

ELSEVIER  
MASSONAvailable online at  
**ScienceDirect**  
[www.sciencedirect.com](http://www.sciencedirect.com)

Annals of Physical and Rehabilitation Medicine 57 (2014) 200–209

Elsevier Masson France  
**EM|consulte**  
[www.em-consulte.com](http://www.em-consulte.com)**A**NNALS  
OF PHYSICAL  
AND REHABILITATION MEDICINE

## Letter to publisher / Lettre à l'éditeur

**Atypical motor behavior in a poststroke subject with agenesis of the corpus callosum: A case report***Comportement moteur atypique dans un patient post-AVC avec agénésie du corps calleux : une étude de cas***Keywords:** Bimanual movements; Corpus callosum; Hemiparesis; Interhemispheric communication; Interlimb coordination; Stroke rehabilitation**Mots clés :** Mouvements bimanuels ; Corps calleux ; Hémiparésie ; Communication interhémisphérique ; Coordination inter-membres ; Réadaptation après AVC**1. English version***1.1. Introduction*

The corpus callosum connects both the cerebral hemispheres and plays a vital role during their independent processing. It integrates information between both the hemispheres and is responsible for interhemispheric communication [4,41,42]. Additionally, it coordinates the multiple areas of brain for successful motor performance [7,24]. The function of corpus callosum is significant during intensive bimanual coordination [26,28,32,34,37]. One hemisphere inhibits the other through corpus callosum during unimanual motor performance. The same callosum facilitates disinhibition between the hemispheres during bimanual activity [41].

Developmental absence or agenesis of the corpus callosum (ACC) is a neurodevelopmental congenital disorder commonly reported in females [2,14]. The absence may occur in isolation or with other conditions [39]. The development of corpus callosum fibers gets completed by the age of 6–8 years of life [9]. Hence, its role is also supported for handedness and laterality functions [34].

ACC exhibits delayed motor development, difficulty with balance, awkwardness during bimanual movement, large head size, low muscle tone, poor depth perception, reduced pain perception, sleeping difficulties, and either left or mixed handedness [26]. It is also evident that ACC may be associated with mental retardation, diverse neurological and psychiatric symptoms with or without hyperactive disorders [46]. Clients with ACC exhibited impairment in intelligence, cognitive-sensory-motor processing, attention, decision-making and executive functions [23,18,19,27,35,6].

The relation between stroke and ACC is unclear. Although impairment related to ACC is widely mentioned in the literature, the deficit in a poststroke patient with ACC is sparsely available [21,22]. The aim of the present case report was to focus atypical motor behavior in a poststroke subject having congenital ACC. The other objective was to examine the

effect of interlimb coordination based occupational therapy in poststroke subject with ACC.

*1.2. Case description*

A 28-year-old female, postgraduate student had an episode of stroke. She could not stand and walk and presented with severe weakness on the right side of body. Stroke was diagnosed by a neurologist, as an acute event of cerebrovascular origin causing focal or global neurological dysfunction lasting for more than 24 hours, and confirmed by computed tomography [11]. Computed tomography (CT) scan showed hypodensity in the left ganglionic capsular region and subcortical parietal region suggestive of ischemia along with absence of the corpus callosum (Fig. 1). The subject had undergone inpatient care and standard medical management.

Prestroke, she had been facing the acute and severe episodes of migraine headache (especially during academic examinations and any other stressful situations) for few years. Her prestroke MRI revealed agenesis of corpus callosum (Fig. 2a–c). She had been prescribed non-steroidal anti-inflammatory drugs for the headache. Her childhood history revealed obesity, large head size and delayed milestones. She started walking at the age of 2 years with an atypical gait pattern in form of mild scissoring and extra body weight on her toes of the feet. Her mother also informed about insignificant behavioral issues as forgetfulness, aggressiveness and irritability. The subject informed that her handwriting (dominant, right hand) quality and speed was poorer than the other classmates during the student life prior to the stroke. She had difficulty in bimanual tasks. Such tasks were either time consuming or being avoided due to poor quality of performance. However, the quality of bimanual asymmetrical tasks was better than the symmetrical tasks.

Poststroke, she had not taken any specific rehabilitation management and discontinued her studies. After many months she reported to the occupational therapy unit at study site. Her motor impairment was stabilized during the last few months.

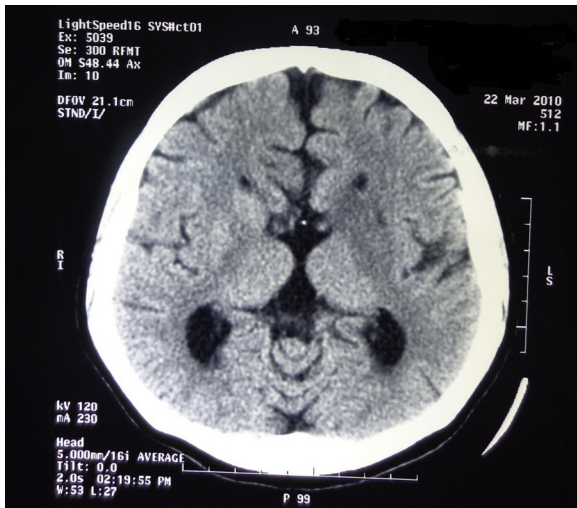


Fig. 1. CT scan showing hypodensity in the left ganglionic capsular region and subcortical parietal region along with absence of the corpus callosum.

Her chief complaints were in ability to hold a pen with the affected side and impairment in performing bimanual daily tasks such as folding cloths, kneading dough, plating hair and using keyboard. The subject scrambled few words when she was made to hold the pen by the affected hand. She was preparing for a professional entrance examination to become a school teacher. She was practicing with her less-affected hand (non-dominant, left side); however, with compromised speed and quality. The difficulty in performing bimanual and writing activities was the rationale for her reporting.

Clinically, it was observed that whenever the subject moved her affected arm in any direction, her left side (less-affected) also moved reflexively in an unusual pattern. Every time she made an effort by the affected hand similar hand movements appeared on her less-affected side. For instance, while pouring water from bottle to glass by the affected upper extremity, the less-affected upper extremity passed behind the body (shoulder adduction, extension and internal rotation; elbow flexion; wrist dorsiflexion and clawing of fingers with thumb in palm). Similarly, while picking up small objects such as beads by the paretic hand the less-affected arm passed behind the body; however, there was associated wrist flexion, and hyperextension and fanning of the fingers. During taking out pegs by the affected arm the less-affected hand moved very abruptly behind the body with associated clawing (less-affected fingers) and grasping, and spreading of the fingers (less-affected) and releasing (Video). The amount and severity of movement and contraction on the less-affected side was dependent on the efforts made on the affected side. Further, when the subject was instructed not to move the less-affected side, her movement quality deteriorated on the affected side. On resisting the movement on less-affected side passively by the therapist or against the subject's body, there was strong contraction of the entire limb and observable wriggling movement of the fingers on the same side. She also exhibited half open and twisted jaw towards the affected side during her motor efforts. All the atypical motor presentations on the left side (less-affected)

