

· 论著 ·

DOI: 10.3969/j.issn.0253-9802.2024.12.004

孤独症谱系障碍儿童合并紧张症症状的临床特征

李咏梅*, 贺洁琼*, 邢艺沛, 刘兴华, 朱绘霖, 邓红珠, 邹小兵[✉]

(中山大学附属第三医院儿童发育行为中心, 广东 广州 510630)

【摘要】 目的 通过减弱行为问卷 (ABQ) 及与之相关的功能和情绪行为问卷, 调查孤独症谱系障碍 (ASD) 儿童合并紧张症症状的表现和相关临床特征。**方法** 选择 2021 年 11 月至 2023 年 12 月在中山大学附属第三医院或其他三甲医院已明确诊断 ASD 的儿童, 招募其家长或长期照顾者进行问卷调查。根据 ABQ 问卷结果将 ASD 儿童分为 ABQ 筛查阳性组与阴性组, 并采用席汉失能量表、重复行为量表 (修订版)、儿童简化情绪量表和斯宾塞儿童焦虑量表评估儿童的功能损害及相关的情绪行为表现。**结果** 回收有效问卷 441 份。ABQ 问卷筛查阳性组 ASD 儿童共 166 名, 其 ABQ 问卷的前 6 个核心症状条目、运动症状、情感改变、行为改变总得分均高于阴性组 ($P < 0.001$)。ABQ 筛查阳性组 ASD 儿童中 6 种核心症状均普遍出现, 其中“需要提示来完成动作”的出现者比例最高, 其次是“不动、卡住、动作缓慢、一旦开始就不能停止动作”, 有 50% 以上的儿童出现这些症状。ABQ 筛查阳性组 ASD 儿童在学习/工作、社交生活、家庭生活/家庭责任等方面功能损失时间、效率低下时间、失能程度“中度”及以上者比例均高于阴性组 (P 均 < 0.001); ABQ 筛查阳性组 ASD 儿童的刻板行为、自我伤害行为、强迫行为、单调/仪式行为的得分 (P 均 < 0.001) 和儿童简化情绪量表得分 ($P < 0.001$) 及焦虑量表得分 (P 均 < 0.01) 高于阴性组。**结论** 紧张症症状在 ASD 儿童中并不少见。合并有紧张症症状的 ASD 儿童情绪和行为问题更多, 功能损害更严重, 需要早期识别、早期干预。

【关键词】 减弱行为; 孤独症谱系障碍; 紧张症; 儿童

Clinical characteristics of catatonic symptoms in children with autism spectrum disorder

Li Yongmei*, HE Jieqiong*, XING Yipei, LIU Xinghua, ZHU Huilin, DENG Hongzhu, ZOU Xiaobing[✉]

(Child Development and Behavior Center, the Third Affiliated Hospital of Sun Yat-sen University, Guangzhou 510630, China)

Co-first authors: LI Yongmei, HE Jieqiong

Corresponding author: ZOU Xiaobing, E-mail: zouxb@mail.sysu.edu.cn

【Abstract】 Objective To investigate the presentations and related clinical characteristics of catatonic symptoms in children with autism spectrum disorder (ASD) by using the Attenuated Behavior Questionnaire (ABQ) and related functional and emotional behavior questionnaires. **Methods** Children who were diagnosed with ASD in the Third Affiliated Hospital of Sun Yat-sen University or other tertiary hospitals from November 2021 to December 2023 were selected. Reports from parents or long-term caregivers of children with ASD were collected through an online questionnaire. Children with ASD were divided into the ABQ screening positive and negative groups using ABQ questionnaire. Sheehan Disability Scale, Repetitive Behavior Scale-Revised, Children's Simplified Emotion Scale and Spence children's Anxiety Scale were used to assess children's functional impairment and related emotional behavior. **Results** Four hundred and forty-one valid questionnaires were collected. 166 children with ASD were screened positive by using the ABQ. The total scores of the first six core symptoms, motor symptoms, emotional changes and behavior changes in the ABQ questionnaire of ASD children in the positive group were significantly higher than those in the negative group (all $P < 0.001$). All six core motor symptoms were commonly reported in the positive group, with "requiring prompts to complete actions" being the most reported, followed by "immobility, getting stuck, slowness in movement, and problems stopping actions once started". Over 50% of the children in the positive screening group exhibited these symptoms. The days of functional loss and inefficiency in study/work, social life, family life/family responsibilities, and the proportion of "moderate" or above degree of disability of ASD children in the ABQ-positive group were higher than those in the negative group, and the differences were statistically significant (all $P < 0.001$). The scores of stereotypical behaviors, self-injurious behavior, compulsive behavior, sameness/ritual behavior (all $P < 0.001$), simplified

收稿日期: 2024-10-12

基金项目: 国家自然科学基金 (62261160652); 广州市科技计划项目 (202007030011)

共同第一作者: 李咏梅, 硕士生导师, 副主任医师, 研究方向: ASD 儿童合并紧张症的临床及相关机制, E-mail: liyongm@mail.sysu.edu.cn;

贺洁琼, 硕士研究生, 研究方向: ASD 儿童合并紧张症症状的临床特征, E-mail: jq_he0111@163.com

通信作者: 邹小兵, 教授, 主任医师, 博士生导师, 研究方向: 儿童发育行为障碍, E-mail: zouxb@mail.sysu.edu.cn

emotion scale ($P < 0.001$) and anxiety scale (both $P < 0.01$) in the ABQ-positive group were significantly higher than those in the ABQ-negative group, and the differences were statistically significant. **Conclusions** Catatonic symptoms are not uncommon in children with ASD. ASD children complicated with such symptoms tend to exhibit more emotional and behavioral problems, as well as more severe functional impairment, underscoring the need for early identification and intervention.

