia de movimento e se o indivíduo é capaz de acertar o alvo. O erro variável é um desvio padrão do EC, indicando variabilidade nos toques/respostas do participante; em outras palavras, identifica se houve precisão no movimento⁵⁷. As fases da aprendizagem motora serão descritas por meio dos erros nas seções seguintes.

Erro absoluto Aquisição

Houve um efeito significativo para blocos ($F_{3,54} = 5,11$; $p = 0,009$; $\eta^2 = 0,22$). Os testes post-hoc não mostraram melhora significativa de A1 para A2 ($p = 0,825$), mas de A1 para A3 e de A1 para A4 a melhora foi significativa ($p = 0,009$ e $0,001$, respectivamente). Não houve efeito principal para os grupos; entretanto, o teste post-hoc mostrou que houve tendência de diferença significativa entre os grupos no primeiro bloco de aquisição ($p = 0,089$) (Figura 3).

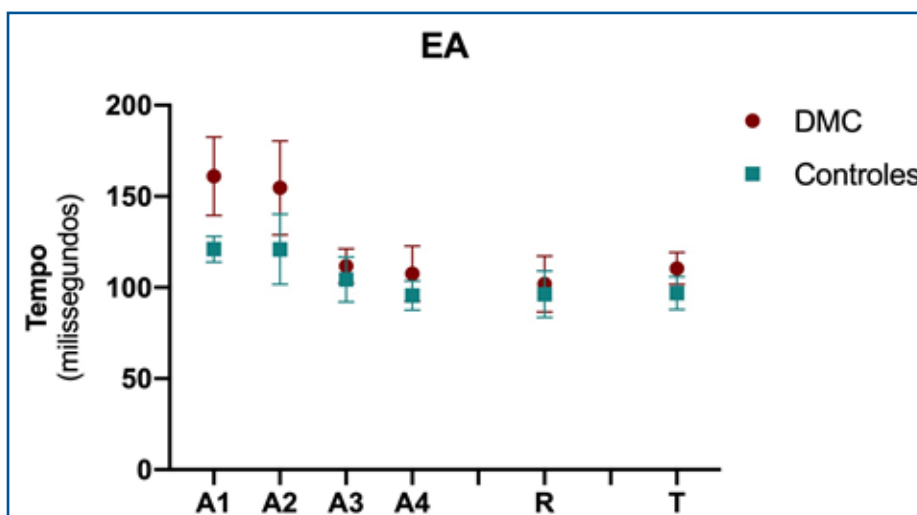


Figura 3: Média e erro padrão dos blocos de tentativas em todas as fases do protocolo no erro absoluto.

A1-A4: blocos de aquisição; R: bloco de retenção; T: bloco de transferência; DMC: distrofia muscular de cinturas.

Retenção - Não houve efeitos ou interações significativas para blocos ou grupos.

Transferência - Da mesma forma que a retenção, não houve efeitos ou interações significativas para blocos ou grupos.

Erro variável Aquisição

Houve efeito significativo para blocos ($F_{3,54} = 3,17$; $p = 0,050$; $\eta^2 = 0,15$), em que ambos os grupos diminuíram o EV durante a prática. Assim como no erro absoluto, não houve melhora significativa de A1 para A2 ($p = 0,479$), mas entre A1 e A3 e entre A1 e A4 a melhora foi significativa ($p = 0,038$ e $0,016$, respectivamente)

(Figura 4). Nenhum outro efeito foi encontrado para os grupos.

Retenção - Não houve efeitos ou interações significativas para blocos ou grupos.

Transferência - Da mesma forma que a retenção, não houve efeitos ou interações significativas para blocos ou grupos.

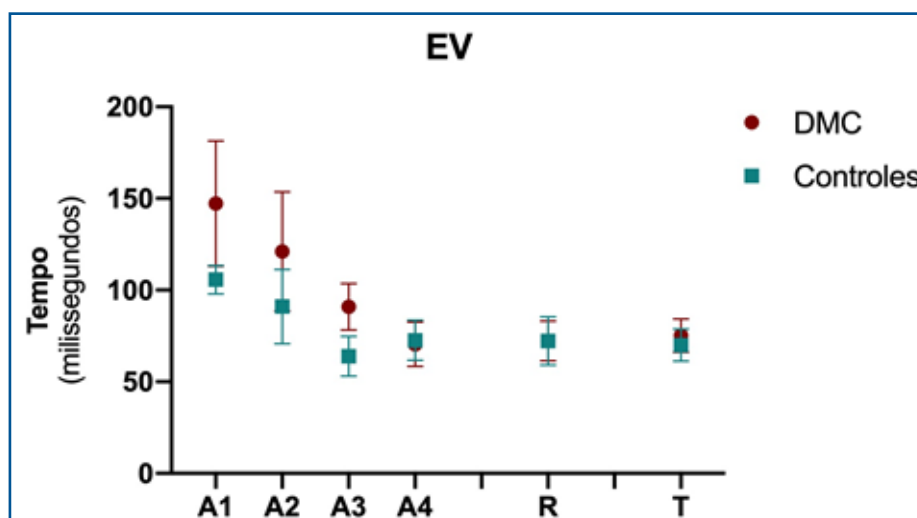


Figura 4: Média e erro padrão dos blocos de tentativas em todas as fases do protocolo no erro variável