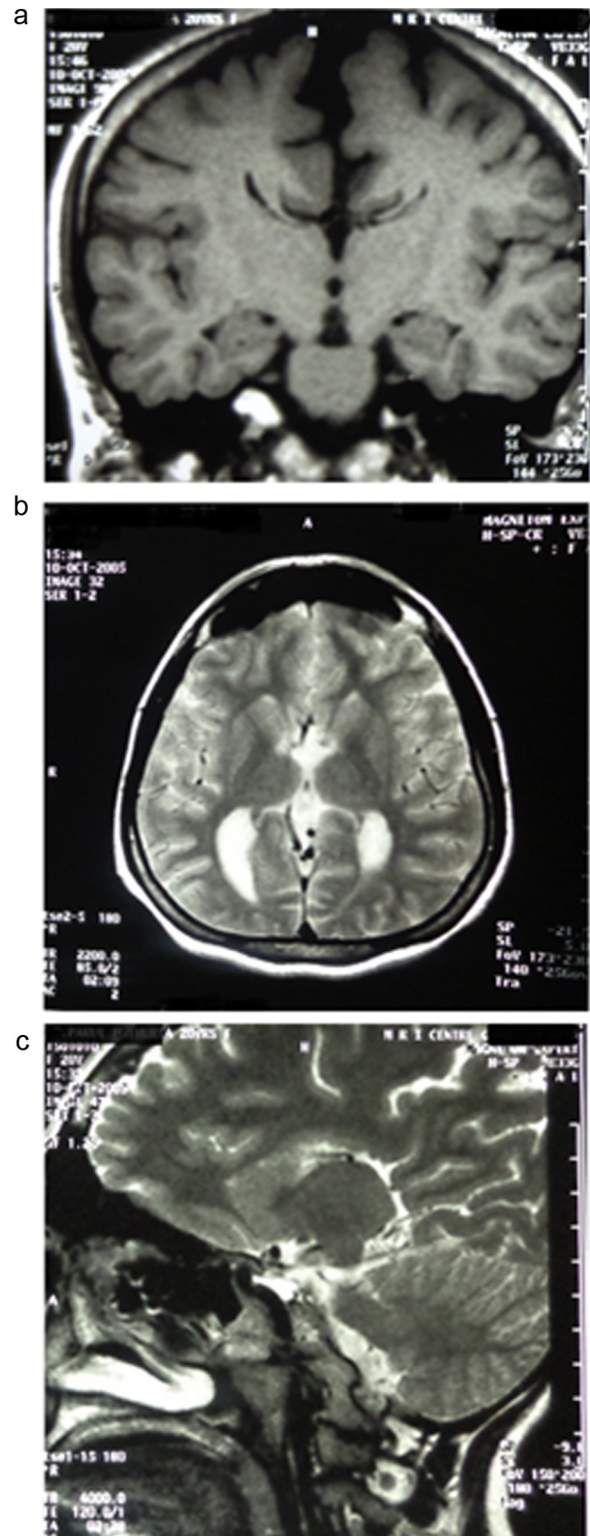


Fig. 2. a–c: prestroke MRI revealing agenesis of the corpus callosum: a: T1 coronal; b: T2 axial; and c: T2 sagittal.

were not present prior to the stroke. The presentations were obvious as the voluntary motor control improved on the affected side. Further, associated movements were also exhibited on the affected side (right) when the resistive movements were provided on the less-affected side (left). For

instance, involuntary mass flexion response of the affected hand was observed during both resistive grasping and releasing of the less-affected hand.

### 1.3. Assessment and intervention

The motor recovery on the paretic side was assessed using Brunnstrom Recovery Stages (BRS) for arm and hand, and Fugl-Meyer Assessment (FMA): upper extremity and lower extremity. Minnesota Manual Dexterity Test (MMDT) and Purdue PegBoard Test (PPBT) were applied to assess dexterity and hand coordination. Only placing and one-hand prehension subtests were used for MMDT (both the sides) and PPBT (left side) as the other subtests were not possible by the subject. All the measures were reliable and valid within the acceptable range and commonly used in stroke rehabilitation studies [16,17,29,31,47,45].

Initially, her motor examination exhibited BRS stage for upper arm (BRS-A), 4 to 5; hand (BRS-H), 3 and lower limb (BRS-LL), 4. Her detailed motor examination as measured by FMA is given in Table 1. The total FMA upper extremity score was 26 including hand score of 9. Her muscle tone ranged from 0 to 1 as assessed by Modified Ashworth scale. Clinically, her voluntary motor control for the grosser movements was fair to good while the control was poor for the fine movements. Her all hand functions were found to be poor.

Standard manual muscle testing (MMT) procedure was not possible for the affected side. MMT for the less-affected upper extremity demonstrated grades of 3+ in most of the shoulder and wrist muscles. All other muscles showed strength of grade 4. Her visual, auditory, perceptual, and somatosensory functions were found to be intact.

An occupational therapy program was formulated to manage the poststroke impairment and to enhance interlimb coordination between the upper limbs of the subject. The intervention protocol comprised unilateral and bilateral tasks. The activities such as lifting and reaching of pegs in different directions, palm up-down and wrist flexion extension using block, clay modelling, and picking up objects of various size and shape

were given in form of unilateral movements. Bimanual activities consisted of folding cloth/newspaper, pouring water, opening and closing jar, chopping vegetables, kneading dough, washing clothes, and arranging wardrobe/refrigerator. The unilateral activities were based on Brunnstrom movement therapy while the bimanual therapy was based on motor relearning program [8,36] Twenty-four therapy sessions, 1 hour each were provided for 2 months. Each activity was performed for 10 to 20 repetitions. Initially, emphasis was given on the unilateral activities. Once the subject achieved functional release of the hand, the bimanual tasks were gradually incorporated along with the unilateral activities.

Post-intervention, the changes were observed in FMA scores. The total FMA score reached to 43 from 36, upper arm FMA to 31 from 27 and wrist-hand FMA to 12 from 9. The detail scores are shown in Table 1. Both supination and pronation components of flexor and extensor synergy respectively improved from score 1 to 2. Both the shoulder flexion and abduction control recovered from score 1 to 2. Similarly, the wrist flexion-extension improved at various ranges of the shoulder and elbow. Among hand function, only finger mass extension exhibited positive change of score 1.

However, no change was observed for the atypical motor behavior on the less-affected side. Further, no improvement was also observed for muscle tone on the affected side and muscle strength on the less-affected side.

### 1.4. Discussion

Corpus callosum is the only structure responsible for interhemispheric connectivity and bimanual coordination. It carries the information related to functional difference between the bilateral cortical areas. Role of corpus callosum becomes significant during asynchronous bimanual movements. Further, it inhibits the opposite hemisphere during unilateral activities [15]. The interhemispheric inhibition transforms to disinhibition with repetitive performance of a bimanual task using the callosum. Hence, disinhibition of movements would be difficult for subject with ACC [33,25]. Contrary, facilitatory motor

Table 1  
Pre- and post-scores of the outcome measure.