【Key words】 Attenuated behavior; Autism spectrum disorder; Catatonia; Children

紧张症这一概念最早于由 Kahlbaum 等在 1874 年提出,它是一种复杂的异常精神运动综合征,包括异常的运动、发声和行为症状,同时合并意志受损^[1]。目前认为紧张症是一种独立的疾病,通常会并发在有各种躯体和神经精神疾病背景的患者中^[2,3]。近年来,研究者们越来越认识到紧张症是孤独症谱系障碍 (autism spectrum disorder, ASD) 的共病综合征,部分 ASD 个体在经历了相对稳定的童年期后会出现明显的功能衰退,并认为紧张症是 ASD 个体晚期退化的常见原因^[4,6]。ASD 合并紧张症的患病率为 12%~20%^[7-10]。Shah^[11]基于对紧张症的研究提出,临床医师对 ASD 合并紧张症的认识不足,文献中所报道的 ASD 合并紧张症患病率偏低。ASD 个体合并紧张症大部分在青春期和成年早期出现症状,同时也有可能在一生中其他阶段出现,包括青少年期和儿童期^[12]。但在临床中,儿童和青少年中紧张症比较罕见^[13]。到目前为止,笔者尚未检索到 ASD 儿童合并紧张症的系统研究报道,仅有少量病例报告,而在既往国外的病例报道中患者最小年龄为 6 岁^[14],国内仅有 1 名 13 岁儿童的病例报道^[15]。

紧张症是一种严重但可治疗的行为综合征,需要多模式的综合治疗(如心理干预、大剂量劳拉西泮、双侧电休克治疗等)^[16-18]。若 ASD 儿童未在早期出现紧张症症状(catatonic symptoms)时被识别出并予针对性干预,一旦进展至严重的紧张症或慢性病程,往往在青春期或成年期出现不良预后,严重影响个体和家庭的生活质量。故早期发现和识别 ASD 个体的紧张症症状,从而及时诊断和治疗尤为重要。

ASD 和紧张症这 2 种障碍之间的行为特征可能会有部分相似的症状,如缄默、刻板语言、重复行为、模仿言语、摆姿势、造作、无目的的激越和僵直等,这些相似的症状给诊断带来了诸多挑战,容易造成误诊、漏诊。因此,正确区分这 2 种情况至关重要。一方面,并非所有表现出上述症状的 ASD 个体都应被视为紧张症患者;另一方面,对任何出现症状变化的 ASD 个体,都应

评估其存在紧张症的可能性。现有紧张症临床症状的评定量表如布什-弗朗西斯紧张症评定量表(Bush-Francis Catatonia Rating Scale, BFCRS)、诺索夫紧张症量表(Northoff Catatonia Rating Scale, NCRS)最初主要用于成人紧张症的筛查,即使在 BFCRS 基础上改编的用于儿童紧张症筛查的儿童紧张症量表(Pediatric Catatonia Rating Scale, PCRS)也并不是专门针对 ASD 人群研发的^[19-20]。2017 年 Breen 等^[9]编制了减弱行为问卷(Attenuated Behavior Questionnaire, ABQ),问卷共包含 34 条题目的量表,分为运动症状、情感改变、行为改变 3 个维度,其中题目 1~6 为“核心症状”(core attenuated behavior, ABQ-CAB)。该研究提出 ABQ 核心症状的本质与 Wing 等^[7]提出的诊断标准(运动和语言反应较前明显迟缓、发起和完成动作困难、对身体或语言提示的依赖增加、被动程度增加和明显缺乏动机)相同,是诊断紧张症的必要条件。而且,该研究结果认为 ABQ 是一种有效和实用的临床测量方法,具有一定的诊断价值,可以作为一种常规筛查工具,用于 ASD 合并紧张症症状青年人的筛查以及对症状的严重程度和疗效评价。

对紧张症症状的描述研究表明,适用于成人的标准也适用于儿童和青少年,并且紧张症的表现所有年龄组中都是一致的^[7, 21-22]。紧张症症状在 ASD 青少年中的出现频率引起了研究者的关注,然而这些症状在 ASD 儿童个体中的表现尚未得到充分研究。为此,本研究通过 ABQ 调查中国 ASD 儿童群体中紧张症症状的表现,归纳相关特征,以帮助临床医师在 ASD 儿童中早期识别紧张症症状,并及时进行评估和干预,从而改善 ASD 合并紧张症儿童的预后。

1 对象与方法

1.1 研究对象

研究对象为 2021 年 11 月至 2023 年 12 月在中山大学附属第三医院或其他三甲医院已确诊 ASD、

年龄为18岁以内的儿童及青少年。排除器质性脑病、癫痫、脑瘫、听力障碍、视力障碍等患者,以及唐氏综合征、脆性X综合征、雷特综合征、威廉姆斯综合征、特殊语言发育障碍、严重代谢性疾病等患者。本研究的数据来自问卷星平台设置的调查问卷,通过中山大学附属第三医院儿童发育行为中心的官方微信公众号,招募ASD儿童的家长或长期照顾者填写紧张症网络问卷,向家长或长期照顾者详细解释本研究的方法及目的,获得家长或长期照顾者和儿童知情同意,并且家长或长期照顾者需要具备独立填写问卷的能力。研究方案经中山大学附属第三医院伦理委员会批准(批件号:中大附三医伦[2020]02-118-02)。

1.2 评估工具

1.2.1 减弱行为问卷

ABQ用于家长报告的ASD儿童合并紧张症状的筛查,共包含34条题目,分为运动症状(1~14题及第23题)、情感改变(15、16、17、18和21题)、行为改变(19、20、22、24题及25~34题)3个部分,采用0~4分的5级评分,条目选项 ≥ 2 分为出现该症状,得分越高说明儿童症状越明显,其中题目1~6为“核心症状”。Breen等^[9]提出同时合并3个或更多的核心减弱行为,且ABQ-CAB总分 ≥ 8 分为紧张症的临床截断值(分界点)。将研究对象按ABQ总分筛查ASD儿童是否合并有紧张症状,分为ABQ总分 ≥ 8 分(阳性)组和ABQ总分 < 8 分(阴性)组。

1.2.2 席汉失能量表

席汉失能量表(Sheehan Disability Scale, SDS)^[23]于1983年开发,目前在国内外临床试验和实践中已广泛应用于评估各种精神障碍(包括神经发育障碍)个体因疾病或健康问题导致的障碍对学习/工作、社会生活以及家庭生活(3个方面)的干扰程度,由照顾者填写,是一个简单且易于评分的量表,每个方面按0~10分评分,得分越高表明功能损害越严重,0分为无影响,1~3分为轻度,4~6分为中度,7~9分为显著,10分为极重。同时简易评估过去1周功能损害/效率低下的时间。有研究表明SDS也可用于儿童青少年的相关评估^[24]。