A1-A4: blocos de aquisição; R: bloco de retenção; T: bloco de transferência; DMC: distrofia muscular de cinturas.

Erro constante

A tendência direcional é observada na Figura 5. O GE apresentou maior tendência a adiantar o toque e o GC a atrasar na maioria dos blocos avaliados. Na fase de

retenção, a tendência direcional foi de avanço e, no teste de transferência, foi atrasada em ambos os grupos.

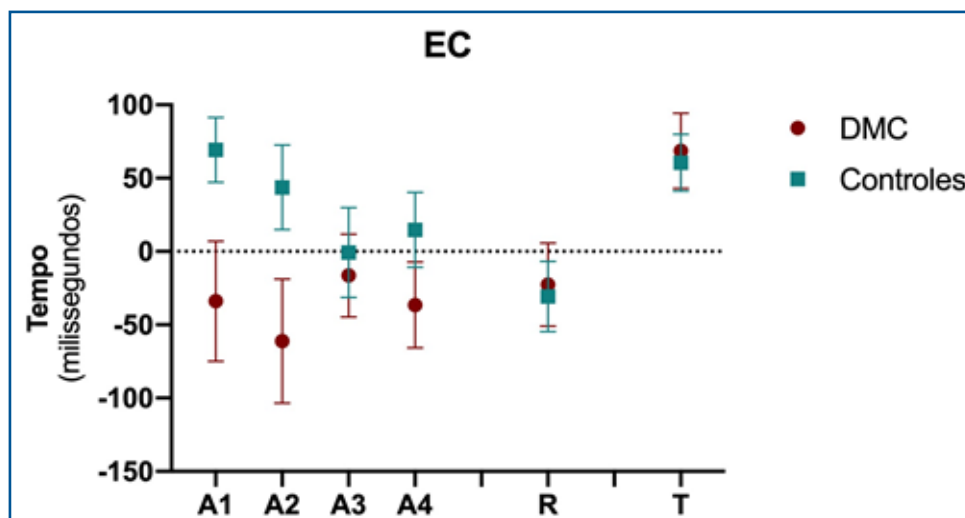


Figura 5: Média e erro padrão dos blocos de tentativas em todas as fases do protocolo no erro constante.

A1-A4: blocos de aquisição; R: bloco de retenção; T: bloco de transferência; DMC: distrofia muscular de cinturas.

DISCUSSÃO

Devido às dificuldades motoras apresentadas por indivíduos com DMC, este estudo utilizou o conhecimento da aprendizagem motora para verificar a melhora do desempenho por meio da utilização de uma tarefa de timing coincidente em um ambiente virtual não imersivo.

Nossos resultados, como hipotetizado, mostraram melhora no desempenho na fase de aquisição, considerando o erro absoluto e variável (Figuras 3 e 4) para ambos os grupos (GE e GC), o que pode sugerir boa adaptação à tarefa. Ambos os grupos apresentaram estabilização de desempenho, uma vez que a melhora no desempenho observado durante a aquisição da tarefa foi mantida durante a retenção (sem diferença estatística em relação ao último bloco da fase de aquisição e retenção) e no teste de transferência (sem diferença estatística em relação ao teste de retenção e transferência).

Apesar dessa melhora, os participantes do GC tiveram melhor desempenho do que os indivíduos do GE, mas apenas no primeiro bloco de aquisição. Não foi encontrada diferença estatisticamente significativa entre os grupos, considerando os erros absolutos e variáveis durante os blocos seguintes. Esses dados contribuem para justificar que os pacientes com DMC, apesar das dificuldades proximais em tarefas que requerem habilidade manual, foram capazes de manter função adequada para a tarefa proposta neste estudo.

De acordo com Mahjneh *et al.*⁵⁸, indivíduos com DMC apresentam leve fraqueza nos membros superiores, e seus músculos proximais são mais fracos que os distais, o que pode permitir melhor desempenho distal¹⁶. Podemos especular que uma tarefa de movimento simples e a necessidade de usar mais movimentos de mãos e dedos (movimento distal) durante nossa tarefa foram responsáveis pela melhoria do desempenho no grupo com DMC e correspondem com os valores do GC durante a maioria dos blocos do protocolo.

