

## Effekt av expiratorisk muskelstyrketräning med hjälpmedel vid Parkinsons sjukdom och multipel skleros

- Georg Lohse, Alexandra Snellman, Petros Nousios  
HTA-enheten Camtö

### **Följande personer har bidragit till rapporten**

Litteratursökning: Liz Holmgren, Medicinska biblioteket; Örebro universitet

Klinisk effekt: Georg Lohse MSc, Alexandra Snellman PhD,  
relevansbedömning Elisabeth Westerdahl PhD

Hälsoekonomi: Petros Nousios MPH

Layout: Camilla Mortyr, Tryckeriet Region Örebro län

Samtliga författare rapporterar avsaknad av jäv i relation till rapportens innehåll.

### **Intern granskning**

Louise Olsson, MD, PhD, Camtö

### **Extern granskning**

Åsa Olsson, Leg logoped, ÖNH-kliniken, Örebro universitetssjukhus

För vidare kontakt och frågor: [georg.lohse@rehabcentrum.nu](mailto:georg.lohse@rehabcentrum.nu)

---

### **Rapporten publiceras på**

<https://www.regionorebrolan.se/camto>



HTA-enheten Camtö

Universitetssjukhuset Örebro

701 85 Örebro

Mailadress:

[camto@regionorebrolan.se](mailto:camto@regionorebrolan.se)

Publicerad 2022-01-31

## Översikt HTA-metod

- ✓ PICO
- ✓ Systematisk litteratursökning
- ✓ Flödesschema
- Relevansgranskning SÖ
- ✓ Relevansgranskning primärstudier
- ✓ Redovisning av studier exkluderade på fulltextnivå
- Kvalitetsgranskning SÖ
- ✓ Kvalitetsgranskning primärstudier
- ✓ Tabellering av extraherade data
- ✓ Narrativ analys
- Metaanalys
- ✓ GRADE/bedömning av tillförlitlighet
- Etik
- ✓ Hälsoekonomi
- ✓ Pågående studier
- Expertmedverkan
- ✓ Intern granskning
- ✓ Extern granskning

## Förkortningar

<b>CCT</b>	Controlled Clinical Trial
<b>FEES</b>	Flexible Endoscopic Evaluation of Swallowing
<b>EMST</b>	Expiratory Muscle Strength Training
<b>EMT</b>	Expiratory Muscle Training
<b>LSVT</b>	Lee Silverman Voice Treatment
<b>MEP</b>	Maximal Expiratory Pressure
<b>MIP</b>	Maximal Inspiratory Pressure
<b>MS</b>	Multipel skleros
<b>NRS</b>	Numeric Rating Scale
<b>PCF</b>	Peak Cough Flow
<b>RCT</b>	Randomized Controlled Trial
<b>SE</b>	Standard error
<b>SVC</b>	Slow Vital Capacity
<b>SWAL-QOL</b>	Swallow-related Quality of Life

## Innehåll

Abstract.....	6
Populärvetenskaplig sammanfattning.....	7
Bakgrund.....	8
Metoder.....	9
Resultat.....	9
Diskussion.....	12
Hälsoekonomiska aspekter.....	22
Referenser.....	26
Appendix.....	00
Appendix 1.....	28
Appendix 2.....	28
Appendix 3.....	29

## Abstract

### Introduction

Specific devices for expiratory muscle strength training (EMST) are introduced for neuro-logical patients, and our aim was to assess the evidence on the effect of using such devices on voice, cough and dysphagia in multiple sclerosis (MS) and Parkinson's disease (PD).

### Methods

A systematic search of Medline, Cochrane, Embase, Cinahl and Amed was performed in February 2020, and updated February 2021. Selection was done according to PRISMA guidelines; only randomized (RCT), or controlled clinical trials (CCT) were eligible. A validated checklist was used to assess risk of bias and a narrative analysis followed.

### Results

Out of 191 initial hits, one CCT and two RCTs on PD, and four RCTs on MS were identified. For PD, both RCTs reported a positive effect on swallowing after 4 weeks but statistically significant for only one them and both studies were associated with a medium-high risk of bias. There was no data on any other outcome.

For MS, mean expiratory pressure was evaluated in four studies. Two small studies reported a significant better result with EMST devices, whereas two larger, and more recent studies found no difference, including the only study with a low risk of bias. Cough efficacy was evaluated in two, and dysphagia in one study, and none reported significant results. No study reported on voice-related outcomes.

The cost-effectiveness of EMST compared to the current standard of care in Region Örebro could not be assessed due to the absence of direct comparative evidence between the treatment methods considered.

### Conclusion

No evidence in support of using specific devices for EMST in patients with PD or MS for either cough, dysphagia or strengthening of voice was found in this systematic review of the literature.

## Populärvetenskaplig sammanfattning

### Bakgrund

Träning av andningsmuskulaturen kan förbättra såväl andning som hostförmåga. På senare år har olika träningshjälpmedel börjat användas av logopeder för att förbättra röststyrka och sväljförmåga hos patienter med neurologiska sjukdomar.

Syftet med denna rapport var därför att klargöra det vetenskapliga underlaget för användning av sådana specifika träningshjälpmedel av andningsmuskulaturen hos patienter med Parkinsons sjukdom (PD) och Multipel Skleros (MS).

### Metod

Litteratur eftersöktes i fem databaser över vetenskapliga studier i februari 2020 med uppdatering ett år senare. Två oberoende forskare valde ut relevanta artiklar baserat på förutbestämda kriterier. Inkluderade studier granskades och resultaten sammanställdes.

### Resultat

Två studier med Parkinsonpatienter hade utvärderat sväljförmåga efter 4 veckors träning. Endast en äldre studie visade ett statistiskt säkert bättre resultat träningshjälpmedel. Båda studierna har risk för snedvridna resultat.

Fyra studier hade utvärderat effekten av att använda träningshjälpmedel på maximalt tryck i luftstrupen under utandning hos patienter med MS. Två av dessa visar statistiskt säkra resultat men de baseras på mycket få patienter och har risk för snedvridna resultat. Två större och senare studier visade ingen bättre effekt av träningshjälpmedel än i kontrollgruppen. Övriga utfall som hosteffektivitet och sväljförmåga vid MS var endast kartlagda i enstaka studier.

Att avgöra kostnadseffektiviteten av EMST var inte möjligt på grund av avsaknad av studier som direkt jämför behandlingen med den som ges som sedvanlig behandling inom Region Örebro län.

### Slutsats

Små och tidiga studier har rapporterat positiv effekt av träning av andningsmuskulaturen med hjälpmedel men de motsägs av senare studier och totalt sett påträffades inget vetenskapligt stöd för användning av metoden bland patienter med Parkinson eller MS.