1.2.3 重复行为量表修订版

重复行为量表修订版(Repetitive Behavior Scale-Revised, RBS-R)是临床工作中评估ASD儿童重复刻板行为严重程度的一种常用量表,用于评估

ASD与紧张症症状的相似表现。由家长或长期照顾者填写,包括刻板行为、自伤行为、强迫行为、仪式行为、固定行为和限制行为等6个分量表,共43个条目,每个条目按4级(没有、轻微、中度、严重)评0~3分,分数越高说明症状越严重。

1.2.4 儿童简化情绪量表(父母版)

儿童简化情绪量表(父母版)是通过父母他评的方式对儿童情绪问题进行简易评估的一种量表,量表共13个条目,每个条目的选项按3级制(不符合、有时符合、符合)评1~3分,总分 ≥ 8 分则判定为情绪异常。

1.2.5 斯宾赛儿童焦虑量表

斯宾赛儿童焦虑量表(Spence Children's Anxiety Scale, SCAS)是国际通用的、由父母他评的儿童焦虑评估工具之一,该量表已被翻译为至少22种语言。6岁以上量表共40个条目,每个条目分为4级(从不、有时、常常、总是)评1~4分;6岁以下量表为34个条目,每个条目分为5级(从不、很少、有时、常常、几乎完全如此)评1~5分。总分 ≥ 60 分判定为异常。国内外的研究显示SCAS具有清晰的因子结构、良好的内部一致性和合理的校标效度。既往研究也支持使用父母他评的SCAS筛查和监测注意缺陷与多动障碍和ASD儿童的焦虑症状^[25]。

1.3 样本量计算

根据既往meta分析显示,ASD患者中抑郁症的患病率为12.3%^[26],根据对照组的预期发生率(抑郁为12%),假设可以接受的显著性水平为0.05和统计功效为0.8,采用R语言pwr.2p.test函数计算可以检测出最小相对风险。按照病例组和对照组1:1配比,不同样本量可以检测到的最小效应量:①如果每组收集50名(总样本量100名),可检测到抑郁OR ≥ 4.09 (RR ≥ 2.99);②如果每组收集60名(总样本量120名),可检测到抑郁OR ≥ 3.67 (RR ≥ 2.78)。因此结合临床实际,目标样本量最低为病例组50名,对照组50名,考虑20%脱落率,每组需要招募儿童60名,共120名。

1.4 统计学方法

使用SPSS 29.0录入数据并进行统计分析。对所有计量资料进行正态性检验及方差齐性检验,连续性变量均为非正态分布,用 $M(P_{25}, P_{75})$ 表示,组间比较采用Mann-Whitney U检验。分类变量以 $n(\%)$ 表示,组间比较采用 χ^2 检验。 $\alpha=0.05$ 。

2 结 果

2.1 ABQ 筛查阳性组与阴性组 ASD 儿童的一般人口学资料分析

共收集到 617 名 ASD 儿童家长报告的一般情况及问卷结果,剔除资料填写不完整或不清楚的问卷,有效问卷为 441 份,其中 97% 由父母填写。参与者完成问卷的平均时间为 20 min。441 名 ASD 儿童中,ABQ 筛查结果阴性为 275 名、阳性为 166 名,即 37.6% 的 ASD 儿童表现出紧张症症状。ABQ 筛查阳性组中年龄最小者为 3 岁,年龄分布于学龄前期(年龄 < 6 岁)65 名,学龄期(年

龄为 6~< 10 岁)53 名,青春期(年龄为 10~20 岁)48 名。ABQ 筛查阳性组儿童年龄大于阴性组儿童($P < 0.01$)。ABQ 筛查阳性组与阴性组儿童的性别、主要照顾者及家庭经济情况在组间比较差异均无统计学意义(P 均 > 0.05),见表 1。

2.2 ASD 儿童的减弱行为表现

2.2.1 ABQ 筛查阳性组与阴性组 ASD 儿童的 ABQ 评分比较

ABQ 筛查阳性组 ASD 儿童的 ABQ 前 6 题(核心症状)总分、运动症状总分、情感改变总分、行为改变总分均高于阴性组($P < 0.001$),见表 2。

表 1 ABQ 筛查阴性组与阳性组 ASD 儿童的一般人口学资料分析
Table 1 General demographic analysis of ASD children in the ABQ-negative group and ABQ-positive group

项 目	总体 (n=441)	阴性组 (n=275)	阳性组 (n=166)	Z/ χ^2 值	P 值
年龄 / 岁	6.0 (4.0, 10.0)	6.0 (4.0, 8.5)	7.0 (5.0, 11.0)	-2.69	0.007
性别 /n (%)				1.81	0.178
女	84 (19.05)	47 (17.09)	37 (22.29)		
男	357 (80.95)	228 (82.91)	129 (77.71)		
主要照顾者 /n (%)				0.23	0.633
父母	270 (61.22)	166 (60.36)	104 (62.65)		
父母及其他	171 (38.78)	109 (39.64)	62 (37.35)		
家庭年收入 /n (%)				2.43	0.788
< 30 000 元	30 (6.80)	17 (6.18)	13 (7.83)		
30 000~79 999 元	86 (19.50)	51 (18.55)	35 (21.08)		
80 000~14 999 元	116 (26.30)	71 (25.82)	45 (27.11)		
150 000~290 000 元	117 (26.53)	79 (28.73)	38 (22.89)		
300 000~1 000 000 元	76 (17.23)	48 (17.45)	28 (16.87)		
> 1 000 000 元	16 (3.63)	9 (3.27)	7 (4.22)		

表 2 ABQ 筛查阴性组与阳性组 ASD 儿童的减弱行为问卷评分比较
Table 2 Comparison of Attenuated Behavior Questionnaire scores of ASD children between the ABQ-negative group and ABQ-positive group

ABQ 项目	总体 (n=441)	阴性组 (n=275)	阳性组 (n=166)	Z 值	P 值
前 6 题总分 / 分	5.0 (1.0, 10.0)	2.0 (0.0, 4.0)	12.0 (9.0, 16.0)	-17.74	<0.001
运动症状 / 分	13.0 (6.0, 22.0)	8.0 (4.0, 13.0)	25.0 (18.2, 32.7)	-15.17	<0.001
情感改变 / 分	7.0 (4.0, 11.0)	6.0 (4.0, 9.0)	10.0 (6.0, 14.0)	-7.36	<0.001
行为改变 / 分	14.0 (8.0, 22.0)	11.0 (6.0, 17.0)	21.0 (13.0, 28.0)	-9.32	<0.001

