自闭症儿童能否痊愈? ——来自谱系个体 “最佳结果”及剩余缺陷研究的证据分析*

林云强¹ 朱慧敏¹ 连福鑫²

(¹浙江师范大学杭州幼儿师范学院, 杭州 311231) (²杭州师范大学心理科学研究院, 杭州 311121)

摘要 自闭症谱系障碍预后效果不佳, 通常被认为是一种伴随终生的疾病。不过随着研究的拓展和深入, 部分早期被诊断为自闭症的儿童, 随着年龄增长和相关干预措施的介入, 其认知、适应性等方面均可达到正常发展水平, 并且不再符合自闭症的诊断标准, 即达到了“最佳结果”。但多数个体仍然存在不同程度的剩余缺陷。本文以自闭症预后结果评定和“最佳结果”定义演变为切入点, 分析“最佳结果”个体剩余缺陷的具体表现, 并梳理此类群体的个体特征与结果预测因素, 以期能为自闭症个体的系统干预提供有效依据。

关键词 自闭症儿童; 痊愈; 最佳结果; 剩余缺陷

分类号 B845; R395

1 引言

自闭症谱系障碍(Autism Spectrum Disorder, ASD, 以下简称自闭症)是一种神经发育障碍, 是儿童期常见的发展性疾病之一。美国国家疾病预防控制中心(Centers for Disease Control and Prevention, CDC)2014年的数据显示: 每68名新生儿中, 就有一名患有自闭症。美国精神医学学会(American Psychiatric Association, APA)2013年发布的《精神障碍诊断与统计手册(第五版)》(Diagnostic and statistical manual of mental disorders, DSM-5)将自闭症的基本症状界定为: 社交沟通和社交互动的持续损害, 受限的、重复的行为、兴趣或活动模式(restricted repetitive patterns of behavior, interests, or activities, RRBs) (APA, 2013)。

Kanner (1943)最先对自闭症症状进行详细描述: 儿童从一开始就无法以正常的方式将自己和他人及情境联系起来, 并且渴望保持同一性。随后, Kanner对11名自闭症儿童进行了长达28年的

追踪研究, 结果发现在4岁或5岁之前, 他们整体的行为模式相似, 存在两个基本特征: 自闭和刻板, 进入成年后, 他们也大都保留了上述两个基本特征(Kanner, 1971)。目前的研究大都表明自闭症症状具有极大的稳定性, 甚至有可能伴随终生(Barbaro & Dissanayake, 2016; Kleinman et al., 2008; Zwaigenbaum et al., 2016)。

不过, 也有部分研究得出了相对积极的结果。Kelley, Paul, Fein 和 Naigles (2006)的研究对象选择了一组平均年龄为7岁3个月, 完全融入普通班级, 且无需任何额外教育支持的自闭症儿童, 称他们达到了一种“最佳的”(optimal)状态, 通过对其语言发展能力进行测量, 发现这些儿童获得了完整的语法能力, 只是语义和语用能力仍显著差于正常发展儿童(typical development, TD)。随后的研究中逐渐明确了此类群体的特征, 并采用术语“最佳结果”(optimal outcome)进行界定(Helt et al., 2008)。由于2006年研究中这些儿童被试年龄较小, 未来是否会继续缩小和正常发展儿童的差距, 或者进入青少年时期是否会再次出现行为和认知问题尚不明确, 因此以康涅狄格大学Fein教授和女皇大学Kelley教授领衔的研究团队在三年后再次对2006年研究的部分儿童进行相对全面的测量, 发现部分早期被诊断为自闭症

收稿日期: 2017-11-03

* 教育部人文社会科学研究青年基金项目资助(17YJC880058)。

通信作者: 林云强, E-mail: skellig@126.com

的儿童,随着年龄增长,在接受相关干预措施之后,其认知能力、适应能力等均可达到正常发展水平,并且不再被诊断为自闭症,即真正意义上达到了“最佳结果”(Kelley, Naigles, & Fein, 2010)。但是,这是否意味着自闭症儿童能够实现“痊愈”较具争议。