Esses resultados são confirmados pelos estudos de Faulkner *et al.*⁵⁹ e Mahmood *et al.*⁶⁰, que mostraram que as contrações musculares na DMC podem determinar leve dificuldade e nenhum dano significativo às fibras musculares durante as atividades diárias comuns, e podem trazer benefícios para melhorar o desempenho em uma tarefa simples. Entretanto, a tolerância ao exercício é afetada em pacientes com DMC, como consequência direta da perda de fibras musculares, mas também secundária ao estilo de vida sedentário que ocorre devido ao comprometimento motor⁶¹.

Por outro lado, McDonald *et al.*⁶² e Stübgen *et al.*⁶³ encontraram um declínio progressivo na força muscular e capacidade em indivíduos com DMC, mas isso ocorreu lentamente a cada década de duração da doença. Assim, apesar da fraqueza muscular, danos às fibras musculares e dificuldade de movimento, característico da DMC, os indivíduos deste estudo ainda apresentam uma capacidade de melhorar seu desempenho, até mesmo igualar com os valores do GE. Corroborando com esses achados, Hunter *et al.*⁶⁴ citou que as respostas do paciente destacam sintomas que podem ser responsivos à intervenção e, portanto, a fraqueza muscular na DMC pode ser devido ao desuso, além da degeneração da própria doença; no entanto, as dificuldades para realizar atividades específicas podem ser corrigidas por meio de prática e intervenção adequadas usando dispositivos assistivos⁶⁵.

Considerando a dificuldade dos indivíduos com DMC nos cuidados com a qualidade de vida, aspectos físicos e psicológicos⁶⁶, baixa autoestima e sentimentos de tristeza⁶⁷, novas tecnologias como a realidade virtual podem proporcionar melhorias mais eficazes em indivíduos com deficiência. Essas tecnologias também podem ser utilizadas como recursos para ajudar no ganho da função motora⁶⁸⁻⁷⁰, estimular e permitir a interação e o envolvimento com a atividade de forma independente⁷¹. A

capacidade da realidade virtual de criar oportunidades para práticas motoras/sensoriais ativas e repetitivas aumenta seu potencial para neuroplasticidade e aprendizagem em indivíduos com distúrbios neurológicos⁷² e pode representar o futuro para a reabilitação da DMC. Corroborando com a hipótese de Jensen *et al.*⁷³, nosso estudo concorda com a ideia de que pessoas com DMC têm o potencial de otimizar a função motora por meio da aprendizagem motora quando o treinamento é realizado em um ambiente seguro, como é feito durante uma tarefa de realidade virtual.

Apesar da melhora no desempenho encontrada neste estudo, podemos apontar algumas limitações: (1) O número restrito de participantes pode diminuir a sensibilidade dos testes. Estudos futuros devem ser realizados com mais participantes. (2) Não analisamos a função motora para o GE, e os resultados mostraram bom desempenho, provavelmente porque os participantes de nosso estudo apresentaram uma boa função. Avaliações clínicas para estudos futuros são necessárias para melhor caracterizar a amostra e compreender os resultados. (3) Utilizamos um programa de computador que limitou os parâmetros de resultado à realidade virtual não imersiva; estudos futuros devem usar tarefas mais imersivas e sem contato, uma vez que um ambiente diferente pode fornecer

informações valiosas. (4) Utilizamos um protocolo com apenas um dia de prática; estudos futuros devem ser realizados com um protocolo de longo prazo para realizar um período de prática mais longo. Finalmente, (5) esta é uma tarefa de computador simples, e os resultados não puderam ser extrapolados para outras tarefas; estudos futuros usando tarefas reais e virtuais podem fornecer uma visão melhor de nossas descobertas.

■ CONCLUSÃO

O grupo DMC apresentou desempenho inferior ao GC no início da tarefa. Entretanto, os resultados demonstram que todos os participantes, de ambos os grupos, melhoraram seu desempenho durante a prática. Portanto, indivíduos com DMC mostraram potencial para aperfeiçoar a função motora durante a prática de uma atividade de realidade virtual não imersiva e ainda foram capazes de igualar seu desempenho ao do GC após algumas tentativas.

■ Reconhecimentos

A viabilidade financeira do artigo se deve ao Acre - Projeto Saúde na Amazônia Ocidental (convênio multi-institucional nº 007/2015 SESACREUFAC-FMABC).