注: ABQ 为减弱行为问卷。

2.2.2 ABQ 筛查阳性组 ASD 儿童中核心症状分布情况

ABQ 筛查阳性组 ASD 儿童中,6 种核心症状均有出现,除“动作启动困难”外,其余 5 项条目症状出现的百分率均超过 50%,其中表现“需要提

示来完成动作”症状的百分率最高,见图 1。

2.2.3 ABQ 筛查阳性组 ASD 儿童中情感改变症状分布情况

ABQ 筛查阳性组 ASD 儿童中最常见伴随情感改变症状为冲动 / 易兴奋,其次是自发的哭泣 / 大

笑 / 尖叫、兴趣减少、攻击行为，这些症状出现的百分率均超过 50%，见图 2。

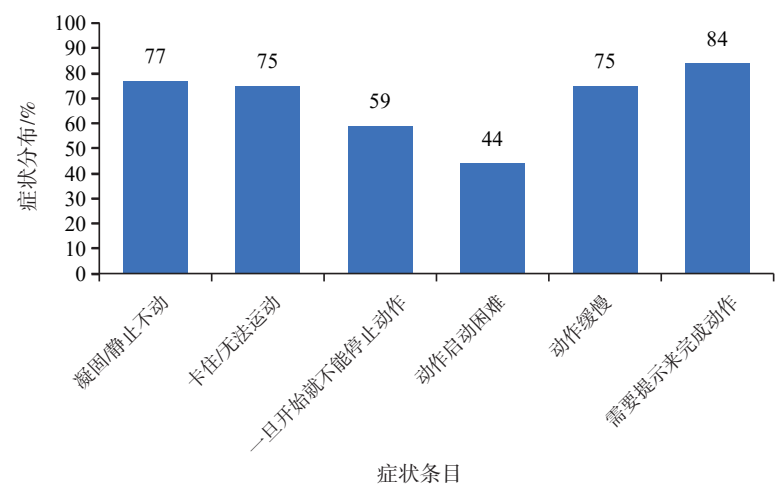


图 1 ABQ 筛查阳性组 ASD 儿童中核心症状分布
Figure 1 Distribution of core symptoms in ASD children of ABQ-positive group

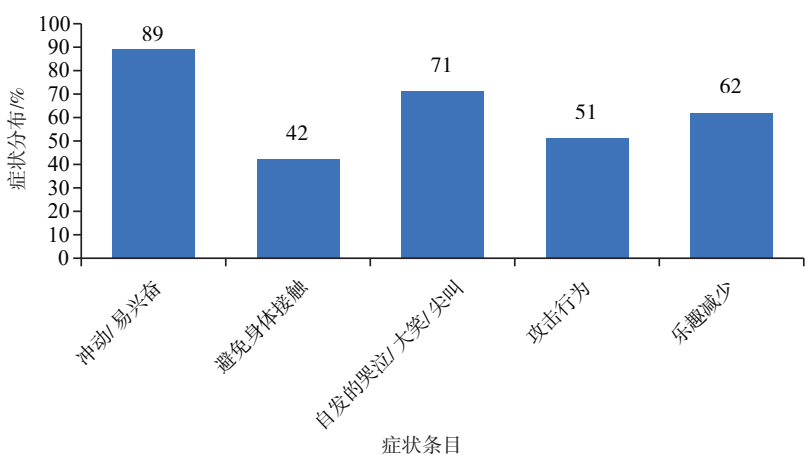


图 2 ABQ 筛查阳性组 ASD 儿童中情感改变症状分布
Figure 2 Distribution of emotional changes symptoms in ASD children of ABQ-positive group

2.2.4 ABQ 筛查阳性组 ASD 儿童中行为改变症状分布情况

ABQ 筛查阳性组 ASD 儿童中最常见伴随行为症状为不听指令，其次为需要更多的鼓励才能参与活动、凝视、交流减少 / 缄默、睡眠问题、偶尔呻吟等，这些症状出现的百分率均超过 50%，见图 3。

2.3 ABQ 筛查阳性组与阴性组 ASD 儿童席汉失能量表结果比较

ABQ 筛查阳性组 ASD 儿童在 SDS 中的学习 / 工作、社交生活、家庭生活 / 家庭责任等方面功能损

失时间、效率低下时间均多于阴性组儿童 (P 均 < 0.001)。ABQ 筛查阳性组 ASD 儿童在学习 / 工作、社交生活、家庭生活 / 家庭责任 3 个方面失能“中度”及以上的比例均高于阴性组 ($P < 0.001$)，见表 3。

2.4 ABQ 筛查阳性组与阴性组 ASD 儿童重复行为量表修订版结果比较

ABQ 筛查阳性组 ASD 儿童在 RBS-R 的刻板行为、自我伤害行为、强迫行为、单调 / 仪式行为得分均高于阴性组儿童 (P 均 < 0.001)；受限行为方

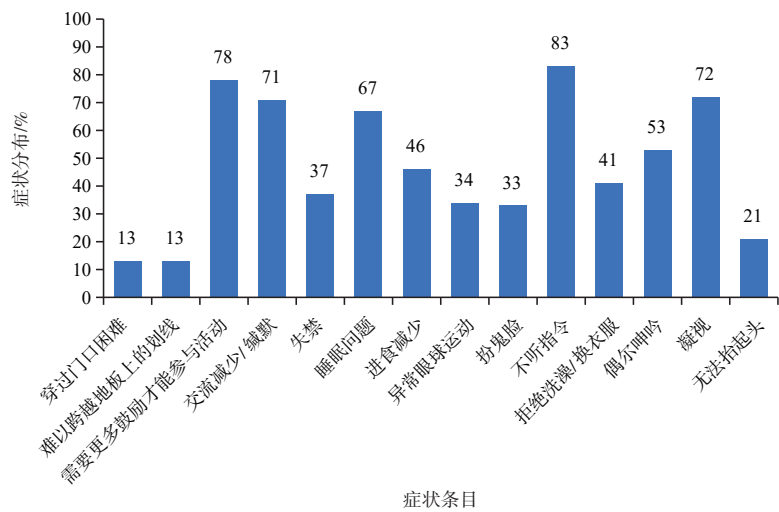


图 3 ABQ 筛查阳性组 ASD 儿童中行为改变症状分布

Figure 3 Distribution of behavioral change symptoms in ASD children of ABQ-positive group