因此,如何理解自闭症的预后效果和“最佳结果”的定义,达到该结果后还存在哪些剩余缺陷,以及哪些因素可以预测该结果,研究者将就上述问题进行全面梳理,以期能为自闭症个体的系统干预提供有效依据。

2 自闭症预后结果评定和“最佳结果”定义演变

Rutter 和 Lockyer (1967)最先用 4 个等级(good, fair, poor, very poor)对自闭症个体的社交生活和工作及学校中的表现进行评价。随后的研究在此基础上发展出了可操作的整体社交结果标准(overall social outcome),包括独立生活、友谊、职业三个领域,总分从“极好”到“极差”共 5 个等级,其中“极好结果”表示:独立工作、有亲密的友谊和独立生活(Howlin, Goode, Hutton, & Rutter, 2004; Howlin, Mawhood, & Rutter, 2000)。此评分标准侧重于从社会适应能力对自闭症预后结果进行评定。

Lovaas 领导的加州大学洛杉矶分校(University of California, Los Angeles, UCLA)研究团队,最先使用“痊愈”(recovery)一词来描述自闭症儿童的预后结果:在经过早期集中行为干预(Early Intensive Behavioral Intervention, EIBI, 每周 40 个小时以上的一对一干预)之后,19 个自闭症儿童中有 9 人的智商达到正常标准,并且就读于普通班级(Lovaas, 1987)。但是某些高功能自闭症儿童(high function autism, HFA),尽管智商接近正常发展水平,并适应普通班级就读的环境要求,却仍然会表现出明显的自闭症症状,因此仅仅根据智商和学业能力来定义痊愈显然证据不足(Mundy, 1993)。随后的研究验证了 Lovaas 的结论,并将“痊愈”的定义扩展为在认知、语言、适应性、社交和学业五个方面的能力处于正常范围(Sallows & Graupner, 2005)。

继“痊愈”概念出现之后,Fein 及其研究合作者提出并逐渐明确了“最佳结果”这一概念(详见表 1)。Kelley 等(2006)首先描述了自闭症预后结

果的“最佳”状态,侧重于教育安置;其次,Sutera 等(2007)明确提出了“最佳结果”,并要求个体脱离自闭症谱系;再次,Helt 等(2008)从历史诊断和当前结果两个方面对自闭症的“最佳结果”进行了操作性定义,并对可接受的干预服务类型进行详细说明。随后的研究大多基于 Helt 等提出的操作性定义,从历史诊断、当前评估与诊断、教育安置和接受服务、认知能力、适应性五个方面定义“最佳结果”: (1)历史诊断要求 5 岁之前被专家确诊为 ASD,并且存在语言发展迟缓; (2)当前评估和诊断要求不符合 ADOS 中 ASD 的标准; (3)教育安置要求完全随班就读,并且不接受专门针对自闭症的服务,接受的其他服务的类型和时间也有相应的要求; (4)在智力和适应能力的标准化测验中表现正常(Kelley et al., 2010; Fein et al., 2013)。

通过梳理自闭症预后结果评定和“最佳结果”定义演变,可以发现自闭症的预后结果评定方法具有多样性:基于生活适应能力的社交结果评分、针对某项能力发展的标准化测试、专门的自闭症诊断和评估工具。相比之下,“最佳结果”的定义既要求个体适应真实的生活情境,也要求在标准化测试中表现正常,还要求不符合自闭症谱系障碍诊断标准,可以说达到该结果的个体已处于“最佳”的结果水平。但是研究还发现“最佳结果”个体仍存在不同程度的剩余缺陷(residual deficits)(Fein et al., 2013; see also Canfield, Eigsti, de Marchena, & Fein, 2016; Orinstein, Suh, et al., 2015; Orinstein, Tyson, et al., 2015),因此不能将“最佳结果”简单地等同于痊愈。