■ REFERÊNCIAS

1. Mercuri E, Muntoni F. Muscular dystrophies. *Lancet*. 2013;381(9869):845-60. DOI: [http://doi.org/10.1016/S0140-6736\(12\)61897-2](http://doi.org/10.1016/S0140-6736(12)61897-2)
2. Leung DG, Wagner KR. Therapeutic advances in muscular dystrophy. *Ann Neurol*. 2013;74(3):404-11. DOI: <http://doi.org/10.1002/ana.23989>
3. Mah JK, Korngut L, Fiest KM, Dykeman J, Day LJ, Pringsheim T, et al. A Systematic Review and Meta-analysis on the Epidemiology of the Muscular Dystrophies. *Can J Neurol Sci*. 2016;43(1):163-77. DOI: <http://doi.org/10.1017/cjn.2015.311>
4. Reed UC. Doenças neuromusculares. *J. Pediatr*. 2002;78(1):S89-103. DOI: <http://doi.org/10.2223/jped.853>
5. Lue YJ, Lin RF, Chen SS, Lu YM. Measurement of the functional status of patients with different types of muscular dystrophy. *Kaohsiung J Med Sci*. 2009;25(6):325-33. DOI: [http://doi.org/10.1016/S1607-551X\(09\)70523-6](http://doi.org/10.1016/S1607-551X(09)70523-6)
6. Jansen M, Jong M, Coes HM, Eggermont F, van Alfen N, Groot IJM. The assisted 6-minute cycling test to assess endurance in children with a neuromuscular disorder. *Muscle Nerve*. 2012;46(4):520-30. DOI: <http://doi.org/10.1002/mus.23369>
7. Jung IY, Chae JH, Park SK, Kim JH, Kim JY, Kim SJ, et al. The correlation analysis of functional factors and age with duchenne muscular dystrophy. *Ann Rehabil Med*. 2012;36(1):22-32. DOI: <http://doi.org/10.5535/arm.2012.36.1.22>
8. Verhaart IE, Aartsma-Rus A. Gene therapy for Duchenne muscular dystrophy. *Curr Opin Neurol*. 2012;25(5):588-96. DOI: <http://doi.org/10.1097/WCO.0b013e328357b0be>
9. Bayram E, Topcu Y, Karakaya P, Bayram MT, Sahin E, Gunduz N, et al. Correlation between motor performance scales, body composition, and anthropometry in patients with Duchenne muscular dystrophy. *Acta Neurol Belg*. 2013;113(2):133-7. DOI: <http://doi.org/10.1007/s13760-012-0125-y>
10. Dubowitz V. *Muscle Disorders in Childhood*. 2 ed. London: Saunders Company, 1995.
11. Durbeej M, Campbell KP. Muscular dystrophies involving the dystrophin-glycoprotein complex: an overview of current mouse models. *Curr Opin Genet Dev*. 2002;12(3):349-61. DOI: [http://doi.org/10.1016/s0959-437x\(02\)00309-x](http://doi.org/10.1016/s0959-437x(02)00309-x)
12. Oliveira AS, Gabbai AA, Moura LS. Miopatias: atualização no diagnóstico e tratamento. *Rev Diagn Tratamento*. 2002;7(1):21-5.
13. Emery AE. The muscular dystrophies. *Lancet*. 2002;359(9307):687-95.

DOI: [http://doi.org/10.1016/S0140-6736\(02\)07815-7](http://doi.org/10.1016/S0140-6736(02)07815-7)