## Bakgrund

Träning av andningsmuskulaturen kan förbättra luftflödet vid utandning och ge ökad hosteffektivitet. Lufttrycket styrs av andningsapparaten och därför har träning av andningsmuskulaturen genom ”grade-rad motståndsandning” med ett speciellt instrument introducerats för att förbättra andning och hostförmåga [1, 2]. Expiratorisk muskelstyrketräning (EMST) fokuserar på att öka den kraftgenererande kapaciteten hos utandningsmuskulaturen. Behandling med EMST via logoped används i klinisk praktik också bland patienter med sväljningssvårigheter (dysfagi) för att skydda mot eventuell aspiration. Frågan har uppkommit om även röststyrka och relaterade faktorer kan förbättras [3, 4]. Om trycket under stämbanden ökar, det s k subglottiska trycket, blir stämbandens svängningsamplitud större vilket ökar röststyrkan [5, 6].

Parkinsons sjukdom är en progressiv neurodegenerativ störning som kännetecknas av motoriska och icke-motoriska symtom. Det finns i dagsläget 18 000 patienter med Parkinson i Sverige och förekomsten ökar på grund av en åldrande befolkning. Nedsatt andningsfunktion med svaghet i andningsmuskulaturen, stelhet i bröstkorgen samt reducerat luftflöde vid hosta är vanligt. Patienter med Parkinsons sjukdom kan även ha sväljningssvårigheter och risk för aspiration och för att motverka detta har för olika logopediska behandlingsmetoder införts som till exempel EMST eller video-assisted swallowing therapy (VAST) [7, 8]. Röst-störningar är ett tidigt symtom vid Parkinson, vilket bidrar till kommunikationssvårigheter, och de försämras gradvis över tid. Nedsättning i andningsmuskulaturen med försämrade tal- och röstfunktion har medfört att EMST har föreslagits på även denna indikation [5, 7, 9]. Multipel skleros (MS) är en kronisk sjukdom i centrala nervsystemet med 2,5 miljoner drabbade människor över hela världen. I Sverige finns cirka 20 000 personer med MS i dagsläget och incidensen är 10/100 000 individer och år. Insjuknandet sker vanligen i 20–45-årsåldern och kvinnor drabbas mer än dubbelt så ofta som män. MS kan medföra begränsningar i muskelstyrka och uthållighet i bland annat andningsmuskulaturen, vilket påverkar funktionell prestanda och träningskapacitet. Svaghet i andningsmuskulaturen kan även leda till nedsatt röststyrka.

I Storbritannien rekommenderas EMST av National Institute for Health and Care Excellence (NICE) för behandling vid Parkinsons sjukdom [10], men inte vid MS. Enligt Socialstyrelsen bör hälso- och sjukvården erbjuda rehabiliteringsinsatser med Lee Silverman Voice Treatment (LSVT) vid nedsatt röststyrka hos patienter med Parkinsons sjukdom. I Socialstyrelsens motivering anges att det vetenskapliga underlaget visserligen är otillräckligt men att åtgärden ändå har stöd i beprövad erfarenhet [11].

Eftersom LSVT är resurskrävande och en hel serie behandlingsbesök är nödvändiga finns skäl att eftersöka andra behandlingsmetoder. Som ett alternativ för logopedisk behandling har särskilda träningshjälpmedel för att öka den expiratoriska muskelstyrkan vid neurologiska sjukdomar föreslagits. Detta görs med andning mot ett motstånd som kan varieras och ökas vid behov för att höja träningsintensiteten. Det är dock oklart om det finns vetenskapligt stöd för hjälpmedel av detta slag.



## **Syfte**

Syftet var att kartlägga effekten av träning av expiratorisk muskelstyrka med särskilt hjälpmedel vid nedsatt röststyrka, hostförmåga och sväljsvårigheter hos patienter med Parkinsons sjukdom och MS.

## **Frågeställning**

Kan träning av expiratorisk muskelstyrka med särskilt hjälpmedel förbättra röststyrka, hostförmåga samt lindra graden av sväljsvårigheter vid Parkinsons sjukdom respektive MS?

## Material och metod

Följande PICO ställdes upp inför projektstart:

- **Population**           Patienter med Parkinsons sjukdom eller MS
- **Intervention**       Expiratorisk muskelstyrketräning (EMST) utförd med träningshjälpmedel
- **Comparison**       Ingen behandling, placebo eller annan träningsform
- **Outcome**           Röststyrka, hostförmåga, sväljförmåga och expiratorisk muskelstyrka

### Litteratursökning

Litteratursökning gjordes av bibliotekarie vid Medicinska biblioteket, Örebro universitet 2020-02-25 och uppdatering 2021-02-15 i följande databaser: MEDLINE, Cochrane Library, Embase, CINAHL, PsycINFO och Web of Science. Ingen tidsbegränsning bakåt i tiden gjordes. Söktermerna utformades i samråd med bibliotekarie, initialt i Medline och anpassades sedan för varje databas. Dubletter togs bort av bibliotekarie. Sökstrategin presenteras i Appendix 1.

### Inklusionskriterier

Randomiserade kontrollerade studier (RCT) och kontrollerade kliniska studier (CCT) var aktuella för inklusion, samt studier publicerade på engelska.

### Exklusionskriterier

Studier som inte omfattade patienter med Parkinsons sjukdom eller MS, inte redovisat analys av gruppjämförelser eller inte använde något träningshjälpmedel exkluderades. Systematiska översikter, kommentarer, fallrapporter och konferensabstracts exkluderades.

### Selektion

Relevansbedömning av samtliga träffar gjordes av två granskare (GL, EW) oberoende av varandra och i två steg. I en första omgång selekterades de artiklar som bedömdes relevanta utifrån titel- och abstrakt. En publikation som bedömdes relevant av någon av granskarna gick vidare till läsning i fulltext. På denna nivå gjorde de två granskarna först en oberoende bedömning av studiens relevans utifrån projektets frågeställning, PICO och uppställda kriterier. Eventuella oenigheter avseende slutgiltig relevansbedömning löstes i konsensus. Samtliga studier som på detta sätt inkluderats gick vidare till bedömning av risk för bias.

Manuell sökning i referenslistor från inkluderade studier genomfördes för att identifiera eventuella relevanta artiklar som inte fångats upp i den ursprungliga sökstrategin.

### **Bedömning av risk för bias i ingående studier**

Risk för bias bedömdes med hjälp av granskningsmall för randomiserad studie från SBU [12]. Risk för bias angavs som låg, måttlig eller hög. Två oberoende granskare (AS, GL) utförde bedömningen av de inkluderade studierna, och eventuella oenigheter mellan granskarna löstes genom konsensus.

### **Resultatredovisning och analys**

Resultaten grupperades för Parkinsons sjukdom respektive MS. Resultat extraherades ur artiklarna och redovisas på samma sätt per diagnos. En narrativ sammanvägning gjordes för varje utfall då ytterligare analys ej var möjligt. Det kunde inte heller genomföras några analyser avseende publikationsbias. Den sammanvägda tillförlitligheten i resultaten baserat på risk för bias, antal deltagare och studier, heterogenitet mellan studierna, samstämmighet i resultaten och precision i resultaten summerades för respektive diagnos.