Outcome measure/items (maximum score)	Item description	Pre-score	Post-score
BRS-A	–	4	5
BRS-H	–	3	4
FMA–SSUA (36)	Sub-score upper arm (sum of FMA-I to FMA-VI)	27	31
FMA–SSWH (30)	Sub-score wrist and hand (sum of FMA-VII to FMA-IX)	9	12
FMA–TUES (66)	Total upper extremity score	36	43
PPBT			
Left side	–	12	13
MMDT			
Right side	–	Test could not be completed	630 s
Left side	–	75.33 s	70.66 s

BRS-A: Brunnstrom recovery stage of arm; BRS-H: Brunnstrom recovery stage of hand; FMA: Fugl-Meyer Assessment; SSUA: subscore upper arm; SSWH: subscore wrist and hand; TUES: total upper extremity score; MMDT: Minnesota Manual Dexterity Test; PPBT: Purdue Peg Board test.



responses are found to be same both in ACC and intact callosal subjects indicating spinal contribution [25]. Interhemispheric inhibition facilitates complex unilateral movements and may augment recovery in a neurological insult [3]. Although the interhemispheric synchronization is same for unimanual and bimanual tasks, it varies with the complexity of movements [10]. The impairment related to ACC is well evident; however, the association between stroke and ACC is uncertain [21,22]. The mechanism of the ischemic cerebral lesion was not clearly demonstrated; nevertheless, migraine is a risk factor for ischemia [12,13].

It is evident that subjects with ACC have great difficulty in performing complex and fast unilateral and bilateral movements. They have impairment in learning new bimanual skills [3,20]. This could be the reason for the difficulty in performing various bimanual activities prestroke by the subjects of present study and the same became further challenging after the stroke. She was not able to perform significant number of daily tasks in spite of fair to good arm and hand control. The presentation validates the integrity of corpus callosum for bimanual skills and interhemispheric connectivity for hand functions [44]. In the present study, unlike typical stroke, the subject showed 2 unusual motor behaviors in form of associated movements. Firstly, the movements were observed on the less-affected side during performance of the affected upper limb. Secondly, the associated movements appeared on the affected side even at the higher level of motor recovery. Clinically, it was noticed that these atypical movements led to exertion, bimanual/unimanual incoordination and asymmetry during task performance. Despite favorable motor recovery on the paretic side, the subject faced difficulties in all complex motor tasks. She was not independent in various self-care and household chores. For instance, performance of paper-folding, kneading and keyboard were poor. The present subject had intact visuo-perceptual and somatosensory functions; however, mild perceptual deficit in form of left hand apraxia has been reported in a recent case study [5]. Post-intervention, it was observed that patient showed improvement in unimanual performance especially finer movements. However, bimanual performances were not satisfactory in spite of adequate motor recovery on the affected side. It was also examined that symmetrical bimanual activities were poorly performed than the asymmetrical tasks. For instance, the flour kneading was poorer than opening a bottle cap. She was not able to manage the keyboard with either of the side. Use of the mouse with the affected hand showed similar atypical motor behavior on the less-affected side as described earlier. The stroke related impairment in a subject with ACC is unclear. In a case study, ipsilateral paresis with spontaneous nystagmus after a cerebaral lesion has been reported [22]. Hence, neurological impairments such as stroke in an individual with ACC further complicate the interhemispheric inhibition and exhibits variable motor deficits [45]. Additionally, the corpus callosum has been found to influence cortical reorganization and associated motor outcome after stroke [43]. Hence, the rehabilitation management for stroke subject with ACC is a challenge.

Poststroke hemiparesis subject presents with the motor behavior in form of associated or reflex reactions. Voluntary and forceful movements on the less-affected side produce uncontrolled or associated movements on the affected side. Such motor responses diminish as the voluntary motor control appears [36]. Contrary, the associated motor response has been observed on the less-affected side during voluntary movement of the affected side in the present case study. The subject did not show any other involuntary movements, which could be attributed to the alternate neural pathways [38]. Further, the neural fibres responsible for upper limb movements might not have developed inhibitory functional linkage with the controlateral motor cortex. It is assumed that the alternate pathways for the inhibition may develop after intense bimanual practice. Ipsilateral brain via lateral and ventral tracts indirectly has a role in bimanual movements. The fibers synchronize neuronal firing and processing [40,1]. This was rationale for formulating the intervention protocol comprised of unilateral and bimanual activities. In the present study, interlimb coordination based occupational therapy was provided to enhance bimanual performance of the subject. However, in spite of improved unimanual performance on both the sides, no change was observed for the atypical movements on the less-affected side as well as for the bimanual activity. Further, the speed and quality of her handwriting did not progress up to the need. Apart from the neuropathology, the poor recovery could be attributed to long delay in taking rehabilitation management by the subject.

In a most recent study, it was concluded that mirror therapy could enhance motor performance rather than using interhemispheric interaction via corpus callosum [30]. It is recommended that the role of mirror therapy may also be explored for the poststroke subject with ACC.

### 1.5. Conclusion

Atypical motor behavior was found to be present in a poststroke subject with ACC. The involuntary movements appeared on the less-affected side during performance of the affected upper limb. Such presentation is unusual in clinical practice. The management of poststroke subject with ACC is an additional challenge. Intervention for the atypical movements needs to be explored. Interlimb coordination based occupational therapy may improve motor recovery on the affected side.

### Disclosure of interest

The authors declare that they have no conflicts of interest concerning this article.

### Acknowledgement

We would like to acknowledge Dr. Rakesh Lalla, Senior Resident, Department of Neurology, King George Medical University, Lucknow, India, for interpretation of the neuroimages.

## 2. Version française

### 2.1. Introduction

Le corps calleux relie les deux hémisphères cérébraux et joue un rôle vital dans le fonctionnement de leurs systèmes de traitement indépendants. Il intègre des informations entre les deux hémisphères et assure la communication interhémisphérique [4,41,42]. En outre, il coordonne les différentes zones du cerveau, ce qui permet d'améliorer les performances motrices [7,24].

Le fonctionnement du corps calleux contribue tout particulièrement à la coordination bimanuelle intensive [26,28,32,34,37]. Pendant une performance unimanuelle, c'est à travers le corps calleux que l'un des hémisphères inhibe l'autre ; pendant des activités bimanuelles, le même corps calleux facilite la désinhibition entre les deux hémisphères [41].

L'absence développementale ou l'agénésie du corps calleux (ACC) est un trouble de neurodéveloppement congénital fréquemment rapporté dans des personnes de sexe féminin [2,14]. Cette absence peut avoir lieu isolément ou accompagnée d'autres pathologies [39]. Le développement des fibres du corps calleux touche à sa fin pendant les 6 à 8 premières années de la vie [9]. Son rôle dans la fixation de la manualité et de la latéralité est reconnu [34].