14. Pedrolo DS, Lima PM. Análise comparativa da qualidade de vida em indivíduos portadores da distrofia muscular de Duchenne (DMD) e distrofia muscular de Cinturas (DMC). *J Health Sci Inst.* 2012;30(2):176-80.
15. Thompson R, Straub V. Limb-girdle muscular dystrophies - international collaborations for translational research. *Nat Rev Neurol.* 2016;12(5):294-309. DOI: <http://doi.org/10.1038/nrneurol.2016.35>
16. Angelini C, Giaretta L, Marozzo R. An update on diagnostic options and considerations in limb-girdle dystrophies. *Expert Rev Neurother.* 2018;18(9):693-703. DOI: <http://doi.org/10.1080/14737175.2018.1508997>
17. Fanin M, Nascimbeni AC, Angelini C. Gender difference in limb-girdle muscular dystrophy: a muscle fiber morphometric study in 101 patients. *Clin Neuropathol.* 2014;33(3):179-85. DOI: <http://doi.org/10.5414/NP300728>
18. Angelini C. Neuromuscular disease. Diagnosis and discovery in limb-girdle muscular dystrophy. *Nat Rev Neurol.* 2016;12(1):6-8. DOI: <http://doi.org/10.1038/nrneurol.2015.230>
19. Cup EH, Sturkenboom IH, Pieterse AJ, Hendricks HT, van Engelen BG, Oostendorp RA, et al. The evidence for occupational therapy for adults with neuromuscular diseases: a systematic review. *OTJR Occup Particip Health.* 2008;(28):12-18. DOI: <http://doi.org/10.3928/15394492-20080101-02>
20. Knuijt S, Cup EH, Pieterse AJ, Swart BJ, van der Wilt GJ, van Engelen BG, et al. Speech pathology interventions in patients with neuromuscular diseases: a systematic review. *Folia Phoniatr Logop.* 2011;63(1):15-20. DOI: <http://doi.org/10.1159/000319731>
21. Chen CH, Tang SC, Su YN, Yang CC, Jeng JS. Cardioembolic stroke related to limb-girdle muscular dystrophy 1B. *BMC Res Notes.* 2013;6:32. DOI: <http://doi.org/10.1186/1756-0500-6-32>
22. Hollingsworth KG, Willis TA, Bates MG, Dixon BJ, Lochmüller H, Bushby K, et al. Subepicardial dysfunction leads to global left ventricular systolic impairment in patients with limb girdle muscular dystrophy 2I. *Eur J Heart Fail.* 2013;15(9):986-94. DOI: <http://doi.org/10.1093/eurjhf/hft057>
23. Okere A, Reddy SS, Gupta S, Shinnar M. A cardiomyopathy in a patient with limb girdle muscular dystrophy type 2A. *Circ Heart Fail.* 2013;6(1):e12-13. DOI: <https://doi.org/10.1161/CIRCHEARTFAILURE.112.971424>
24. Mitsuhashi S, Kang PB. Update on the genetics of limb girdle muscular dystrophy. *Semin Pediatr Neurol.* 2012;19(4):211-18. DOI: <http://doi.org/10.1016/j.spen.2012.09.008>
25. Nilsson MI, Laureano ML, Saeed M, Tarnopolsky MA. Dysferlin aggregation in limb-girdle muscular dystrophy type 2B/myoshi myopathy necessitates mutational screen for diagnosis. *Muscle Nerve.* 2012;47(5):740-7. DOI: <http://doi.org/10.1002/mus.23666>
26. Melià MJ, Kubota A, Ortolano S, Vilchez JJ, Gámez J, Tanji K, et al. Limb-girdle muscular dystrophy 1F is caused by a microdeletion in the transportin 3 gene. *Brain.* 2013;136(5):1508-17. DOI: <http://doi.org/10.1093/brain/awt074>
27. Fanin M, Nascimbeni AC, Angelini C. Muscle atrophy in Limb Girdle Muscular Dystrophy 2A: a morphometric and molecular study. *Neuropathol Appl Neurobiol.* 2013;39(7):762-71. DOI: <http://doi.org/10.1111/nan.12034>
28. Sveen ML, Andersen SP, Ingelsrud LH, Blichter S, Olsen NE, Jønck S, et al. Resistance training in patients with limb-girdle and becker muscular dystrophies. *Muscle Nerve.* 2013;47(2):163-9. DOI: <http://doi.org/10.1002/mus.23491>
29. Dam L, Kooi AJ, Waddington M, Haan RJ, Visser M. Reliability and accuracy of skeletal muscle imaging in limb-girdle muscular dystrophies. *Neurology.* 2012;79(16):1716-23. DOI: <http://doi.org/10.1212/WNL.0b013e31826e9b73>
30. Freitas BL, Silva TD, Crocetta TB, Massetti T, Araújo LV, Coe S, et al. Analysis of Different Device Interactions in a Virtual Reality Task in Individuals With Duchenne Muscular Dystrophy-A Randomized Controlled Trial. *Front Neurol.* 2019;10:24. DOI: <http://doi.org/10.3389/fneur.2019.00024>
31. Heutinck L, Jansen M, Elzen Y, van der Pijl ID, Groot IJ. Virtual Reality Computer Gaming with Dynamic Arm Support in Boys with Duchenne Muscular Dystrophy. *J Neuromuscul Dis.* 2018;5(3):359-72. DOI: <http://doi.org/10.3233/JND-180307>
32. Massetti T, Fávero FM, Menezes LC, Alvarez MP, Crocetta TB, Guarnieri R, et al. Achievement of Virtual and Real Objects Using a Short-Term Motor Learning Protocol in People with Duchenne Muscular Dystrophy: A Crossover Randomized Controlled Trial. *Games Health J.* 2018;7(2):107-15. DOI: <http://doi.org/10.1089/g4h.2016.0088>