### **Pågående studier**

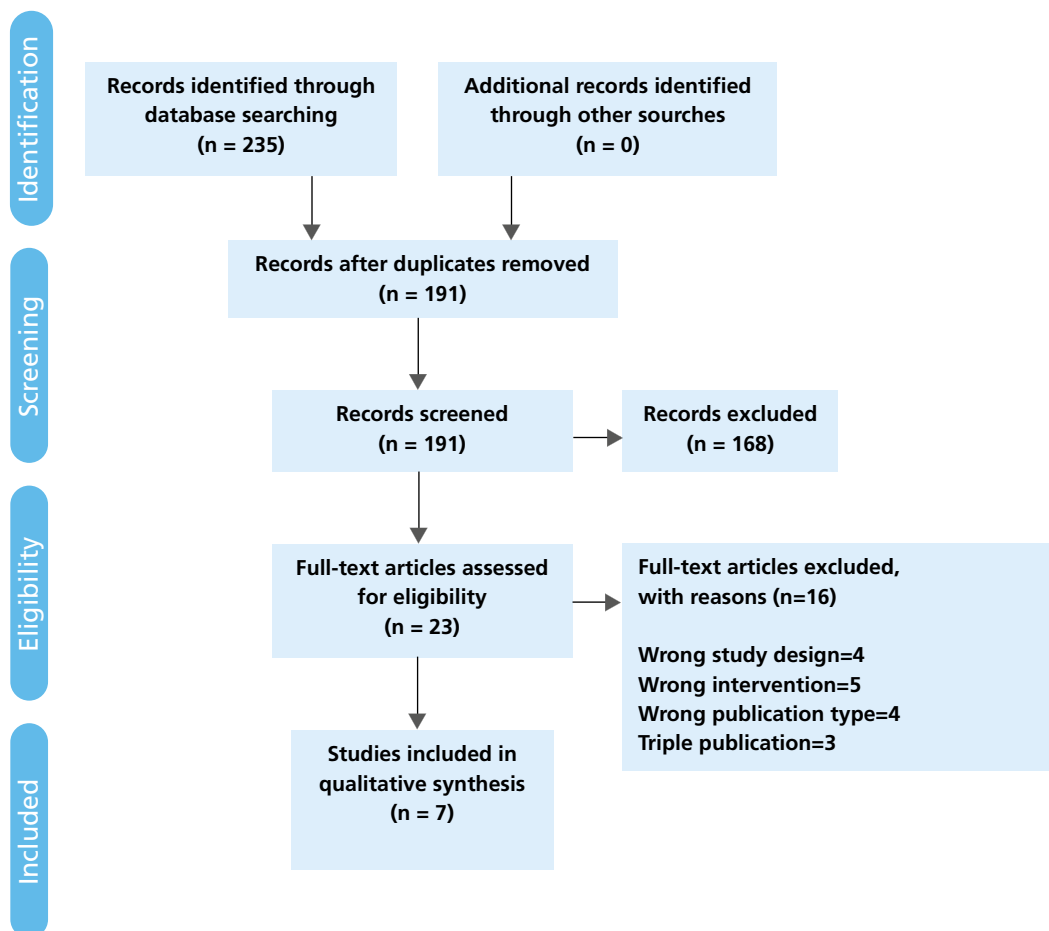
Pågående systematiska översikter eftersöktes i databasen PROSPERO

<https://www.crd.york.ac.uk/prospero/>. Pågående primärstudier eftersöktes i databasen Clinicaltrials.gov

<https://clinicaltrials.gov> och ISRCTN <https://www.isrctn.com/>

## Resultat

Den systematiska litteratursökningen genererade totalt 191 studier efter att dubletter tagits bort. Efter screening av titlar och abstract valdes 25 artiklar ut till läsning i fulltext. Totalt 7 studier bedömdes slutligen vara relevanta för frågeställningen och inkluderades (Figur 1). Exklusionsorsaker redovisas i Appendix 2.



**Figure 1** Study flow chart

### Parkinsons sjukdom

Två RCT [13, 14] om totalt 121 patienter med Parkinsons sjukdom publicerade 2010 och 2021 inkluderades (Table 1). Även en kontrollerad klinisk studie begränsad till 13 patienter som utan randomisering fördelats till tre olika interventionsgrupper påträffades. Resultaten bedöms emellertid inte kunna vara annat än anekdotiska och studien redovisas inte närmare [15].

**Table 1** Basic characteristics of randomized controlled studies for Parkinson's disease

Author Year Country	Patients (n) Age $\pm$ SD Male/Female	Device	Intervention n	Control n	Follow-up	Outcomes*
Claus, 2021 Germany[13]	n=53 randomized (n=45 analyzed) 67 $\pm$ 9 years 37/8	EMST 150, Aspire Products	n=25 (n=24) 5 days/week, 5 set of 5 repetitions	Placebo n=25 (n=21)	4 weeks and (3 months)	<b>Swallowing</b> FEES total score SWAL-QOL SDQ
Troche, 2010 USA [14]	n=68 randomized (n=60 analyzed) 68 $\pm$ 19 47/13	EMST 150, Aspire Products	n = 30 20 minutes /day 5 days/week	Placebo n=30	4 weeks	<b>Swallowing</b> Hyoid move- ment Safety (PAS) SWAL-QOL

\* FEES = Fiberoptic endoscopic evaluation of swallowing.

Scales: PAS= Penetration and aspiration scale, SDQ = swallowing disturbance questionnaire, SWAL-QOL= Swallow function and swallow-related quality of life

Två randomiserade studier utvärderade sväljförmåga med SWAL-QOL och den ena, med 60 deltagare publicerad 2010, visade en positiv och signifikant effekt vid uppföljning efter fyra veckor [14] (Table 2). Studien visade också en bättre sväljsäkerhet. Den senaste publicerade studien år 2021 av Claus et al, med 45 analyserade deltagare visade ingen signifikant skillnad i SWAL-QOL vare sig efter 4 veckor eller efter 3 mån [13]. Däremot påvisades en signifikant skillnad i sväljfunktion mätt med FEES vid båda mätillfällena.

**Table 2** Effect of expiratory muscle strength training using a specific device on swallowing (SWAL-QOL) in Parkinson's disease

Author Year Country	Outcome	mean $\pm$ SE or p-value	Direction of effect**
Claus, 2021 [13]	SWAL-QOL at 4 weeks	I: 188.88 $\pm$ 26.78 C: 174.19 $\pm$ 29.58	▲
Troche, 2010 [14]	SWAL-QOL at 4 weeks	p = 0.007	▲

\*\*Direction of the effect of intervention vs control group was illustrated as follows:

▲ Higher effect in the intervention group, a significant difference

▲ Higher effect, but not significant

## Risk för bias

Studien från 2021 bedömdes ha hög risk för bias på grund av svagheter vad gäller selektion av patienter (Figure 2). Studien från år 2010 bedömdes ha medelhög risk för bias, men författarna till denna studie uppgav jäv.