3 达到“最佳结果”个体剩余缺陷的具体表现

“最佳结果”的研究通常采用年龄、性别、非言语智商相匹配的三组儿童或青少年被试:高功能自闭症个体、达到“最佳结果”个体、正常发展个体,即 HFA 组、OO 组、TD 组,并通过一系列结构化、半结构化、非结构化的评估与测量工具,对三组儿童各项能力发展进行横向比较。研究发现 OO 组既在自闭症的主要障碍方面存在剩余缺陷,如轻微的社会交往障碍,相对不足的语言和沟通能力,较为局限的重复性的行为、兴趣与活动模式;同时还伴随一些诸如注意缺陷以及以焦虑为主要特征的共病症状等。

表 1 自闭症研究之“最佳结果”定义

文献	历史诊断	当前结果			
		诊断与评估	教育安置和接受服务	认知能力	适应性
Kelley et al. (2006)	符合 DSM-IV (1994)中 PDD 的标准。	符合 DSM-IV (1994)中 PDD 的标准。	(1)在与年龄相符的普通班级就读; (2)教师和家长认为和同龄人无差异; (3)不需接受特殊教育支持。		
Sutera et al. (2007)	符合 DSM-IV (1994)中 PDD-NOS 或 AD 的标准。	不符合任何 ASD 的诊断标准。		在认知、语言和适应能力的标准化测试中表现正常。	
Helt et al. (2008)	(1)儿童在童年早期(如 5 岁)由专家(如至少一半的实践针对自闭症)诊断为 ASD; (2)存在早期语言发育迟缓(18 个月无单词, 或者 24 个月无词组); (3)经研究团队对早期报告或视频录像复审, 确认有 ASD 史。	(1)不符合任何 PDD 的诊断标准; (2) ADOS 社交和沟通领域分数不符合 ASD 标准。	(1)可接受针对注意缺陷、组织困难、特定学习困难的特殊教育服务; (2)无需接受针对自闭症的服务; (3)在普通班级就读并且不接受个人辅助(individual assistant)。	VIQ、PIQ、VCSS 分数均在 78 分及以上。	
Kelley et al. (2010)	由专门研究 ASD 的专家确诊有 ASD 史, 并且符合 ADI-R 中关于 ASD 的诊断标准。	不再符合 ADOS-G 中的 ASD 诊断标准。	(1)普通班级就读; (2)学校人员不认为其有自闭症; (3)每周所接受的所有干预或治疗时间不超过 1 小时, 并且不再接受和学业相关的援助。	FSIQ 大于 70 分。	
Fein et al. (2013)	(1)父母提供 5 岁之前由专门研究 ASD 的专家确认为 ASD 的书面证明; (2)存在早期语言发育迟缓(18 个月无单词, 或者 24 个月无词组)。	不符合 ADOS 中 ASD 诊断标准。	(1)普通班级读书; (2)不接受一对一帮助; (3)不接受专门针对 ASD 的教育服务。	VIQ、PIQ、FSIQ 均大于 77 分。	有正常发展的朋友; VCSS 社交和沟通分数大于 77 分。

注: PDD: Pervasive Developmental Disorder, 广泛发展障碍; PDD-NOS: Pervasive Developmental Disorder--Not Otherwise Specified, 非典型广泛发展障碍; AD: Autistic Disorder, 典型自闭症; AS: Asperger's disorder, 阿斯伯格综合征; ADOS: Autism Diagnostic Observation Schedule, 自闭症诊断与观察量表; ADI-R: Autism Diagnostic Interview-Revised, 自闭症诊断访谈量表修订版; VIQ: Verbal Intelligence Quotient, 言语智商; PIQ: Performance Intelligence Quotient, 操作智商; FSIQ: Full-Scale Intelligence Quotient, 总智商; VCSS: Vineland Communication and Socialization Scales, 文兰沟通和社交量表。

3.1 轻微的社会交往障碍

自闭症个体在多种场合下存在社会交流和社交互动持续性的损害, 既表现在社交情感互动中, 如较少分享兴趣、情绪或情感, 不能启动或回应社交互动; 也表现在发展、维持和理解人际关系方面, 如难以调整自己的行为以适应各种社交情境, 难以和同伴展开想象的游戏, 对同伴交往缺乏兴趣等(APA, 2013)。