L'ACC est caractérisée par des retards dans le développement moteur, des difficultés d'équilibre, de la maladresse dans les mouvements bimanuels, une tête de grande taille, l'hypotonie, une mauvaise perception de la profondeur, des perturbations du sommeil et le fait d'être soit gauchère, soit ambidextre [26]. Il est également évident que l'ACC peut aller de pair avec un retard mental, ainsi que différents symptômes neurologiques ou psychologiques avec ou sans désordres hyperactifs [46]. Certaines patientes ont présenté des déficiences en matière d'intelligence, de traitement cognitif et sensorimoteur, de facultés attentionnelles, de prise de décision et des fonctions exécutives [23,18,19,27,35,6].

L'association entre AVC et ACC manque de clarté. Bien que les déficiences associées à l'ACC fassent l'objet de multiples citations dans la littérature, il n'existe que peu d'études ayant trait aux déficits répertoriés dans des patients post-AVC avec ACC [21,22]. Le premier objectif de l'étude de cas présente consiste à repérer un comportement moteur atypique dans une patiente post-AVC congénitalement atteinte de l'ACC. Le deuxième objectif est d'examiner les effets de l'ergothérapie centrée sur la coordination des membres dans le sujet post-AVC avec ACC.

### 2.2. Description du cas

Une femme de 28 ans poursuivant des études de troisième cycle a eu un premier accident vasculaire cérébral (AVC). Elle ne pouvait ni se tenir debout ni marcher et le côté droit de son corps était gravement affaibli. L'AVC était diagnostiqué par un neurologue comme un événement aigu d'origine cérébrovasculaire occasionnant un dysfonctionnement neurologique focal

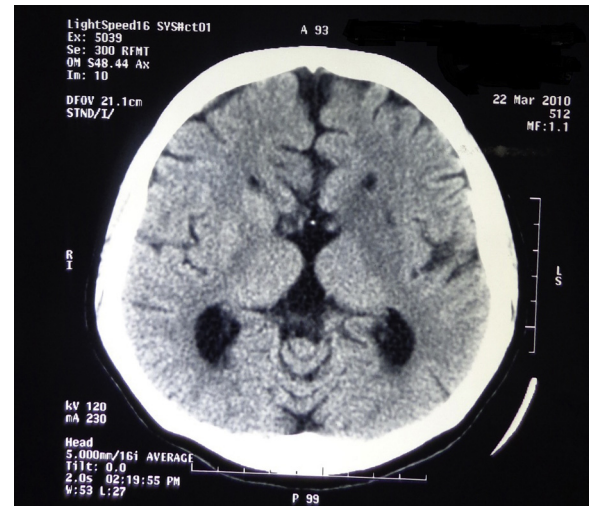


Fig. 1. Tomodensitométrie montrant l'hypodensité dans la capsule ganglionnaire gauche et la région sous-corticale pariétale ainsi que l'absence du corps calleux.

ou global d'une durée supérieure à 24 heures et dont la survenue fut confirmée par la tomographie [11]. En effet, une tomodensitométrie fit apparaître une forme d'hypodensité à proximité de la capsule ganglionnaire gauche et de la région sous-corticale pariétale évoquant une ischémie, ainsi que l'absence du corps calleux (Fig. 1). Le sujet avait déjà bénéficié de soins en régime hospitalier et de suivi médical normal.

Avant l'attaque cérébrale, la patiente avait déjà eu à faire face, depuis plusieurs années et surtout pendant des examens scolaires et d'autres situations stressantes, à des épisodes aigus et sévères de migraine. Une IRM réalisé avant l'AVC avait révélé l'agénésie du corps calleux (Fig. 2a–c). Pour soulager ses maux de tête, on lui avait prescrit des anti-inflammatoires sans corticostéroïdes. Son enfance avait été marquée par l'obésité, la grande taille de la tête et un retard de certaines étapes de son développement. Par exemple, lorsqu'elle a commencé à marcher, à l'âge de 2 ans, le déroulement du mouvement était atypique, caractérisé par le cisaillement des jambes et le déplacement sur ses orteils du surplus de poids. Sa mère nous a également parlé de problèmes comportementaux mineurs dont des tendances à l'oubli, l'agressivité et l'irritabilité. La patiente nous a dit que dans sa vie estudiantine antérieure à l'AVC, la qualité et la vitesse de son écriture manuscrite (dominance de la main droite) étaient inférieures à celles de ses condisciples. Les tâches bimanuelles lui posaient des difficultés ; soit elles étaient chronophages, soit la patiente les évitait à cause de ses performances insatisfaisantes. Cela dit, elle réussissait mieux les tâches bimanuelles asymétriques que les tâches symétriques.

Subséquentement à l'attaque cérébrale, elle n'avait pas suivi de programme spécifique de réadaptation ; en même temps, elle a mis ses études entre parenthèses. Après plusieurs mois, elle s'est présentée à notre unité d'ergothérapie. Ses déficiences motrices se sont stabilisées assez rapidement. Elle se plaignait principalement des difficultés qu'elle éprouvait à tenir un stylo à partir du côté lésé et à exécuter des tâches bimanuelles

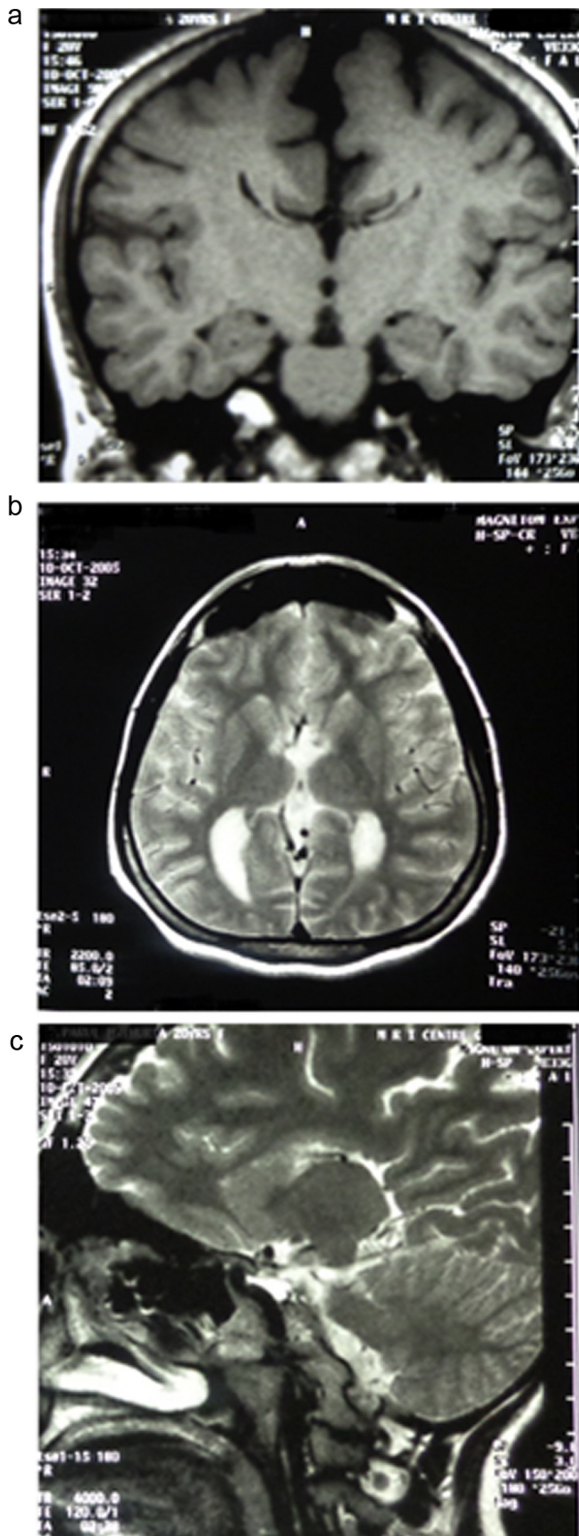


Fig. 2. a–c : IRM pré-AVC révélant l'agénésie du corps calleux : a : T1 coronal ; b : T2 axial ; et c : T2 sagittal.