Study	Selection bias	Performance bias	Detection bias	Attrition bias	Reporting bias	Summary	Conflict of interest
Claus, 2021 [13]	●	●	●	●	●	●	Missing information
Troche, 2010 [14]	●	●	●	●	●	●	Conflict of interest declared

Low ● Medium ● High ●

Figure 2 Risk of bias of studies on patients with Parkinson's disease

## Tillförlitlighet till resultat om EMST med träningshjälpmedel vid Parkinsons sjukdom

Sväljsvårigheter (dysfagi) utvärderades i endast två RCT publicerade med mer än tio år emellan. Studien publicerad 2010 visade måttlig förbättring i sväljsäkerhet och i SWAL-QOL sväljrelaterad livskvalitet. I studien av Claus et al fann man ingen signifikant skillnad i SWAL-QOL men en skillnad i sväljfunktion utvärderat med FEES. Det föreligger risk för att resultaten är snedvridna i bägge studierna. Därmed kan man inte dra någon tillförlitlig slutsats om effekten av EMST med särskilt hjälpmedel på sväljförmågan hos patienter med Parkinson.

## Multipel skleros

Fyra RCT [16-19] om totalt 115 patienter med MS publicerade mellan 1996 och 2017 inkluderades (Table 3). Två av studierna var från USA och två från Europa. Tre olika hjälpmedel utvärderades. Träningsprogrammen varierade något. Tre studier hade en placeboarm, en studie jämförde enbart med sedvanlig vård. Varje studie inkluderade som mest 52 patienter. Samtliga studier har med MEP bland utfallsmåtten. Två av studierna utvärderar MEP vid samma tidpunkt (efter 3 månader) och i de övriga görs utvärderingen efter olika långa uppföljningstider.

**Table 3** Basic characteristic of randomized controlled studies for Multiple sclerosis

Author Year Country	Patients (n) Age $\pm$ SD Male/Female	Device	Intervention n	Control n	Follow-up	Outcomes*
Silverman, 2017 USA	n=42 recruited (n=34 analyzed) 20-75 years 11/31	EMST150, Aspire Products	n=20 5 $\approx$ 20 min x 5 5 days/week 5 weeks	n=14 Placebo	5 weeks	<b>Pulmonary function</b> MEP Video-Fluoroscopy PAS SWAL-QOL
Westerdahl, 2016 Sweden	n=52 randomized (n=48 analyzed) 55 $\pm$ 12 years 13/35	PEP device Rium breathing exerciser	n=23 3 x 10 breaths + 30-60 s pause 2 times daily	n=25 None	2 months	<b>Pulmonary function</b> SVC, FEV, FVC, MEP SpO2 NRS EQ-5D
Gosselink, 2000 Belgium	n=18 randomized (n=18 analyzed) 58 $\pm$ 14 9/9	Threshold device, Healthscan Products	n= 9 Expirations x 3 2 times daily 3 months	n= 9 Placebo	3 months and 6 months.	<b>Pulmonary function</b> MEP MIP FVC Cough efficacy Functional status
Smeltzer, 1996 USA	n=20 randomized (n=15 analyzed) Age NR 7/8	Threshold device, Healthscan Products	n=10 15 repetitions + 5 min rest x 3 2 times daily 3 months	n= 9 Placebo n=5 Placebo	3 months	<b>Pulmonary function</b> MEP MIP

\*Pulmonary function tests:

FEV =Forced expiratory volume, FVC =Forced vital capacity, MEP= Maximal Expiratory Pressure, MIP=Maximal Inspiratory Pressure,

PCF = Peak Cough Flow, SVC =Slow Vital Capacity

Scales:

NRS =Numeric Rating Scale, PAS= Penetration and aspiration scale, SWAL-QOL= Swallow function and swallow-related quality of life, SpO2 = subjective breathing and coughing ability

Resultat från studierna om MS redovisas i Table 4. Fyra studier utvärderade MEP som ett utfallsmått. Två av dessa var publicerade för mer än 20 år sedan, och de rapporterade en signifikant förbättring av EMST med särskilt hjälpmedel efter 3 månader. Detta kunde dock inte bekräftas i de två senaste studierna publicerade 2016 och 2017, men resultaten utvärderades då efter en kortare interventionsperiod (fem veckor och 2 månader).

Hostrelaterade utfall utvärderades i två studier med två olika utfallsmått. I ena studien visade resultatet en förbättrad hostförmåga i interventionsgruppen både efter 3 och 6 månaders uppföljning [16], i den andra fann man ingen skillnad [19]. Sväljförmåga hade utvärderats i en studie utan att någon skillnad påvisats mellan grupperna [17]. Röstrelaterade utfall utvärderades inte i någon studie med patienter diagnosticerade med MS.

**Table 4** Effect of expiratory muscle strength training on mean expiratory pressure in patients with Multiple sclerosis

Author Year Country	Outcome	Effect	Direction of effect*
Silverman, 2017 [17]	MEP 5 weeks	I: 99.00±32.97 C:99.38±37.59	►
Westerdahl, 2016 [19]	MEP 2 Months	I: 98 ± 28 C:100 ± 23	►
Gosselink, 2000 [16]	MEP 3 months	I: 61 ± 21 C: 20 ± 7	▲
Smeltzer, 1996[18]	MEP 3 months	I: 73 ± 15 C: 62 ± 19	▲

\*\*Direction of the effect of intervention vs control group was illustrated as follows:

▲ Higher effect in the intervention group, significant difference

► No difference/ conflicting results



## Risk för bias

Två RCT angående patienter med MS bedömdes ha hög risk, en medelhög och en studie låg risk för bias (Figure 3).

Study	Selection bias	Performance bias	Detection bias	Attrition bias	Reporting bias	Summary	Conflict of interest
Silverman, 2017 [17]	●	●	●	●	●	●	None declared
Westerdahl 2016 [19]	●	●	●	●	●	●	None declared
Gosselink, 2000 [16]	●	●	●	●	●	●	None declared
Smeltzer, 1996 [18]	●	●	●	●	●	●	None declared

Low ● Medium ● High ●

Figure 3 Risk of bias of studies on patients with MS

## Tillförlitlighet till resultat av EMST med träningshjälpmedel vid multipel skleros

Avseende MEP räcker inte resultaten till för en tillförlitlig slutsats. Det finns endast två studier med acceptabel risk för bias men det föreligger ingen övertygande samstämmighet i resultaten. Gosselink et al baseras på 18 patienter och i jämförelse med placebo påvisas en effekt av interventionen medan Westerdahl et al baserat på en studie med 48 patienter inte påvisar någon signifikant skillnad mellan grupperna. De två övriga studierna av Silverman och Smeltzer har hög risk för bias.

Vad gäller hostförmåga utvärderades det i två studier men data räcker inte för en säker slutsats då ingen av studierna visade signifikanta resultat mellan undersöknings- och kontrollgrupp. Inte heller sväljförmåga kan tillskrivas säkra resultat då endast en studie med hög risk för bias påträffades.

## Pågående studier

En pågående systematisk översikt med liknande frågeställningar som i denna rapport kring respiratorisk muskelträning för patienter med Parkinsons sjukdom återfanns i databasen PROSPERO [20].

## Diskussion

I denna kartläggning påträffades endast två RCT som utvärderat effekten av EMST med specifikt hjälpmedel på sväljförmåga efter 4 veckor vid Parkinsons sjukdom. Sammantaget baseras de på ett litet antal patienter, en av studierna hade hög risk för bias och den andra var behäftad med jäv. Inga slutsatser kan dras om effekten av träning av expiratorisk muskelstyrka med specifikt träningshjälpmedel på något utfall vid Parkinson.