表 3 ABQ 筛查阴性组与阳性组 ASD 儿童的席汉失能量表结果比较

Table 3 Comparison of Sheehan Disability Scale results of ASD children between the ABQ-negative group and ABQ-positive group

SDS 项目	总体 (n=441)	阴性组 (n=275)	阳性组 (n=166)	Z/ χ^2 值	P 值
损失时间 /d	0 (0, 1.0)	0 (0, 0)	0 (0, 3.0)	-5.89	<0.001
效率低下时间 /d	1.0 (0, 3.0)	0 (0, 2.0)	3.0 (0.2, 5.0)	-7.30	<0.001
Q1/n (%)				68.63	<0.001
无影响	77 (17.46)	74 (26.91)	3 (1.81)		
轻度	129 (29.25)	91 (33.09)	38 (22.89)		
中度	105 (23.81)	53 (19.27)	52 (31.33)		
显著	93 (21.09)	37 (13.45)	56 (33.73)		
极重	37 (8.39)	20 (7.27)	17 (10.24)		
Q2/n (%)				53.51	<0.001
无影响	72 (16.33)	66 (24.00)	6 (3.61)		
轻度	123 (27.89)	88 (32.00)	35 (21.08)		
中度	112 (25.40)	63 (22.91)	49 (29.52)		
显著	95 (21.54)	40 (14.55)	55 (33.13)		
极重	39 (8.84)	18 (6.55)	21 (12.65)		
Q3/n (%)				68.22	<0.001
无影响	85 (19.27)	82 (29.82)	3 (1.81)		
轻度	112 (25.40)	77 (28.00)	35 (21.08)		
中度	122 (27.66)	62 (22.55)	60 (36.14)		
显著	86 (19.50)	37 (13.45)	49 (29.52)		
极重	36 (8.16)	17 (6.18)	19 (11.45)		

注：SDS 为席汉失能量表，Q1 指学习 / 工作，Q2 指社交生活，Q3 指家庭生活 / 家庭责任。

面，阳性组 ASD 儿童的得分高于阴性组儿童 ($P < 0.05$)，见表 4。

2.5 ABQ 筛查阳性组与阴性组 ASD 儿童简化情绪量表 (父母版) 结果比较

ABQ 筛查阳性组中 ASD 儿童简化情绪量表

(父母版) 得分高于阴性组儿童 ($P < 0.001$)，表明他们可能经历了更多的情绪问题；而且，与阴性组 (23.64%) 相比，ABQ 筛查阳性组 ASD 儿童有更高比例 (43.37%) 的孩子情绪量表得分总分 ≥ 8 分 ($P < 0.001$)，即出现“情绪异常”问题，见表 5。

表 4 ABQ 筛查阴性组与阳性组 ASD 儿童的重复行为量表修订版结果比较

Table 4 Comparison of Repetitive Behavior Scale-Revised results of ASD children between the ABQ-negative group and ABQ-positive group

RBS-R 项目	总体 (n=441)	阴性组 (n=275)	阳性组 (n=166)	Z 值	P 值
刻板行为	5.0 (3.0, 9.0)	5.0 (2.0, 8.0)	7.5 (4.0, 11.0)	-6.47	<0.001
自我伤害行为	1.0 (0, 3.0)	1.0 (0, 2.0)	2.0 (0, 5.0)	-4.14	<0.001
强迫行为	1.0 (0, 3.0)	1.0 (0, 2.0)	2.0 (0, 4.0)	-4.19	<0.001
单调 / 仪式行为	5.0 (2.0, 10.0)	4.0 (2.0, 8.0)	7.0 (3.0, 11.0)	-5.01	<0.001
受限行为	2.0 (1.0, 4.0)	2.0 (1.0, 4.0)	3.0 (1.0, 4.0)	-2.03	0.042
RBS-R 总分	17.0 (10.0, 27.0)	14.0 (8.0, 20.5)	23.0 (14.0, 34.0)	-6.67	<0.001

注: RBS-R 为重复行为量表修订版。

表 5 ABQ 筛查阴性组与阳性组 ASD 儿童的简化情绪量表 (父母版) 结果比较

Table 5 Comparison of Simplified Emotion Scale results of ASD children between the ABQ-negative group and ABQ-positive group

情绪量表结果	总体 (n=441)	阴性组 (n=275)	阳性组 (n=166)	Z/ χ^2 值	P 值
情绪量表总分 / 分	3.0 (0, 9.0)	2.0 (0, 7.0)	6.0 (0, 12.0)	-3.51	<0.001
分类 /n (%)				18.83	<0.001
正常	304 (68.93)	210 (76.36)	94 (56.63)		
异常	137 (31.07)	65 (23.64)	72 (43.37)		

2.6 ABQ 筛查阳性组与阴性组 ASD 儿童焦虑量表结果比较

在 6 岁以下幼儿中, ABQ 筛查阳性组 ASD 幼儿的焦虑量表得分高于阴性组幼儿 ($P < 0.001$); 在焦虑量表得分分类中, 阳性组有 7.69% 的幼儿被归类为“焦虑”, 而阴性组没有幼儿被归类为“焦

虑”, 组间比较差异有统计学意义 ($P < 0.05$)。在 6 岁及以上儿童中, ABQ 筛查阳性组 ASD 儿童的焦虑量表得分也高于阴性组 ($P < 0.01$); 在焦虑量表得分分类中, 阳性组中有 5.94% 的儿童被归类为“焦虑”, 而在阴性组中, 这一比例仅为 0.64%, 组间比较差异有统计学意义 ($P < 0.05$)。见表 6。

表 6 ABQ 筛查阴性组与阳性组 ASD 儿童的焦虑量表结果比较

Table 6 Comparison of Spence Children's Anxiety Scale results of ASD children between the ABQ-negative group and ABQ-positive group