33. Quadrado VH, Silva TD, Favero FM, Tonks J, Massetti T, Monteiro CB. Motor learning from virtual reality to natural environments in individuals with Duchenne muscular dystrophy. *Disabil Rehabil Assist Technol.* 2019;14(1):12-20. DOI: <http://doi.org/10.1080/17483107.2017.1389998>
34. Alvarez MP, Silva TD, Favero FM, Valenti VE, Raimundo RD, Vanderlei LC, et al. Autonomic Modulation in Duchenne Muscular Dystrophy during a Computer Task: A Prospective Control Trial. *PLoS One.* 2017;12(1):e0169633. DOI: <http://doi.org/10.1371/journal.pone.0169633>
35. Miliani CC, Silva TD, Tonks J, Watson S, Alvarez MP, Menezes LD, et al. Improvements in motor tasks through the use of smartphone technology for individuals with Duchenne muscular dystrophy. *Neuropsychiatr Dis Treat.* 2017;13:2209-17. DOI: <http://doi.org/10.2147/NDT.S125466>
36. Silva TD, Ribeiro-Papa DC, Coe S, Malheiros SRP, Massetti T, Meira Junior CM, et al. Evaluation of speed-accuracy trade-off in a computer task to identify motor difficulties in individuals with Duchenne Muscular Dystrophy - A cross-sectional study. *Research in developmental disabilities.* 2020;96:103541-10. DOI: <http://doi.org/10.1016/j.ridd.2019.103541>
37. Monteiro CB, Massetti T, Silva TD, van der Kamp J, Abreu LC, Leone C, et al. Transfer of motor learning from virtual to natural environments in individuals with cerebral palsy. *Res Dev Disabil.* 2014;35(10):2430-7. DOI: <http://doi.org/10.1016/j.ridd.2014.06.006>
38. Fernani DCGL, Prado MTA, Silva TD, Massetti T, Abreu LC, Magalhães FH, et al. Evaluation of speed-accuracy trade-off in a computer task in individuals with cerebral palsy: a cross-sectional study. *BMC Neurol.* 2017;17(1):143. DOI: <http://doi.org/10.1186/s12883-017-0920-4>
39. Prado MTA, Fernani DCGL, Silva TD, Smorenburg ARP, Abreu LC, Monteiro CBM. Motor learning paradigm and contextual interference in manual computer tasks in individuals with cerebral palsy. *Res Dev Disabil.* 2017;64:56-63. DOI: <http://doi.org/10.1016/j.ridd.2017.03.006>
40. Paula JN, Monteiro CBM, Silva TD, Miliani CC, Menezes LD, Massetti T, et al. Motor performance of individuals with cerebral palsy in a virtual game using a mobile phone. *Disabil Rehabil Assist Technol.* 2018;13(6):609-13. DOI: <http://doi.org/10.1080/17483107.2017.1392620>
41. Martins FP, Massetti T, Crocetta TB, Lopes PB, Silva AA, Figueiredo EF, et al. Analysis of motor performance in individuals with cerebral palsy using a non-immersive virtual reality task - a pilot study. *Neuropsychiatr Dis Treat.* 2019;15:417-28. DOI: <http://doi.org/10.2147/NDT.S184510>
42. Menezes, LC, Gomes, KS, Massetti, T, Silva TD, Possebom WF, Miliani CC, et al. Motor learning in mobile (cell phone) device in Down syndrome patients - pilot project. *Med Express.* 2015;2(4):1. DOI: <http://dx.doi.org/10.5935/MedicalExpress.2015.04.05>
43. Monteiro CBM, Silva TD, Abreu LC, Fregni F, Araujo LV, Ferreira FHIB, et al. Short-term motor learning through non-immersive virtual reality task in individuals with down syndrome. *BMC Neurol.* 2017;17(1):71. DOI: <http://doi.org/10.1186/s12883-017-0852-z>
44. Moraes IAP, Massetti T, Crocetta TB, Silva TD, Menezes LDC, Monteiro CBM, et al. Motor learning characterization in people with autism spectrum disorder: A systematic review. *Dement Neuropsychol.* 2017;11(3):276-86. DOI: <https://doi.org/10.1590/1980-57642016dn11-030010>
45. Antão JYFL, Abreu LC, Barbosa RTA, Crocetta TB, Guarnieri R, Massetti T, et al. Use of Augmented Reality with a Motion-Controlled Game Utilizing Alphabet Letters and Numbers to Improve Performance and Reaction Time Skills for People with Autism Spectrum Disorder. *Cyberpsychol Behav Soc Netw.* 2020;23(1):16-22. DOI: <https://doi.org/10.1089/cyber.2019.0103>
46. Moraes IAP, Monteiro CBM, Silva TD, Massetti T, Crocetta TB, Menezes LDC, et al. Motor learning and transfer between real and virtual environments in young people with autism spectrum disorder: A prospective randomized cross over controlled trial. *Autism Res.* 2020;13(2):307-19. DOI: <https://doi.org/10.1002/aur.2208>
47. Sobierajewicz J, Przekoracka-Krawczyk A, Jaśkowski W, Verwey WB, van der Lubbe R. The influence of motor imagery on the learning of a fine hand motor skill. *Exp Brain Res.* 2017;235(1):305-20. DOI: <https://doi.org/10.1007/s00221-016-4794-2>
48. Sanchez DJ, Yarnik EN, Reber PJ. Quantifying transfer after perceptual-motor sequence learning: how inflexible is implicit learning? *Psychol Res.* 2014;79(2):327-43. DOI: <https://doi.org/10.1007/s00426-014-0561-9>
49. Maxwell JP, Capio CM, Masters RSW. Interaction between motor ability and skill learning in children: Application of implicit and explicit approaches. *Eu J Sport Sci.* 2017;17(4):407-16. DOI: <https://doi.org/10.1080/17461391.2016.1268211>
50. Magill R. *Aprendizagem motora: conceitos e aplicações.* 5 ed. São Paulo: Edgard Blücher, 2000.