Under arbetets gång noterades initialt flera studier baserade på patienter med Parkinson. Vartefter granskningen fortskred noterades dock att tre studier presenterade patientdata med alltför stora likheter för att det skulle kunna ha uppkommit av ren slump. Endast titel och abstrakt skiljer ett par av publikationerna åt, samt att en författare tillkommit i en senare publikation. Det förefaller som om resultaten av forskningsprojektet första gången publicerats i en mer välrenommerad tidskrift men därefter duplicerats i ett par andra. Sammantaget bedömdes studierna/författargrupperna till dessa tre publikationer ha förbrukat sin trovärdighet och de exkluderades från resultatredovisningen. Camtö kommer att följa upp detta ärende ytterligare.

Fyra studier om användning av ett specifikt EMST-hjälpmedel vid MS påträffades men de studier som påvisat en effekt är 20-25 år gamla och resultatet har inte reproducerats i senare studier. Studierna är dessutom heterogena vad gäller svårighetsgraden av MS och behandlingsprotokollens intensitet och frekvens. Träningen med hjälpmedel för EMST utfördes främst av patienterna själva, utan direkt övervakning vid varje träningstillfälle. Utebliven effekt av träningen avseende MEP skulle kunna bero på för låg träningsintensitet [19] men det saknas studier som jämfört olika träningsintensitet. Det finns också anledning att ifrågasätta valet av utfallsmått (mean expiratory pressure) och om det är att betrakta som ett surrogatmått för röststyrka.

## Konklusion

Det har i denna kartläggning inte framkommit något vetenskapligt stöd för att EMST med hjälp av särskilt hjälpmedel kan påverka röststyrka, host- eller sväljförmåga vid Parkinson eller MS.

## Kunskapslucka

Effekt av expiratorisk muskelstyrketräning med särskilt hjälpmedel på röststyrka, svälj- och hostförmåga vid Parkinsons sjukdom eller MS är att betrakta som kunskapsluckor.

## Referenser

1. Ferreira GD, Costa ACC, Plentz RDM, Coronel CC, Sbruzzi G. Respiratory training improved ventilatory function and respiratory muscle strength in patients with multiple sclerosis and lateral amyotrophic sclerosis: systematic review and meta-analysis. *Physiotherapy* 2016; 102: 221-8. doi:<https://dx.doi.org/10.1016/j.physio.2016.01.002>
2. Rietberg MB, Veerbeek JM, Gosselink R, Kwakkel G, van Wegen EE. Respiratory muscle training for multiple sclerosis. *The Cochrane database of systematic reviews* 2017; 12: CD009424. doi:<https://dx.doi.org/10.1002/14651858.CD009424.pub2>
3. Reyes A, Ziman M, Nosaka K. Respiratory muscle training for respiratory deficits in neurodegenerative disorders: a systematic review. *Chest* 2013; 143: 1386-94. doi:<https://dx.doi.org/10.1378/chest.12-1442>
4. Wang Z, Wang Z, Fang Q, Li H, Zhang L, Liu X. Effect of Expiratory Muscle Strength Training on Swallowing and Cough Functions in Patients With Neurological Diseases: A Meta-analysis. *American Journal of Physical Medicine & Rehabilitation* 2019; 98: 1060-6. doi:10.1097/PHM.0000000000001242
5. Castillo A, Castillo J, Reyes A. Association Between Subglottic Pressure and Pulmonary Function in Individuals With Parkinson's Disease. *Journal of voice : official journal of the Voice Foundation* 2019. doi:<https://dx.doi.org/10.1016/j.jvoice.2019.03.001>
6. Laciuga H, Rosenbek JC, Davenport PW, Sapienza CM. Functional outcomes associated with expiratory muscle strength training: narrative review. *Journal of rehabilitation research and development* 2014; 51: 535-46. doi:<https://dx.doi.org/10.1682/JRRD.2013.03.0076>
7. Suttrup I, Warnecke T. Dysphagia in Parkinson's Disease. *Dysphagia* 2016; 31: 24-32. doi:<https://dx.doi.org/10.1007/s00455-015-9671-9>
8. van Hooren MRA, Baijens LWJ, Voskuilen S, Oosterloo M, Kremer B. Treatment effects for dysphagia in Parkinson's disease: a systematic review. *Parkinsonism & related disorders* 2014; 20: 800-7. doi:<https://dx.doi.org/10.1016/j.parkreldis.2014.03.026>
9. Rodriguez MA, Crespo I, Del Valle M, Olmedillas H. Should respiratory muscle training be part of the treatment of Parkinson's disease? A systematic review of randomized controlled trials. *Clinical rehabilitation* 2019; 269215519896054. doi:<https://dx.doi.org/10.1177/0269215519896054>
10. NICE National Institute for Health and Care Excellence. Guidelines and Recommendations: NICE guideline [NG71] Parkinson's disease in adults. Speech and language therapy: 1.7.8 London, UK: NICE; 2017 [cited 2020 May 26]. Available from: <https://www.nice.org.uk/guidance/ng71>.
11. Socialstyrelsen. Nationella riktlinjer – Utvärdering 2016 – Vård vid multipel skleros och Parkinsons sjukdom – Sammanfattning med förbättringsområden Stockholm: Socialstyrelsen; 2016 [cited 2020 May 26]. Available from: <https://www.socialstyrelsen.se/regler-och-riktlinjer/nationella-riktlinjer/slutliga-riktlinjer/ms-och-parkinsons-sjukdom/>.
12. Statens beredning för medicinsk och social utvärdering. Vår metod, granskningsmallar 2021 [cited 2021 Dec, 14]. Available from: <https://www.sbu.se/sv/metod/sbus-metodbok/#granskningsmall>.