焦虑量表结果	总体 (n=441)	阴性组 (n=275)	阳性组 (n=166)	Z/ χ^2 值	P 值
6 岁以下幼儿 (n=184)					
总分 / 分	23.0 (12.0, 35.2)	20.0 (10.0, 31.5)	30.0 (20.0, 42.0)	-3.85	<0.001
分类 /n (%)				6.72	0.010
正常	179 (97.28)	119 (100.00)	60 (92.31)		
焦虑	5 (2.72)	0 (0)	5 (7.69)		
6 岁及以上儿童 (n=257)					
总分 / 分	20.0 (12.0, 30.0)	18.5 (12.0, 27.2)	26.0 (14.0, 34.0)	-2.80	0.005
分类 /n (%)				4.65	0.031
正常	250 (97.28)	155 (99.36)	95 (94.06)		
焦虑	7 (2.72)	1 (0.64)	6 (5.94)		

3 讨 论

本研究旨在通过使用 ABQ 网络问卷初步调查 ASD 儿童中紧张症症状的表现和相关特征, 结果显示约 37.6% 的 ASD 儿童表现出紧张症症状,

ABQ 筛查阳性组儿童普遍年龄较大 (中位年龄为 7 岁), 以学龄期和青春期为主, 这与 Breen 等^[9]的研究结果基本一致。该研究在青少年人群中 48.3% 参与者表现出 3 个或更多核心行为, 反映 ASD 个体更容易在青春期和成年早期出现紧张症症状。

不同之处在于,本研究阳性样本中还包括学龄期和学龄前期儿童,且学龄前期儿童也有一定比例,表明紧张症症状并不是既往认识的在儿童中很少见,其在ASD儿童中也是较为常见的。Breen等^[9]的研究中高达20.2%的ASD患者被诊断为紧张症,但还有一部分筛查阳性的样本未被诊断,因此研究者们认为在年轻ASD群体中可能存在紧张症的诊断不足。虽然本研究仅为网络初步调查,绝大多数并没有面对面就诊和完善评估,筛查阳性结果并不能作为确诊紧张症的依据,因此不能提供紧张症患病率的数据,但有少数筛查阳性者在随访后被诊断为紧张症,这提醒临床医师需要提高对它的认识,当ASD儿童表现出紧张症症状时,需要进一步评估紧张症。

本研究与ASD青少年群体中的研究^[9]一致:ABQ问卷筛查阳性组ASD儿童中,所有6种核心症状均普遍出现,最常见的症状包括需要身体和(或)语言提示才能完成动作、运动迟缓、静止不动、运动过程中卡住、一旦开始运动就难以停下等,结果说明ASD青少年期表现的紧张症症状同样可能在儿童期出现。且本研究中ABQ筛查阳性组ASD儿童运动症状及情感、行为改变得分均高于阴性组儿童,反映ASD儿童紧张症症状除表现核心的运动症状外,也表现出情感和行为的异常,情感改变常见症状为冲动/易兴奋、自发的哭泣/大笑/尖叫、攻击行为,行为改变最常见症状为不听指令,其次为需要更多的鼓励才能参与活动、缄默、凝视;这与既往研究观察到的ASD合并紧张症个体的临床症状相近,他们最常见是运动功能改变、语言能力的减弱或丧失、情感改变^[7],反映ABQ筛查出的阳性症状与紧张症的临床症状较一致。另外,ABQ筛查出的这些ASD儿童紧张症症状与精神障碍诊断与统计手册第5版(Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders, fifth edition, DSM-5)中紧张症诊断标准的木僵、僵住、刻板运动、违拗、缄默、不受外界刺激影响的激越症状等有重叠。这些结果说明ABQ作为筛查问卷,在临床中也可以用于儿童期紧张症的筛查。

本研究中SDS结果显示,ABQ筛查阳性组ASD儿童在学习/工作、社交生活、家庭生活/家庭责任等方面功能损失、效率低下时间均多于阴性组儿童,阳性组在这3个方面失能“中度”以上的比例也均高于阴性组,提示合并有紧张症症状ASD儿童在日常家庭生活、学习/工作和社会

功能的损害更为严重。本研究结果与Ghaziuddin^[6]和Wing等^[7]的研究一致,强调了紧张症的出现,是功能和行为的恶化。ASD儿童这些紧张症症状通常是在其原有症状基础上的一种退化表现,儿童会出现明显的功能衰退,如未能得到早期识别、早期干预,往往会对他们的日常、学习和社会生活造成严重影响。

RBS-R的数据显示,ABQ筛查阳性组ASD儿童在刻板行为、自我伤害行为、强迫行为、单调或仪式化行为、RBS-R总分方面均高于阴性组。本研究与既往研究一致,显示紧张症症状的出现与重复行为具有一定的相关性^[9]。重复刻板行为是ASD和紧张症这2种障碍之间常见相似的行为特征,这一特征一方面导致仅通过识别ASD个体的孤立特征而过高估计阈下紧张症的风险;另一方面,由于ASD症状通常首先出现,个体的紧张症特征可能更容易被这些ASD症状所掩盖。

本研究支持了合并有紧张症症状ASD儿童的重复刻板行为是在原有症状的基线基础上,症状形式、频率和严重程度较单纯的ASD儿童严重。另外,合并有紧张症症状ASD儿童的自伤行为比单纯ASD儿童更严重。既往有研究强调重复的自伤行为应作为紧张症中的一种运动症状引起注意^[27],提示临床医师在ASD儿童出现严重的自伤行为时,应警惕是否合并紧张症。

研究表明,情绪失调是ASD个体普遍出现的问题,他们经常表现出消极情绪增加,积极情绪下降(尤其是喜悦)。同时发生的情绪问题明显影响ASD个体的健康和预后,导致所有年龄阶段个体的生活质量下降,自杀死亡率增加^[28]。本研究中简化情绪量表总分显示,与阴性组相比,ABQ筛查阳性组ASD儿童在情绪方面的得分更高;按情绪量表得分进行分组时,阳性组有43.37%的孩子被归为“异常”,而阴性组中这一比例为23.64%,提示合并紧张症症状的ASD儿童可能出现更多更为严重的情绪问题,如易怒、变得不安、对任何事情都不感兴趣、感到不快乐、感到孤独等,这与既往临床观察的结果相符,该结果揭示了情绪障碍在孤独症特征和紧张症之间关系中的中介作用^[29]。本结果提示,临床医师在对ASD儿童进行干预时应注重提升儿童的情绪理解、表达及调节能力,从而避免或减缓紧张症症状的发生和发展。