quotidiennes dont plier du linge, pétrir la pâte, tresser ses cheveux et utiliser le clavier. Lorsqu'elle était obligée de tenir le stylo avec la main handicapée, il lui arrivait de mélanger ses mots. Elle était en train de préparer un examen d'entrée professionnel en vue de devenir maîtresse d'école. Dans cette

optique, elle se servait de sa main relativement peu atteinte (non-dominance du côté gauche) mais aux dépens de la vitesse et de la qualité de son écriture manuscrite. Lorsqu'elle s'est présentée à l'unité, de telles difficultés (dans des activités bimanuelles et en écrivant) en étaient les raisons.

Cliniquement parlant, nous avons observé que dès que la patiente faisait bouger son bras handicapé, peu importe dans quel sens, la partie gauche de son corps (non lésée) bougeait également, de manière réflexive, dans une séquence inhabituelle. Chaque fois qu'elle faisait des efforts en se servant de la main lésée, des mouvements similaires de sa main gauche intervenaient. Par exemple, lorsqu'elle versait de l'eau d'une bouteille dans un verre à l'aide du membre supérieur diminué, l'autre membre supérieur est passé derrière son corps : adduction de l'épaule, extension et rotation interne ; flexion du coude ; dorsiflexion du poignet et contracture des doigts, le pouce immobilisé contre la paume. De manière similaire, lorsque la patiente a récupéré de petits objets dont des perles en se servant de sa main parétique, l'autre bras est passé de nouveau derrière son corps, geste accompagné de la flexion du poignet ainsi que l'hyperextension et la « ventilation » des doigts. Ou encore, lorsque des petites chevilles (pegs) ont été enlevées avec la main droite, la main gauche s'est abruptement déplacée derrière son corps ; les doigts non lésés se sont contractés de nouveau : il y a également eu des mouvements d'empoignade, d'écartement des doigts et de relâchement (Vidéo). La quantité et la sévérité des gestes et surtout des contractions émanant du côté non lésé dépendaient des efforts prodigués du côté lésé. En outre, dès qu'on demandait au sujet d'éviter de faire bouger le côté non parétique, la qualité des mouvements issus du côté parétique en était amoindrie. Plus précisément, lorsque le mouvement du côté non parétique était contrecarré soit passivement par le thérapeute, soit activement par le corps du sujet, il y avait une forte contraction du membre dans son entièreté et, toujours du même côté, une sorte de tortillement, de gigotement observable des doigts. En plus, lors de ses efforts moteurs sa mâchoire à moitié ouverte et tordue était penchée vers le côté parétique.

Les différents mouvements atypiques du côté non parétique n'avaient pas été présents avant l'AVC ; ils se mettaient en évidence alors que du côté parétique, on constatait une amélioration du contrôle volontaire de la motricité. Qui plus est, des mouvements associés émanaient du côté droit (lésé) pendant que des mouvements résistifs émanaient du côté gauche (non lésé). Par exemple, la réponse involontaire consistant en un mouvement de repliement de la main droite (parétique) était observée lors de l'empoignement résistif et du relâchement de la main gauche (non parétique).

### 2.3. Évaluation et intervention

La récupération de la motricité du côté parétique était évaluée en appliquant les Brunnstrom Recovery Stages (BRS) pour le bras et la main et utilisant le Fugl-Meyer Assessment (FMA) pour les extrémités supérieures et les extrémités inférieures. L'évaluation de la dextérité et de la coordination des mains s'effectuait en appliquant le Minnesota Manual



Tableau 1  
Scores pré et post selon mesure de résultats.

Outcome measure/items (maximum score)	Item description	Pre-score	Post-score
BRS-A	–	4	5
BRS-H	–	3	4
FMA–SSUA (36)	Sub-score upper arm (sum of FMA-I to FMA-VI)	27	31
FMA–SSWH (30)	Sub-score wrist and hand (sum of FMA-VII to FMA-IX)	9	12
FMA–TUES (66)	Total upper extremity score	36	43
PPBT			
Left side	–	12	13
MMDT			
Right side	–	Test could not be completed	630 s
Left side	–	75.33 s	70.66 s

BRS-A : stade de récupération Brunnstrom du bras ; BRS-H : stade de récupération Brunnstrom de la main ; FMA : évaluation Fugel-Meyer ; SSUA : sous-score avant-bras ; SSWH : sous-score poignet et main ; TUES : score total membres supérieurs ; MMDT : test de dextérité manuelle du Minnesota ; PPBT : test de dextérité « Purdue Pegboard ».

En haut et de gauche à droite : mesures de résultats/partie du corps (score maximum) ; description partie du corps ; score pré, score post. De gauche à droite : FMA-SSUA (36) : sous-score avant-bras (somme de FMA-I à FMA-VI) ; FMA-SSWH (30) : sous-score poignet et bras (somme de FMA-VII à FMA-IX) ; FMA-TUES (66) : score total membre supérieur ; PPBT : côté gauche ; côté droit : test ne pouvait être complété ; MMDT...

Dexterity Test (MMDT) et le Purdue PegBoard Test (PPBT). En ce qui concerne le MMDT (les deux côtés) et le PPBT (côté gauche), seuls les sous-tests de placement et de préhension unimanuelle étaient réalisés, les autres sous-tests n'étant pas envisageables dans ce cas précis. Toutes les mesures étaient à la fois fiables et valides dans l'intervalle acceptable, et régulièrement utilisées dans les études de réadaptation post-AVC [16,17,29,31,47,45].

Dans un premier temps, l'évaluation de motricité BRS donnait les résultats suivants : l'avant-bras (BRS-A), stades de récupération 4 à 5 ; la main (BRS-H), 3 ; le membre inférieur (BRS-LL), 4. L'évaluation motrice détaillée en termes des mesures du FMA apparaît dans le [Tableau 1](#). Le score FMA global pour le membre supérieur s'élevait à 26, dont un score de 9 pour la main prise séparément. Selon l'échelle d'Ashworth modifiée, le tonus musculaire s'échelonnait de 0 à 1. En termes cliniques, la coordination motrice volontaire des mouvements grossiers était passable ou bien, alors que la coordination des mouvements fins était insuffisante. Toutes ses fonctions manuelles étaient également insuffisantes.