13. Claus I, Muhle P, Czechowski J, Ahring S, Labeit B, Suntrup-Krueger S, et al. Expiratory Muscle Strength Training for Therapy of Pharyngeal Dysphagia in Parkinson's Disease. *Mov Disord* 2021; 36: 1815-24. doi:10.1002/mds.28552
14. Troche MS, Okun MS, Rosenbek JC, Musson N, Fernandez HH, Rodriguez R, et al. Aspiration and swallowing in Parkinson disease and rehabilitation with EMST: a randomized trial. *Neurology* 2010; 75: 1912-9. doi:<https://dx.doi.org/10.1212/WNL.0b013e3181fef115>
15. Kuo Y-C, Chan J, Wu Y-P, Bernard JR, Liao Y-H. Effect of expiratory muscle strength training intervention on the maximum expiratory pressure and quality of life of patients with Parkinson disease. *NeuroRehabilitation* 2017; 41: 219-26. doi:<https://dx.doi.org/10.3233/NRE-171474>
16. Gosselink R, Kovacs L, Ketelaer P, Carton H, Decramer M. Respiratory muscle weakness and respiratory muscle training in severely disabled multiple sclerosis patients. *Archives of physical medicine and rehabilitation* 2000; 81: 747-51.
17. Silverman EP, Miller S, Zhang Y, Hoffman-Ruddy B, Yeager J, Daly JJ. Effects of expiratory muscle strength training on maximal respiratory pressure and swallow-related quality of life in individuals with multiple sclerosis. *Multiple sclerosis journal - experimental, translational and clinical* 2017; 3: 2055217317710829. doi:<https://dx.doi.org/10.1177/2055217317710829>
18. Smeltzer SC, Lavietes MH, Cook SD. Expiratory training in multiple sclerosis. *Archives of physical medicine and rehabilitation* 1996; 77: 909-12.
19. Westerdahl E, Wittrin A, Kanahols M, Gunnarsson M, Nilsagard Y. Deep breathing exercises with positive expiratory pressure in patients with multiple sclerosis - a randomized controlled trial. *The clinical respiratory journal* 2016; 10: 698-706. doi:<https://dx.doi.org/10.1111/crj.12272>
20. PROSPERO. International prospective register of systematic reviews 2021 [cited 2021 Dec, 14]. Available from: [https://www.crd.york.ac.uk/prospero/display\\_record.php?RecordID=109520](https://www.crd.york.ac.uk/prospero/display_record.php?RecordID=109520).
21. Herd CP, Tomlinson CL, Deane KH, Brady MC, Smith CH, Sackley CM, et al. Comparison of speech and language therapy techniques for speech problems in Parkinson's disease. *Cochrane Database Syst Rev* 2012: CD002814. doi:10.1002/14651858.CD002814.pub2

## Hälsoekonomiska aspekter

En viktig förutsättning för att avgöra en behandlings kostnadseffektivitet inom en specifik indikation är tillgänglighet till kliniska studier som jämför den valda metoden med relevanta behandlingsalternativ [1]. Om direkt jämförande studier inte är tillgängliga, men åtgärderna har jämförts med ett annat gemensamt behandlingsalternativ, så kan en indirekt jämförelse utföras med hjälp av mer avancerade statistiska metoder [2]. Ett viktigt antagande som ligger till grund för sådana analyser är att de jämförda behandlingsmetoderna har ett redan utvecklat evidensunderlag som kan möjliggöra systematiska jämförelser med olika alternativ.

I det här projektet påträffades inga direkt jämförande studier mellan EMST och LSVT, den befintliga metoden som används i RÖL vid nedsatt röststyrka, hostförmåga och sväljsvårighet hos patienter med multipel skleros (MS) eller Parkinsons sjukdom (PS). Dessutom var genomförandet av en indirekt jämförelse (indirect treatment comparison ITC) med hjälp av Bucher-metoden [3] inte möjligt på grund av att evidensunderlaget kring LSVT fortfarande är oklart vad gäller metodens aktuella effektivitet [4]. En systematisk litteraturgenomgång med enbart fokus på LSVT som skulle kunna användas vid ITC saknas också i dagsläget. Avsaknaden av jämförande studier tillåter inte slutsatser kring effektiviteten och kostnadseffektiviteten av EMST jämfört med LSVT. Det blir då omöjligt att säkerställa att kostnadseffektivitetsprincipen av den etiska plattformen uppfylls.

Å andra sidan, kan en partiell hälsoekonomisk utvärdering som redovisar behandlingskostnader vara lämplig som vägledning för utformningen och genomförandet av studier som jämför EMST och LSVT. Tabell 1 redovisar kostnaderna som förknippas med EMST och LSVT ur ett sjukvårdsperspektiv. Metoderna innebär olika resursanvändning, t ex besöksfrekvens, som kan leda till betydande skillnader vid implementering och för kostnadsintensiteten. Kalkylen utslöt upphandlingskostnader för EMST-150 och certifieringskostnader för LSVT som i nuläget inte bärs av regionen. Analysen utgick från information om resursutnyttjande och antaganden som har baserats på lokala kliniska praxis (Bilaga 3).

**Table 1** Resource utilization and costs per patient

	EMST-150	LSVT	LSVT with repetition
Visits to speech therapist	4	18	34
Telephone follow-up (hours)	4 (0.3)	1 (0.17)	1 (0.17)
Treatment cost	6 197	25 978	41 232
Difference in costs with respect to EMST-150		-19 782	-35 035

Note: Costs in 2022 SEK

Behandling med EMST-150 kan kräva färre besök hos logoped, men fler telefonuppföljningar under behandlingsperioden. Å andra sidan innebär LSVT-metoden fler besök och möjligen en upprepning av behandlingen för att upprätthålla effekten över tid. Kostnader hos olika patientgruppstorlekar redovisas i Tabell 2.

**Table 2** Treatment costs per patient group size

No. of patients	EMST-150	LSVT	LSVT with retraining	Difference in cost with respect to EMST-150:	
				LSVT	LSVT with re-training
10	61 967	259 783	412 317	-197 817	-350 350
20	123 933	519 567	824 633	-395 633	-700 700
30	185 900	779 350	1 236 950	-593 450	-1 051 050
50	309 833	1 298 917	2 061 583	-989 083	-1 751 750
75	464 750	1 948 375	3 092 375	-1 483 625	-2 627 625
100	619 667	2 597 833	4 123 167	-1 978 167	-3 503 500
150	929 500	3 896 750	6 184 750	-2 967 250	-5 255 250
200	1 239 333	5 195 667	8 246 333	-3 956 333	-7 007 000

Note: Costs in 2022 SEK

## Konklusion

Den nuvarande analysen redovisade kostnaderna som kan förknippas med EMST-behandling i jämförelse med LSVT. Analysen visade kostnadsskillnader till fördel för EMST men avsaknaden av direkt jämförande information avseende behandlingarnas hälsoeffekter antyder att det finns betydande osäkerheter i evidensunderlaget som inte tillåter mer tillförlitliga slutsatser för både behandlingen och jämförelsealternativet. Sammanfattningsvis borde randomiserade kontrollerade studier som direkt jämför EMST och LSVT planeras med långsiktig uppföljningsperiod för att uppnå säkrare slutsatser om behandlingsmetodernas effektivitet och kostnadseffektivitet.

## Referenser

1. Drummond, M.F., Sculpher, M.J., Claxton, K., Stoddart, G.L., Torrance, G.W. (2015) *Methods for the Economic Evaluation of Health Care Programmes* 4th ed. Oxford University Press: Oxford.
2. SBU. *Utvärdering av metoder i hälso- och sjukvården och insatser i socialtjänsten: en metodbok*. Stockholm: Statens beredning för medicinsk och social utvärdering (SBU); 2020. [accessed 2022-01-10]. Available from: <https://www.sbu.se/metodbok>.
3. Bucher, H.C., et al., The results of direct and indirect treatment comparisons in meta-analysis of randomized controlled trials. *J Clin Epidemiol*, 1997. 50(6): p. 683-91.
4. Sackley, C.M., et al., A multicentre, randomised controlled trial to compare the clinical and cost-effectiveness of Lee Silverman Voice Treatment versus standard NHS Speech and Language Therapy versus control in Parkinson's disease: a study protocol for a randomised controlled trial. *Trials*, 2020. 21(1): p. 436.