51. Stevens D, Anderson DI, O'Dwyer NJ, Williams AM. Does self-efficacy mediate transfer effects in the learning of easy and difficult motor skills?. *Conscious Cogn.* 2012;21(3):1122-8. DOI: <https://doi.org/10.1016/j.concog.2012.03.014>
52. Leinen P, Panzer S, Shea CH. Hemispheric asymmetries of a motor memory in a recognition test after learning a movement sequence. *Acta Psychol.* 2016;171:36-46. DOI: <https://doi.org/10.1016/j.actpsy.2016.09.007>
53. Shimizu RE, Wu AD, Knowlton BJ. Cerebellar activation during motor sequence learning is associated with subsequent transfer to new sequences. *Behav Neurosci.* 2016;130(6):572-84. DOI: <https://doi.org/10.1037/bne0000164>
54. Zangirolami-Raimundo J, Oliveira JD, Echeimberg CL. Research methodology topics: Cross-sectional studies. *J Hum Growth Dev.* 2018;28(3):356-60. DOI: <https://doi.org/10.7322/jhgd.152198>
55. Silva TD, Monteiro CB, Hasue RH, Moura MC. Aprendizagem motora em tarefa virtual na paralisia cerebral. *Temas Desenvolvimento.* 2013;19(104):47-53.
56. Lakens D. Calculating and reporting effect sizes to facilitate cumulative science: a practical primer for t-tests and ANOVAs. *Front Psychol.* 2013;4:863. DOI: <https://doi.org/10.3389/fpsyg.2013.00863>
57. Wass TS, Simmons RW, Thomas JD, Riley EP. Timing accuracy and variability in children with prenatal exposure to alcohol. *Alcohol Clin Exp Res.* 2002;26(12):1887-96. DOI: <https://doi.org/10.1097/01.ALC.0000042221.73478.4F>
58. Mahjneh I, Marconi G, Bushby K, Anderson LV, Tolvanen-Mahjneh H, Somer H. Dysferlinopathy (LGMD2B): a 23-year follow-up study of 10 patients homozygous for the same frameshifting dysferlin mutations. *Neuromus Disord.* 2001;11:20-6. DOI: [https://doi.org/10.1016/s0960-8966\(00\)00157-7](https://doi.org/10.1016/s0960-8966(00)00157-7)
59. Faulkner JA, Brooks SV, Opitck JA. Injury to skeletal muscle fibers during contractions: conditions of occurrence and prevention. *Phys Ther.* 1993;73(12):911-21. DOI: <https://doi.org/10.1093/ptj/73.12.911>
60. Mahmood OA, Jiang XM. Limb-girdle muscular dystrophies: Where next after six decades from the first proposal (Review). *Mol Med Rep.* 2014;9(5):1515-32. DOI: <https://doi.org/10.3892/mmr.2014.2048>
61. Siciliano G, Simoncini C, Giannotti S, Zampa V, Angelini C, Ricci G. Muscle exercise in limb girdle muscular dystrophies: pitfall and advantages. *Acta Myol.* 2015;34(1):3-8.
62. McDonald CM, Johnson ER, Abresch RT, Carter GT, Fowler Jr WM, Kilmer DD. Profiles of neuromuscular diseases. Limb-girdle syndromes. *Am J Phys Med Rehabil.* 1995;74(5 Suppl):S117-30. DOI: <https://doi.org/10.1097/00002060-199509001-00006>
63. Stübgen JP, Stipp A. Limb girdle muscular dystrophy: a prospective follow-up study of functional impairment. *Muscle Nerve.* 1997;20(4):453-60. DOI: [https://doi.org/10.1002/\(sici\)1097-4598\(199704\)20:4<453::aid-mus8>3.0.co;2-9](https://doi.org/10.1002/(sici)1097-4598(199704)20:4<453::aid-mus8>3.0.co;2-9)
64. Hunter M, Heatwole C, Wicklund M, Wehl CC, Mozaffar T, Statland JM, et al. Limb-Girdle Muscular Dystrophy: A perspective from adult patients on what matters most. *Muscle Nerve.* 2019;60(4):419-23. DOI: <https://doi.org/10.1002/mus.26636>
65. McDonald CM. Physical activity, health impairments, and disability in neuromuscular disease. *Am J Phys Med Rehabil.* 2002;81(11 Suppl):S108-20. DOI: <https://doi.org/10.1097/00002060-200211001-00012>
66. Aho AC, Hultsjö S, Hjelm K. Young adults' experiences of living with recessive limb-girdle muscular dystrophy from a salutogenic orientation: an interview study. *Disabil Rehabil.* 2015;37(22):2083-91. DOI: <https://doi.org/10.3109/09638288.2014.998782>
67. Miladi N, Bourguignon JP, Hentati F. Cognitive and psychological profile of a Tunisian population of limb girdle muscular dystrophy. *Neuromuscul Disord.* 1999;9(5):352-4. DOI: [https://doi.org/10.1016/s0960-8966\(99\)00006-1](https://doi.org/10.1016/s0960-8966(99)00006-1)
68. Kim YM, Chun MH, Yun GJ, Song YJ, Young HE. The effect of virtual reality training on unilateral spatial neglect in stroke patients. *Ann Rehabil Med.* 2011;35(3):309-15. DOI: <https://doi.org/10.5535/arm.2011.35.3.309>
69. Wang M, Reid D. Virtual Reality in Pediatric Neurorehabilitation: Attention Deficit Hyperactivity Disorder, Autism and Cerebral Palsy. *Neuroepidemiology.* 2011;36(1):2-18. DOI: <https://doi.org/10.1159/000320847>
70. Wuang YP, Chiang CS, Su CY, Wang CC. Effectiveness of virtual reality using Wii gaming technology in children with Down syndrome. *Res Dev Disabil.* 2011;32(1):312-21. DOI: <https://doi.org/10.1016/j.ridd.2010.10.002>
71. Ravi DK, Kumar N, Singhi P. Effectiveness of virtual reality rehabilitation for children and adolescents with cerebral palsy: an updated evidence-based systematic review. *Physiotherapy.* 2017;103(3):245-58.