La procédure usuelle d'évaluation musculaire manuelle (MMT) ne pouvait pas être appliquée du côté lésé. Quant à l'extrémité supérieure non lésée, la plupart des muscles de l'épaule et du poignet atteignaient la note de 3+ (sur 5), alors que la force sur tous les autres muscles s'élevait à 4. Ses fonctions visuelles, auditives, perceptuelles et somatosensorielles étaient restées intactes.

Un programme d'ergothérapie était mis au point en vue de traiter les déficiences consécutives à l'AVC et d'améliorer la coordination des membres supérieurs. Le protocole d'intervention comportait des tests aussi bien unilatéraux que bilatéraux. Des activités avec mouvements unilatéraux étaient : lever et projeter des broches (pegs) dans des endroits différents ; poser la paume vers le bas/vers le haut et assurer la flexion/extension du poignet en utilisant de l'argile à modeler ; ramasser des objets de taille et de forme variées. Des activités avec mouvements bilatéraux étaient : plier un morceau de tissu

ou de papier journal ; verser de l'eau ; ouvrir et fermer un bocal ; hacher des légumes ; pétrir de la pâte ; laver des vêtements ; ranger le contenu d'une garde-robe et d'un réfrigérateur. Les activités unilatérales s'inspiraient de la thérapie par le mouvement de Brunnstrom ; la thérapie bimanuelle reposait sur un programme de réapprentissage moteur [8,36]. Vingt-quatre séances de thérapie d'une heure étaient proposées pendant deux mois. Chaque activité était répétée de 10 à 20 fois. Au début, nous mettions l'accent sur les activités unilatérales. Une fois que le sujet était parvenu à la libération fonctionnelle de la main sous traitement, les tâches bimanuelles étaient graduellement intégrées au programme.

Suite à l'intervention, on observait une évolution de tous les scores du Fugl-Meyer Assessment (FMA) : score global de 36 (avant) à 43 (après), score avant-bras de 31 à 27, score poignet-main de 9 à 12 (voir le [Tableau 1](#) pour les éléments détaillés). Tant en supination qu'en pronation, la synergie des extenseurs et des fléchisseurs progressait de 1 à 2, ce qui était également le cas en termes de maîtrise de la flexion et de l'abduction de l'épaule. De manière similaire, la flexion-extension du poignet s'améliorait dans différentes zones de l'épaule et du coude. Quant au fonctionnement de la main, en revanche, seule l'extension des doigts donnait lieu à une évolution positive du score.

Quant au côté non lésé, le comportement moteur atypique n'était pas modifié. En outre, aucune amélioration du tonus du côté parétique ou de la force musculaire du côté non parétique n'était enregistrée.

#### 2.4. Discussion

Le corps calleux est l'unique structure responsable de la connectivité interhémisphérique et de la coordination bimanuelle. Entre les zones corticales bilatérales, il porte des informations ayant trait à la différence fonctionnelle. Pendant des mouvements bimanuels asynchrones, son rôle devient assez important. Et pendant des activités unilatérales, il inhibe

l'hémisphère opposé [15]. Cela étant, lors de la performance d'une tâche bimanuelle à laquelle contribue le corps calleux, cette inhibition interhémisphérique se transforme en désinhibition, ce qui explique pourquoi, dans les sujets sans ACC, la désinhibition est difficile à réaliser [33,25]. En revanche, dans certaines études les réponses motrices facilitatrices des sujets sans corps calleux et des sujets avec corps calleux se sont avérées similaires, ce qui suggère que la facilitation a lieu au niveau non pas cortical, mais spinal [25]. L'inhibition interhémisphérique facilite des mouvements unilatéraux complexes ; elle est également susceptible de contribuer à la récupération d'une atteinte neurologique [3]. Bien que la synchronisation interhémisphérique des tâches unimanuelles et des tâches bimanuelles opère de la même manière, cette synchronisation varie en fonction de la complexité des mouvements [10]. Les déficiences liées à l'ACC sont évidentes ; toutefois, l'association de cette dernière à l'AVC est loin d'avoir été établie [21,22]. Plus précisément, le mécanisme de la lésion cérébrale ischémique n'a pas fait l'objet d'une démonstration concluante ; ce qu'on sait, par contre, c'est que la migraine favorise la survenue de l'ischémie [12,13].

Il est d'ores et déjà évident que les sujets ACC éprouvent de grandes difficultés dans la performance de mouvements unilatéraux et bilatéraux complexes et rapides ; ils ne sont pas non plus totalement en mesure d'apprendre de nouvelles compétences bimanuelles [3,20]. L'ACC pourrait donc expliquer pourquoi, bien avant l'accident vasculaire, notre patiente était si peu à l'aise dans la poursuite de certaines activités bimanuelles, activités qui sont devenues encore plus difficiles subséquemment à l'accident. Car malgré sa maîtrise passable ou bonne du bras et de la main, elle n'était pas capable d'exécuter un grand nombre de tâches quotidiennes. Son histoire sert à confirmer la vitale importance du corps calleux dans les tâches bimanuelles et de la connectivité interhémisphérique dans le fonctionnement de la main [44]. À la différence d'un AVC typique, dans notre étude le sujet a fait montre de deux comportements moteurs inhabituels sous la forme de mouvements associés les uns aux autres. Premièrement, ces mouvements ont été observés du côté non parétique pendant les performances du membre supérieur parétique. Deuxièmement, même au niveau le plus élevé de rétablissement de la faculté motrice, de tels mouvements sont apparus du côté lésé. Sur le plan clinique, on a remarqué que ces mouvements atypiques conduisaient à de grands efforts, à l'incoordination bimanuelle/unimanuelle et à l'asymétrie pendant l'exécution des tâches. Car malgré un rétablissement satisfaisant du côté parétique, la patiente avait du mal à mener à bien n'importe quelle tâche motrice complexe. Dans ses activités autothérapeutiques et dans des corvées ménagères dont le pliage de papier, le pétrissage de pâte ou encore l'utilisation du clavier, elle n'était pas autonome ; ses performances se sont avérées insatisfaisantes. Elle n'en avait pas moins conservé intégralement ses fonctions visuo-perceptuelles et somatosensorielles, alors que dans une récente étude de cas, un petit déficit perceptuel sous forme d'apraxie de la main gauche a été rapporté [5]. En ce qui concerne notre patiente, suite à l'ergothérapie on a constaté une amélioration de ses

performances unimanuelles et plus particulièrement en matière de motricité fine. Et pourtant, en dépit d'une bonne récupération motrice du côté lésé, ses performances bimanuelles sont restées insuffisantes, et les activités symétriques donnaient des résultats plus décevants que les activités asymétriques. Par exemple, le pétrissage de pâte lui posait davantage de problèmes que l'enlèvement d'un bouchon de bouteille. Et tant du côté gauche du côté droit, elle n'était pas en mesure de manipuler le clavier. On a déjà vu que l'utilisation d'une souris d'ordinateur avec la main lésée semblait déclencher un comportement moteur similairement atypique du côté non lésé.