## Appendix 1 Literature search

Medline via Ovid 200225

Söktermer		Antal träffar
<b>Patients with multiple sclerosis or Parkinson's disease</b>		
1.	exp Multiple Sclerosis/	57,519
2.	exp Parkinsonian Disorders/	78,383
3.	((multiple adj1 sclerosis) or parkinsonian or parkinsonism or parkinson or parkinson's or parkinsons).ab,kf,ti.	185,638
4.	1. OR 2. OR 3.	203,306
<b>Expiratory muscle strength training</b>		
5.	positive-pressure respiration/ or intermittent positive-pressure ventilation/	18,497
6.	("expiratory muscle strength" or "emst" or "emst 150" or "emst150" or "expiratory muscle strength training" or ("Positive Pressure" adj2 Respiration) or "resistance breathing" or "resistive breathing" or "positive expiratory pressure" or "expiratory muscle training" or ("Positive Pressure" adj2 Ventilation)).ab,kf,ti.	6,985
7.	exp Respiratory Muscles/ or ("breathing muscle*" or "respiratory muscle*").ab,kf,ti.	29,613
8.	exp Resistance Training/ or training.ab,kf,ti.	397,771
9.	7. AND 8.	1,425
10.	5. OR 6. OR 9.	23,091
<b>Combined set limited to english</b>		
11.	4. AND 10.	56
	After duplicates removed	56



Cochrane 200225

<b>Söktermer</b>		<b>Antal träffar</b>
<b>Patients with multiple sclerosis or Parkinson's disease</b>		
#1	MeSH descriptor: [Parkinsonian Disorders] explode all trees	4274
#2	MeSH descriptor: [Multiple Sclerosis] explode all trees	3357
#3	((multiple NEAR/1 sclerosis) or parkinsonian or parkinsonism or parkinson or parkinson's or parkinsons)):ti,ab,kw	20078
#4	#1 OR #2 OR #3	20118
<b>Expiratory muscle strength training</b>		
#5	MeSH descriptor: [Positive-Pressure Respiration] this term only	1465
#6	MeSH descriptor: [Intermittent Positive-Pressure Ventilation] this term only	239
#7	((("expiratory muscle strength" or "emst" or "emst 150" or "emst150" or "expiratory muscle strength training" or ("Positive Pressure" NEAR/2 Respiration) or "resistance breathing" or "resistive breathing" or "positive expiratory pressure" or "expiratory muscle training" or ("Positive Pressure" NEAR/2 Ventilation))):ti,ab,kw	3225
#8	#5 OR #6 OR #7	3225
#9	MeSH descriptor: [Respiratory Muscles] explode all trees	748
#10	(("breathing muscle*" or "respiratory muscle*")):ti,ab,kw	1559
#11	MeSH descriptor: [Resistance Training] explode all trees	3131
#12	(training):ti,ab,kw	81673
#13	#9 OR #10	1982
#14	#11 OR #12	81673
#15	#13 AND #14	949
#16	#8 OR #15	4059
<b>Combined set</b>		
#17	#4 AND #16	60
	After duplicates removed	37

Embase 200224

Söktermer		Antal träffar
<b>Patients with multiple sclerosis or Parkinson's disease</b>		
1.	'multiple sclerosis'/exp OR 'multiple sclerosis':ti,ab,kw OR 'sclerosis multiple':ti,ab,kw	139,930
2.	'parkinson disease'/exp OR 'parkinsonism'/exp OR parkinsonism:ti,ab,kw OR 'parkinson*':ti,ab,kw OR 'parkinsonian':ti,ab,kw OR parkinson*s:ti,ab,kw	203,374
3.	1. OR 2.	336,512
<b>Expiratory muscle strength training</b>		
4.	'expiratory muscle strength training'/exp OR 'expiratory muscle strength training':ti,ab,kw OR emst:ti,ab,kw OR 'emst 150':ti,ab,kw OR 'emst150':ti,ab,kw OR 'expiratory muscle strength':ti,ab,kw OR 'expiratory muscle training':ti,ab,kw OR 'intermittent positive pressure ventilation'/exp OR 'resistive breathing':ti,ab,kw OR 'resistance breathing':ti,ab,kw OR 'positive expiratory pressure':ti,ab,kw OR (('positive pressure' NEAR/2 respiration):ti,ab,kw OR ('positive pressure' NEAR/2 ventilation):ti,ab,kw))	12,290
5.	('breathing muscle'/de OR 'breathing muscle*':ti,ab,kw OR 'respiratory muscle*'):ti,ab,kw AND ('resistance training'/de OR training):ti,ab,kw	1,934
6.	4. OR 5.	14,058
<b>Combined set limited to english</b>		
7.	3. AND 6.	123
	After duplicates removed	54

Cinahl 200224

Söktermer		Antal träffar
<b>Patients with multiple sclerosis or Parkinson's disease</b>		
1.	(MH "Multiple Sclerosis+") OR TI,AB (multiple N1 sclerosis)	20,832
2.	((MH "Parkinsonian Disorders") OR (MH "Parkinson Disease")) OR TI,AB ( parkinson* or parkinsonian or parkinsonism )	27,340
3.	1. OR 2.	47,475
<b>Expiratory muscle strength training</b>		
4.	TI,AB ("expiratory muscle strength training" OR emst OR "emst 150" OR emst150 OR "expiratory muscle strength" OR "expiratory muscle training") OR ((MH "Intermittent Positive Pressure Ventilation") OR (MH "Positive Pressure Ventilation")) OR TI,AB ("resistive breathing" OR "resistance breathing" OR "positive pressure respiration" OR "positive pressure ventilation") OR TI,AB ("positive pressure" N2 respiration) OR TI,AB ("positive pressure" N2 ventilation))	3,429
5.	(MH "Respiratory Muscles+") OR TI,AB ( "respiratory muscle*" OR "breathing muscle*" ) AND (MH "Resistance Training") OR TI,AB training	648
6.	4. OR 5.	3,983
<b>Combined set limited to english</b>		
7.	3. AND 6.	43
	After duplicates removed	11

Amed 200224

<b>Söktermer</b>		<b>Antal träffar</b>
<b>Patients with multiple sclerosis or Parkinson's disease</b>		
1.	TI,AB (multiple N1 sclerosis )	1,955
2.	TI,AB ( parkinson* or parkinsonian or parkisonism )	1,958
3.	1. OR 2.	3,841
<b>Expiratory muscle strength training</b>		
4.	TI,AB ("expiratory muscle strength training" OR emst OR "emst 150" OR emst150 OR "expiratory muscle strength" OR "expiratory muscle training") OR TI,AB ("resistive breathing" OR "resistance breathing" OR "positive pressure respiration" OR "positive pressure ventilation") OR TI,AB ("positive pressure" N2 respiration) OR TI,AB ("positive pressure" N2 ventilation))	170
5.	TI,AB ( "respiratory muscle*" OR "breathing muscle*" ) AND TI,AB (training)	123
6.	4. OR 5.	271
<b>Combined set limited to english</b>		
7.	3. AND 6.	13
	After duplicates removed	0