本研究中,所有儿童均显示ABQ筛查阳性组ASD儿童焦虑量表总得分及异常的比例(6岁

以下组 7.69%、6 岁及以上组 5.94%) 均高于阴性组,而在阴性组中合并焦虑的儿童极少,说明 ASD 合并紧张症症状儿童更容易表现焦虑症状。既往研究显示,有紧张症症状的 ASD 个体中 22.2%~69.45% 有共病焦虑,其中 39%~83% 有明显的焦虑^[30]。本研究中 ASD 合并紧张症症状儿童的焦虑症状并不常见,考虑原因是本研究对象为儿童,采用的是家长报告,没有自我报告的主观体验,因此可能出现一定的偏倚。有研究者认为,紧张症与心境障碍有关^[31],可能是严重焦虑的一种表达^[32],ASD 个体对焦虑和情绪障碍的易感性可能是该人群中紧张症高发的原因^[33-34]。ASD 合并紧张症的相关机制可能与焦虑的主观体验和应激生理相关因素、高水平的唤起或觉醒度有关^[18]。因此,临床医师发现 ASD 儿童出现紧张症症状时,应及时识别和减少儿童的压力来源,针对焦虑情况的积极的心理干预及认知行为疗法可能是更有价值的。

本研究仍然存在一定的局限性与不足:

① ABQ 作为临床可用的、针对 ASD 个体合并紧张症症状的筛查工具,本身为第三方报告测量,可能存在检出效度和真实性偏差,还需要综合使用其他紧张症的量表对筛查结果阳性者进一步详细评估;②本研究基于 ABQ 量表,采用网络调查问卷的形式收集数据,家长填写问卷时可能存在一定导向性,研究所得出的阳性率可能出现一定的偏差,且后续仅追踪到少数阳性病例进一步诊断,未能全部追踪随访,不能作为确诊紧张症的依据,也未能提供患病率的数据。未来研究将结合线上和线下招募方式,进一步对 ABQ 初筛阳性的 ASD 儿童进行紧张症的相关评估和诊断,并定期随访,探索更多可能与紧张症发作相关的个体和环境因素,为这类儿童提供个性化的家庭干预指导建议。

综上所述,紧张症症状在 ASD 儿童中并不少见,合并有紧张症症状的 ASD 儿童情绪行为问题更多,功能损害更严重。本调查结果提示“需要提示来完成动作、运动迟缓、静止不动、运动中卡住、一旦开始就无法停止运动伴随冲动/攻击行为、缄默、凝视、退缩”等行为的增多是早期识别紧张症的临床重要表现。当 ASD 儿童出现这些症状时,需要临床医师早期识别,并进一步进行全面的紧张症的相关评估,以确定是否合并出现紧张症,及时早期干预,从而有助于改善 ASD 儿童及家庭的生活质量和预后。

参 考 文 献

- [1] WALTHER S, STEGMAYER K, WILSON J E, et al. Structure and neural mechanisms of catatonia[J]. *Lancet Psychiatry*, 2019, 6 (7): 610-619. DOI: 10.1016/S2215-0366 (18) 30474-7.
- [2] 宋旭辉, 张日昇, 吕仁慧. 紧张症的研究进展及争议[J]. *中华精神科杂志*, 2018, 51 (3): 204-208. DOI: 10.3760/cma.j.issn.1006-7884.2018.03.010.
- [3] SONG X H, ZHANG R S, LÜ R H. Research progress and controversy of catatonia[J]. *Chin J Psychiatry*, 2018, 51 (3): 204-208. DOI: 10.3760/cma.j.issn.1006-7884.2018.03.010.
- [4] EDINOFF A N, KAUFMAN S E, HOLLIER J W, et al. Catatonia: clinical overview of the diagnosis, treatment, and clinical challenges[J]. *Neurol Int*, 2021, 13 (4): 570-586. DOI: 10.3390/neurolint13040057.
- [5] KAKOOZA-MWESIGE A, WACHTEL L E, DHOSSCHE D M. Catatonia in autism: implications across the life span[J]. *Eur Child Adolesc Psychiatry*, 2008, 17 (6): 327-335. DOI: 10.1007/s00787-008-0676-x.
- [6] MAZZONE L, POSTORINO V, VALERI G, et al. Catatonia in patients with autism: prevalence and management[J]. *CNS Drugs*, 2014, 28 (3): 205-215. DOI: 10.1007/s40263-014-0143-9.
- [7] GHAZIUDIN M. Catatonia: a common cause of late regression in autism[J]. *Front Psychiatry*, 2021, 12: 674009. DOI: 10.3389/fpsy.2021.674009.
- [8] WING L, SHAH A. Catatonia in autistic spectrum disorders[J]. *Br J Psychiatry*, 2000, 176: 357-362. DOI: 10.1192/bjp.176.4.357.
- [9] BILLSTEDT E, GILLBERG I C, GILLBERG C. Autism after adolescence: population-based 13- to 22-year follow-up study of 120 individuals with autism diagnosed in childhood[J]. *J Autism Dev Disord*, 2005, 35 (3): 351-360. DOI: 10.1007/s10803-005-3302-5.
- [10] BREEN J, HARE D J. The nature and prevalence of catatonic symptoms in young people with autism[J]. *J Intellect Disabil Res*, 2017, 61 (6): 580-593. DOI: 10.1111/jir.12362.
- [11] VAQUERIZO-SERRANO J, SALAZAR DE PABLO G, SINGH J, et al. Catatonia in autism spectrum disorders: a systematic review and meta-analysis[J]. *Eur Psychiatry*, 2021, 65 (1): e4. DOI: 10.1192/j.eurpsy.2021.2259.
- [12] SHAH A. Catatonia, shutdown and breakdown in autism: a psycho-ecological approach[M]. Philadelphia: Jessica Kingsley, 2019.
- [13] DHOSSCHE D M. Decalogue of catatonia in autism spectrum disorders[J]. *Front Psychiatry*, 2014, 5: 157. DOI: 10.3389/fpsy.2014.00157.
- [14] SORG E M, CHANEY-CATCHPOLE M, HAZEN E P. Pediatric catatonia: a case series-based review of presentation, evaluation, and management[J]. *Psychosomatics*, 2018, 59 (6): 531-538. DOI: 10.1016/j.psym.2018.05.012.