Pour résumer, l'incidence de déficiences post-AVC dans un sujet avec ACC prête à discussion. Dans une autre étude de cas, une parésie ipsilatérale avec du nystagmus spontané suite à une lésion cérébrale a été rapportée [22]. On peut en conclure que dans une personne avec ACC, des déficiences neurologiques post-AVC sont susceptibles de compliquer encore davantage l'inhibition interhémisphérique tout en entraînant des déficits moteurs variables [45]. Qui plus est, dans une étude radiologique les auteurs ont fait remarquer que suite à un AVC, le corps calleux peut influencer la réorganisation corticale et les résultats moteurs associés [43]. De toute manière, la mise au point d'un programme de réadaptation adressé au sujet AVC avec ACC pose un véritable défi.

Le sujet avec hémiparésie post-AVC présente un comportement moteur sous la forme de réactions associées ou automatiques. Des mouvements volontaires et percutants du côté moins lésé produisent des mouvements incontrôlés ou associés du côté lésé. Or de telles réponses motrices diminuent au fur et à mesure que le contrôle volontaire de la motricité apparaît [36]. Par contre, dans notre étude la réponse motrice associée a été observée du côté moins lésé pendant les mouvements volontaires du côté plus lésé. Par ailleurs, le sujet n'a pas effectué d'autres mouvements involontaires qui pourraient être attribués à des voies neuronales parallèles [38]. D'autre part, les fibres neurales responsables des mouvements des membres supérieurs n'avaient pas forcément développé une connexion fonctionnelle inhibitrice au cortex moteur controlatéral. On suppose que les voies inhibitrices alternatives peuvent se développer grâce à un entraînement bimanuel intense. En passant par des voies latérales et ventrales, le cerveau ipsilatéral contribuerait indirectement aux mouvements bimanuels. Les fibres synchronisent la décharge et le traitement neuronal [40,1]. C'est pour cette raison que le protocole d'intervention a comporté des activités aussi bien unilatérales que bilatérales. Dans notre étude, l'ergothérapie centrée sur la coordination des membres visait à améliorer les performances bimanuelles du sujet. Malheureusement, nonobstant ses performances unimanuelles améliorées des deux côtés, aucun changement positif n'était observé dans les mouvements atypiques du côté non parétique et dans les activités bimanuelles. En outre, la vitesse et la qualité de l'écriture manuscrite de la patiente n'ont pas progressé au point de répondre à ses besoins. Compte non tenu de la neuropathologie, la mauvaise récupération est peut-être due au fait que le sujet a tardé à s'engager dans un programme de réadaptation.



Dans une étude très récente, d'autres auteurs sont arrivés à la conclusion qu'en lieu et place d'interaction interhémisphérique via le corps calleux, la thérapie par le miroir pourrait apporter une amélioration des performances motrices. Il serait souhaitable que cette thérapie soit explorée dans le cadre du traitement du sujet post-AVC avec ACC.

## 2.5. Conclusion

Un comportement moteur atypique a été constaté dans une patiente post-AVC avec ACC. Des mouvements involontaires sont apparus du côté moins lésé pendant les performances du membre supérieur lésé. Dans la pratique clinique, une telle présentation est inhabituelle. L'organisation de la réadaptation du sujet post-AVC avec ACC constitue un défi additionnel. Il faudrait explorer les modes d'intervention portant sur les mouvements atypiques. L'ergothérapie centrée sur la coordination des membres pourrait contribuer au succès du rétablissement moteur du côté lésé.

## Déclaration d'intérêts

Les auteurs déclarent ne pas avoir de conflits d'intérêts en relation avec cet article.

## Remerciement

Nous tenons à remercier le Dr. Rakesh Lalla, Senior Resident, Department of Neurology, King George Medical University, Lucknow, Inde, pour son interprétation de la neuro-imagerie.

## Appendix A. Supplementary data

Supplementary data associated with this article can be found, in the online version, at <http://dx.doi.org/10.1016/j.rehab.2014.02.003>.