## Appendix 2 Exkluderade studier

Reference	Reason för exclusion
Darling-White M, Huber JE. The Impact of Expiratory Muscle Strength Training on Speech Breathing in Individuals With Parkinson's Disease: A Preliminary Study. <i>American journal of speech-language pathology</i> 2017; 26: 1159-66. doi: <a href="https://dx.doi.org/10.1044/2017_AJSLP-16-0132">https://dx.doi.org/10.1044/2017_AJSLP-16-0132</a>	Wrong study design (before-after)
Byeon H. Effect of simultaneous application of postural techniques and expiratory muscle strength training on the enhancement of the swallowing function of patients with dysphagia caused by parkinson's disease. <i>Journal of physical therapy science</i> 2016; 28: 1840-3. doi: <a href="https://dx.doi.org/10.1589/jpts.28.1840">https://dx.doi.org/10.1589/jpts.28.1840</a>	Wrong study design (no comparison)
Fry DK, Pfalzer LA, Chokshi AR, Wagner MT, Jackson ES. Randomized control trial of effects of a 10-week inspiratory muscle training program on measures of pulmonary function in persons with multiple sclerosis. <i>Journal of neurologic physical therapy : JNPT</i> 2007; 31: 162-72. doi: <a href="https://dx.doi.org/10.1097/NPT.0b013e31815ce136">https://dx.doi.org/10.1097/NPT.0b013e31815ce136</a>	Wrong intervention (inspiratory muscle training)
Mutluy FK, Demir R, Ozyilmaz S, Caglar AT, Altintas A, Gurses HN. Breathing-enhanced upper extremity exercises for patients with multiple sclerosis. <i>Clinical rehabilitation</i> 2007; 21: 595-602.	Wrong intervention (upper extremity exercises)
Chiara T, Martin D, Sapienza C. Expiratory muscle strength training: speech production outcomes in patients with multiple sclerosis. <i>Neurorehabilitation and neural repair</i> 2007; 21: 239-49.	Wrong study design (before-after)
Chiara T, Martin AD, Davenport PW, Bolser DC. Expiratory muscle strength training in persons with multiple sclerosis having mild to moderate disability: effect on maximal expiratory pressure, pulmonary function, and maximal voluntary cough. <i>Archives of physical medicine and rehabilitation</i> 2006; 87: 468-73.	Wrong study design (before-after)
Klefbeck B, Hamrah Nedjad J. Effect of inspiratory muscle training in patients with multiple sclerosis. <i>Archives of physical medicine and rehabilitation</i> 2003; 84: 994-9.	Wrong intervention (inspiratory muscle training)
Sapienza. Expiratory Muscle Training in Patients With Parkinson's Disease. <a href="https://clinicaltrials.gov/show/NCT00843739">https://clinicaltrials.gov/show/NCT00843739</a> 2009.	Wrong publication (protocol)
Silverman E, Miller S, Davenport PW, Musson N, Yeager J. Changes in quality of life and cough after expiratory muscle strength training (EMST) in individuals with multiple sclerosis (MS). <i>Dysphagia</i> 2014; 29: 755. doi:10.1007/s00455-014-9571-4	Wrong publication (abstract)
Troche MS. Respiratory Muscle Strength Training for the Management of Airway Protective Deficits. <i>Perspectives on Swallowing &amp; Swallowing Disorders (Dysphagia)</i> 2015; 24: 58-64. doi:10.1044/sasd24.2.58	Wrong publication (review)
Troche M, Okun M, Rosenbek J, Musson N, Sapienza C. Swallow outcomes following intervention with expiratory muscle strength training (EMST) in Parkinson's disease: Results of a randomized clinical trial. <i>Dysphagia</i> 2009; 24: 455-6.	Wrong publication (abstract)
Ray AD, Udhoji S, Mashtare TL, Fisher NM. A combined inspiratory and expiratory muscle training program improves respiratory muscle strength and fatigue in multiple sclerosis. <i>Archives of physical medicine and rehabilitation</i> 2013; 94: 1964-70. doi: <a href="https://dx.doi.org/10.1016/j.apmr.2013.05.005">https://dx.doi.org/10.1016/j.apmr.2013.05.005</a>	Wrong study design (no comparison)
Reyes A, Castillo A, Castillo J, Cornejo I. The effects of respiratory muscle training on peak cough flow in patients with Parkinson's disease: a randomized controlled study. <i>Clinical rehabilitation</i> 2018; 32: 1317-27. doi: <a href="https://dx.doi.org/10.1177/0269215518774832">https://dx.doi.org/10.1177/0269215518774832</a>	Double publication of data
Reyes A, Castillo A, Castillo J, Cornejo I, Cruickshank T. The Effects of Respiratory Muscle Training on Phonatory Measures in Individuals with Parkinson's Disease. <i>Journal of voice : official journal of the Voice Foundation</i> 2019. doi: <a href="https://dx.doi.org/10.1016/j.jvoice.2019.05.001">https://dx.doi.org/10.1016/j.jvoice.2019.05.001</a>	Double publication of data
Reyes A, Castillo A, Castillo J. Effects of Expiratory Muscle Training and Air Stacking on Peak Cough Flow in Individuals with Parkinson's Disease. <i>Lung</i> 2020; 198: 207-11. doi: <a href="https://dx.doi.org/10.1007/s00408-019-00291-8">https://dx.doi.org/10.1007/s00408-019-00291-8</a>	Double publication of data

**Appendix 3** Resource utilization, unit costs and information sources

Variable	Price (SEK)	Source
Speech therapy visit cost	1430	RÖL - Priser vid fakturering av utomlänsvård 2022
<b>EMST-150</b>	<b>Units per patient</b>	
Training device	1	Paid by patients and not reimbursed, USÖ clinic 06/05/2020
<b>A. Visits:</b>		
Initial assessment	1	
Introduction to method and training	1	
Assessment at completion of intensive training period	1	
Follow-up (6 months)	1	USÖ Neuro and rehab clinic 06/05/2020
Total number of visits	4	
<b>B. Telephone-based follow-up</b>		
Telephone call duration (min)	5	
Telephone call duration (hours)	0.3	
<b>LSVT</b>	<b>Units per patient</b>	
<b>C. Visits:</b>		
Initial assessment	1	
Treatment and training	16	
Follow-up and assessment visit	1	USÖ Neuro and rehab clinic 06/05/2020
Total number of visits	18	
<b>D. Telephone-based follow-up</b>		
Telephone call duration (min)	10	
Telephone call duration (hours)	0.17	
<b>LSVT treatment repetition</b>	<b>Units per patient</b>	USÖ Neuro and rehab clinic 02/06/2020
<b>E. Visits:</b>		
Initial assessment	0	Assumptions:
Treatment and training	16	1. Patients repeat treatment without an initial assessment visit
Individual visits	8	2. Repetition takes place within the year
Group visits	8	3. No telephone-based follow-up due to higher visit frequency
Total number of visits	16	4. 8 training/treatment groups visits (3 members per group)
<b>F. Telephone follow-up</b>		
	0	

Note: RÖL - Priser vid fakturering av utomlänsvård 2022 available from <https://www.sjukvardsregionmellan.se/prislista/> [accessed 2022-01-10]