- [14] QUILLIAM R, QUILLIAM S, TURNBULL M, et al. Catatonia as a presentation of autism in a child: a case report [J]. *AIMS Neurosci*, 2020, 7 (3): 327-332. DOI: 10.3934/Neuroscience.2020019.
- [15] 李咏梅, 李雷俊, 邢艺沛, 等. 孤独症谱系障碍儿童合并紧张症一例 [DB/OL]. 中国临床案例成果数据库, 2022 (2022-02-07) [2024-10-10]. http://journal.yiigle.com/LinkIn.do?linkin_type=cma&DOI=10.3760/cma.j.cmc.2022.e00933.
- LI Y M, LI L J, XING Y P, et al. Catatonia in children with autism spectrum disorder: a case report [DB/OL]. *Chinese clinical case outcome database*, 2022 (2022-02-07) [2024-10-10]. http://journal.yiigle.com/LinkIn.do?linkin_type=cma&DOI=10.3760/cma.j.cmc.2022.e00933.
- [16] DHOSSCHE D M, SHAH A, WING L. Blueprints for the assessment, treatment, and future study of catatonia in autism spectrum disorders [J]. *Int Rev Neurobiol*, 2006, 72: 267-284. DOI: 10.1016/S0074-7742 (05) 72016-X.
- [17] FINK M, TAYLOR M A, GHAZIUDIN N. Catatonia in autistic spectrum disorders: a medical treatment algorithm [J]. *Int Rev Neurobiol*, 2006, 72: 233-244. DOI: 10.1016/S0074-7742 (05) 72014-6.
- [18] SHAH A, WING L. Psychological approaches to chronic catatonia-like deterioration in autism spectrum disorders [J]. *Int Rev Neurobiol*, 2006, 72: 245-264. DOI: 10.1016/S0074-7742 (05) 72015-8.
- [19] BENAROUS X, CONSOLI A, RAFFIN M, et al. Validation of the pediatric catatonia rating scale (PCRS) [J]. *Schizophr Res*, 2016, 176 (2/3): 378-386. DOI: 10.1016/j.schres.2016.06.020.
- [20] 李咏梅, 邹小兵. 孤独症谱系障碍合并紧张症研究进展 [J]. *中华儿科杂志*, 2021, 59 (3): 242-246. DOI: 10.3760/cma.j.cn112140-20201031-00991.
- LI Y M, ZOU X B. Progress in the research of catatonia in autism spectrum disorder [J]. *Chin J Pediatr*, 2021, 59 (3): 242-246. DOI: 10.3760/cma.j.cn112140-20201031-00991.
- [21] TAKAOKA K, TAKATA T. Catatonia in childhood and adolescence [J]. *Psychiatry Clin Neurosci*, 2003, 57 (2): 129-137. DOI: 10.1046/j.1440-1819.2003.01092.x.
- [22] HARE D J, MALONE C. Catatonia and autistic spectrum disorders [J]. *Autism*, 2004, 8 (2): 183-195. DOI: 10.1177/1362361304042722.
- [23] SHEEHAN D V. The Sheehan Disability Scales in the anxiety disease and how to overcome it [M]. New York: Charles Scribner and Sons, 1983: 151.
- [24] SOLER C T, VADLIN S, OLOFSDOTTER S, et al. Psychometric evaluation of the Swedish Child Sheehan Disability Scale in adolescent psychiatric patients [J]. *Scand J Child Adolesc Psychiatr Psychol*, 2021, 9: 137-146. DOI: 10.21307/sjcapp-2021-015.
- [25] SPARKS A, GILBERT EVANS S, JAVADI M, et al. Assessment of anxiety in children with neurodevelopment disorders: rasch analysis of the spence children's anxiety scale [J]. *Front Psychiatry*, 2024, 15: 1240357. DOI: 10.3389/fpsy.2024.1240357.
- [26] HUDSON C C, HALL L, HARKNESS K L. Prevalence of depressive disorders in individuals with autism spectrum disorder: a meta-analysis [J]. *J Abnorm Child Psychol*, 2019, 47 (1): 165-175. DOI: 10.1007/s10802-018-0402-1.
- [27] WACHTEL L E. The multiple faces of catatonia in autism spectrum disorders: descriptive clinical experience of 22 patients over 12 years [J]. *Eur Child Adolesc Psychiatry*, 2019, 28 (4): 471-480. DOI: 10.1007/s00787-018-1210-4.
- [28] OAKLEY B, LOTH E, MURPHY D G. Autism and mood disorders [J]. *Int Rev Psychiatry*, 2021, 33 (3): 280-299. DOI: 10.1080/09540261.2021.1872506.
- [29] DELL'OSSO L, AMATORI G, CARPITA B, et al. The mediating effect of mood spectrum on the relationship between autistic traits and catatonia spectrum [J]. *Front Psychiatry*, 2023, 14: 1092193. DOI: 10.3389/fpsy.2023.1092193.
- [30] WING L, SHAH A. A systematic examination of catatonia-like clinical pictures in autism spectrum disorders [J]. *Int Rev Neurobiol*, 2006, 72: 21-39. DOI: 10.1016/S0074-7742 (05) 72002-X.
- [31] FINK M, TAYLOR M. Catatonia: a clinician's guide to diagnosis and treatment [M]. Cambridge: Cambridge University Press, 2003.
- [32] MOSKOWITZ A K. "Scared stiff": catatonia as an evolutionary-based fear response [J]. *Psychol Rev*, 2004, 111 (4): 984-1002. DOI: 10.1037/0033-295X.111.4.984.
- [33] DELONG R. Autism and familial major mood disorder: are they related [J]. *J Neuropsychiatry Clin Neurosci*, 2004, 16 (2): 199-213. DOI: 10.1176/jnp.16.2.199.
- [34] DHOSSCHE D M. Catatonia: the ultimate yet treatable motor reaction to fear in autism [J]. *Autism*, 2012, 1 (1): 1-5. DOI: 10.4172/2165-7890.1000103.

(责任编辑: 林燕薇)