## References

- [1] Aboitiz F, Montiel J. One hundred million years of interhemispheric communication: the history of the corpus callosum. *Braz J Med Biol Res* 2003;36:409–20.
- [2] Bayram E, Topcu Y, Akinci G, Hiz S, Cakmakci H. Aicardi syndrome in two Turkish children. *Ann Saudi Med* 2013;33:73–5.
- [3] Beaulieu V, Tremblay S, Theoret H. Interhemispheric control of unilateral movement. *Neural Plast* 2012;2012:627816.
- [4] Bertucchi G, Aglioti S, Marzi CA, Tassinari G. Corpus callosum and simple visuomotor integration. *Neuropsychologia* 1995;33:923–36.
- [5] Brescian NE, Curiel RE, Gass CS. Case study: a patient with agenesis of the corpus callosum with minimal associated neuropsychological impairment. *Neurocase* 2013. <http://dx.doi.org/10.1080/13554794.2013.826690>.
- [6] Brown WS, Anderson LB, Symington MF, Paul LK. Decision-making in individuals with agenesis of the corpus callosum: expectancy-valence in the Iowa Gambling Task. *Arch Clin Neuropsychol* 2012;27:532–44.
- [7] Cardoso de Oliveira S, Gribova A, Donchin O, Bergman H, Vaadia E. Neural interactions between motor cortical hemispheres during bimanual and unimanual arm movements. *Eur J Neurosci* 2001;14:1881–96.
- [8] Carr J, Shepherd R. Stroke rehabilitation: guidelines for exercises and training to optimize motor skill. 1st ed. London: Butterworth-Heinemann; 2003.
- [9] Doherty D, Tu S, Schilmoeller K, Schilmoeller G. Health-related issues in individuals with agenesis of the corpus callosum. *Child Care Health Dev* 2006;32:333–42.
- [10] Donchin O, de Oliveira SC, Vaadia E. Who tells one hand what the other is doing: the neurophysiology of bimanual movements. *Neuron* 1999;23:15–8.
- [11] Donnan GA, Fisher M, Macleod M, Davis SM. Stroke. *Lancet* 2008;371:1612–23.
- [12] Elliott D. Migraine and stroke: current perspectives. *Neurol Res* 2008;30:801–12.
- [13] Etminan M, Takkouche B, Isorna FC, Samii A. Risk of ischaemic stroke in people with migraine: systematic review and meta-analysis of observational studies. *BMJ* 2005;330:63.
- [14] Fuchigami T, Mazaki R, Nishimura A, et al. A mother and daughter with agenesis of the corpus callosum. *Acta Paediatr Jpn* 1996;38:52–6.
- [15] Geffen GM, Jones DL, Geffen LB. Interhemispheric control of manual motor activity. *Behav Brain Res* 1994;64:131–40.
- [16] Hashimoto K, Higuchi K, Nakayama Y, Abo M. Ability for basic movement as an early predictor of functioning related to activities of daily living in stroke patients. *Neurorehabil Neural Repair* 2007;21:353–7.
- [17] Hiengkaew V, Jitaree K, Chaiyawat P. Minimal detectable changes of the Berg Balance Scale, Fugl-Meyer Assessment Scale, Timed "Up & Go" Test, gait speeds, and 2-minute walk test in individuals with chronic stroke with different degrees of ankle plantarflexor tone. *Arch Phys Med Rehabil* 2012;93:1201–8.
- [18] Hinkley LB, Marco EJ, Findlay AM, et al. The role of corpus callosum development in functional connectivity and cognitive processing. *PLoS One* 2012;7:e39804.
- [19] Hutchinson AD, Mathias JL, Jacobson BL, Ruzic L, Bond AN, Banich MT. Relationship between intelligence and the size and composition of the corpus callosum. *Exp Brain Res* 2009;192:455–64.
- [20] Jeeves MA, Silver PH, Jacobson I. Bimanual co-ordination in callosal agenesis and partial commissurotomy. *Neuropsychologia* 1988;26:833–50.
- [21] Jin K, Xie L, Sun F, Mao X, Greenberg DA. Corpus callosum and experimental stroke: studies in callosotomized rats and acallosal mice. *Stroke* 2011;42:2584–8.
- [22] Kang K, Choi NC. Ipsilateral hemiparesis and spontaneous horizontal nystagmus caused by middle cerebral artery territory infarct in a patient with agenesis of the corpus callosum. *Neurol Sci* 2012;33:1165–8.
- [23] Marco EJ, Harrell KM, Brown WS, et al. Processing speed delays contribute to executive function deficits in individuals with agenesis of the corpus callosum. *J Int Neuropsychol Soc* 2012;18:521–9.
- [24] Mathew P, Pannek K, Snow P, et al. Maturation of corpus callosum anterior midbody is associated with neonatal motor function in eight preterm-born infants. *Neural Plast* 2013;2013:359532.
- [25] Meyer BU, Roricht S, Graf von Einsiedel H, Kruggel F, Weindl A. Inhibitory and excitatory interhemispheric transfers between motor cortical areas in normal humans and patients with abnormalities of the corpus callosum. *Brain* 1995;118:429–40.
- [26] Moes P, Schilmoeller K, Schilmoeller G. Physical, motor, sensory and developmental features associated with agenesis of the corpus callosum. *Child Care Health Dev* 2009;35:656–72.
- [27] Moutard ML, Kieffer V, Feingold J, et al. Isolated corpus callosum agenesis: a ten-year follow-up after prenatal diagnosis (how are the children without corpus callosum at 10 years of age?) *Prenat Diagn* 2012;32:277–83.
- [28] Mueller KL, Marion SD, Paul LK, Brown WS. Bimanual motor coordination in agenesis of the corpus callosum. *Behav Neurosci* 2009;123:1000–11.
- [29] Naghdi S, Ansari NN, Mansouri K, Hasson S. A neurophysiological and clinical study of Brunnstrom recovery stages in the upper limb following stroke. *Brain Inj* 2010;24:1372–8.
- [30] Nojima I, Oga T, Fukuyama H, Kawamata T, Mima T. Mirror visual feedback can induce motor learning in patients with callosal disconnection. *Exp Brain Res* 2013;2013:30.

- [31] Pandian S, Arya KN. Motor impairment of the ipsilesional body side in poststroke patients. *J Body Work Mov Ther* 2013;17:495–503.
- [32] Reynolds DM, Jeeves MA. Further studies of tactile perception and motor coordination in agenesis of the corpus callosum. *Cortex* 1977;13:257–72.
- [33] Rokni U, Steinberg O, Vaadia E, Sompolinsky H. Cortical representation of bimanual movements. *J Neurosci* 2003;23:11577–86.
- [34] Sacco S, Moutard ML, Fagard J. Agenesis of the corpus callosum and the establishment of handedness. *Dev Psychobiol* 2006;48:472–81.
- [35] Sauerwein HC, Lassonde M. Cognitive and sensori-motor functioning in the absence of the corpus callosum: neuropsychological studies in callosal agenesis and callosotomized patients. *Behav Brain Res* 1994;64:229–40.
- [36] Sawner K, LaVigne J. Brunnstrom's movement therapy in hemiplegia: a neurophysiological approach. 2nd ed. Philadelphia: J.B. Lippincott; 1992.
- [37] Serrien DJ, Nirkko AC, Wiesendanger M. Role of the corpus callosum in bimanual coordination: a comparison of patients with congenital and acquired callosal damage. *Eur J Neurosci* 2001;14:1897–905.
- [38] Shumway-Cook AMW. Motor control – Translating research into clinical practice. 3rd ed. Philadelphia: Lippincott Williams & Wilkins: Wolters Kluwer; 2007.
- [39] Siffredi V, Anderson V, Leventer RJ, Spencer-Smith MM. Neuropsychological profile of agenesis of the corpus callosum: a systematic review. *Dev Neuropsychol* 2013;38:36–57.
- [40] Swinnen SP. Intermanual coordination: from behavioural principles to neural-network interactions. *Nat Rev Neurosci* 2002;3:348–59.
- [41] Takeuchi N, Ouchida Y, Izumi S. Motor control and neural plasticity through interhemispheric interactions. *Neural Plast* 2012;2012:823285.
- [42] Wahl M, Ziemann U. The human motor corpus callosum. *Rev Neurosci* 2008;19:451–66.
- [43] Wang LE, Tittgemeyer M, Imperati D, et al. Degeneration of corpus callosum and recovery of motor function after stroke: a multimodal magnetic resonance imaging study. *Hum Brain Mapp* 2012;33:2941–56.
- [44] Weinstein M, Green D, Geva R, et al. Interhemispheric and intrahemispheric connectivity and manual skills in children with unilateral cerebral palsy. *Brain Struct Funct* 2013. <http://dx.doi.org/10.1007/s00429-013-0551-5>.
- [45] Welmer AK, Holmqvist LW, Sommerfeld DK. Hemiplegic limb synergies in stroke patients. *Am J Phys Med Rehabil* 2006;85:112–9.
- [46] Wolf JF, Milkovic S, Osswald N, et al. [Agenesis of the corpus callosum: Cognitive and neuropsychiatric symptoms in children and adolescents – a case report]. *Z Kinder Jugendpsychiatr Psychother* 2011;39:207–13.
- [47] Woodbury ML, Velozo CA, Richards LG, Duncan PW, Studenski S, Lai SM. Longitudinal stability of the Fugl-Meyer Assessment of the upper extremity. *Arch Phys Med Rehabil* 2008;89:1563–9.

S. Pandian  
K.N. Arya\*

*Pandit Deen Dayal Upadhyaya Institute for the Physically Handicapped (University of Delhi), Ministry of Social Justice and Empowerment, Govt. of India, 4 VD Marg, New Delhi 110002, India*

\*Corresponding author

*E-mail address:* [kamalnarya2@gmail.com](mailto:kamalnarya2@gmail.com) (S. Pandian)

Received date 23 September 2013

Accepted date 16 February 2014