DOI: <https://doi.org/10.1016/j.physio.2016.08.004>

72. Weiss PL, Tirosh E, Fehlings D. Role of virtual reality for cerebral palsy management. *J Child Neurol.* 2014;29(8):1119-24. DOI: <https://doi.org/10.1177/0883073814533007>
73. Jensen BR, Berthelsen MP, Husu E, Christensen SB, Prahm KP, Vissing J. Body weight-supported training in Becker and limb girdle 2I muscular dystrophy. *Muscle Nerve.* 2016;54(2):239-43. DOI: <https://doi.org/10.1002/mus.25039>

Abstract

Introduction: Limb-girdle muscular dystrophies (LGMDs) are neuromuscular and genetic disorders that progress with weakness and damage of the proximal muscles, developing with loss of functionality. Virtual reality environments are suggested as an effective alternative for performance of daily life activities. However, there is no evidence in the literature on the use of virtual reality in this population.

Objective: Assess motor performance through a motor learning protocol in a coincident timing task.

Methods: 10 participants with LGMD and 10 healthy individuals were selected and included in the study to perform a non-immersive virtual reality task divided into three phases: acquisition (20 attempts), retention (5 attempts), and transfer (5 attempts, with speed increase).

Results: It is observed that the accuracy of movement improves from the beginning to the end of the acquisition ($p = 0.01$); however, there is a marginal difference between the groups in block A1 ($p = 0.089$). Regarding the variability of touches, observed by the variable error, both groups improved performance in all phases.

Conclusion: Even with lower performance than the control group at the beginning of the practice, individuals with LGMD showed the potential to optimize motor function during the practice of a non-immersive virtual reality activity and were able to match their performance with the control group after a few attempts.

Keywords: Muscular Dystrophies. Virtual Reality. Motor Learning. Limb-Girdle Muscular Dystrophies.

©The authors (2020), this article is distributed under the terms of the Creative Commons Attribution 4.0 International License (<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>), which permits unrestricted use, distribution, and reproduction in any medium, provided you give appropriate credit to the original author(s) and the source, provide a link to the Creative Commons license, and indicate if changes were made. The Creative Commons Public Domain Dedication waiver (<http://creativecommons.org/publicdomain/zero/1.0/>) applies to the data made available in this article, unless otherwise stated.