Orinstein 和 Suh 等(2015)使用友谊描述评定量表(Friendship Description Rating Scale)、Reysen 亲和力量表(Reysen Likability Scale)以及儿童和青少年半结构化临床访谈(Semistructured Clinical Interview for Children & Adolescents), 对达到“最佳结果”的儿童和青少年的社交能力进行研究, 结果显示: 一方面, OO 组参与积极性最高, 友好

温和, 容易接近, 被认为和正常发展同龄人一样受欢迎; 另一方面, OO 组的社交不成熟, 注意力和自制力存在缺陷, 对社会关系的洞察力和友谊描述方面的表现显著差于 TD 组。考虑到社交发起困难是自闭症显著特征, 而 OO 组参与的积极性最高, 这在一定程度上反映了他们有较强的社交动机, 虽然伴随有自控能力问题, 但是整体来看, 其社会交往方面的剩余缺陷较少。

3.2 相对不足的语言和沟通能力

语言和沟通障碍是自闭症的典型特征(APA, 2013)。研究显示, 自闭症个体的语言能力有很大的差异, 25%的自闭症个体有可能终身都无法发展出任何的功能性语言(Tek, Mesite, Fein, & Naigles, 2014), 而口语流畅的自闭症个体在早期也存在一定的语言发育迟缓(Mayo, Chlebowski,

Fein, & Eigsti, 2013), 即使达到了“最佳结果”的个体在词汇、句法、语用以及总体语言能力方面仍存在一定程度的缺陷。

“最佳结果”个体语言和沟通剩余缺陷的研究最初主要采用标准化语言测试, 研究显示 OO 组整体的语言发展水平显著差于 TD 组(Fein et al., 2013; Irvine, Eigsti, & Fein, 2016; Tyson et al., 2014)。在句法能力方面, OO 组使用动词、主语和宾语造句的能力存在“剩余缺陷”(Fein et al., 2013; Kelley et al., 2010; Tyson et al., 2014)。此外, 研究普遍发现 OO 组的接受性词汇知识得分低于 TD 组, 不过在 Canfield 等(2016)的研究中该差异未达到显著性水平($p = 0.08$), 而在 Tyson 等(2014)的研究中则达到了显著性水平($p = 0.05$), 且回归分析显示词汇对核心语言能力有显著预测作用($p = 0.01$)。使用加州语言学习测试(California Verbal Learning Test)对 OO 个体的语言学习特征进行研究, 发现 OO 组的辨别分数(从干扰项中找出目标项, 即再认能力)显著高于 TD 组和 HFA 组, 回归分析显示, 言语记忆和语音记忆分别对核心语言能力有显著预测作用(Tyson et al., 2014)。语用能力研究的标准化测试则未发现剩余缺陷(Kelley et al., 2010; Orinstein, Suh, et al., 2015), 这可能是由于语用需要在具体的社会情境下正确地使用语言, 并且符合倾听者个人的知识储备和兴趣(Geurts & Embrechts, 2010), 而标准化的语言测试对于语用的情境性和灵活性的控制是有限的(Young, Diehl, Morris, Hyman, & Bennetto, 2005)。

随后的研究强调, 自发性语言, 如叙事(narratives)是测量语言能力最具生态效度的方式, 并且研究显示叙事能力和语用能力直接相关(Botting, 2002)。Suh 等(2014)研究发现 OO 组在对无字图画书进行叙事的过程中, 自我修正(self-corrections)显著多于 HFA 组和 TD 组($p = 0.03$), 并且出现奇怪语言(如过于正式的语言、广告语和自创单词)的比例最高, 为 6/15。有研究提出假设, 自我修正是听者本位的, 有助于倾听者获取信息, 反映了普遍的语言能力, 并非属于语用缺陷(Lake, Humphreys, & Cardy, 2011)。因此, OO 组较多的自我修正可能更多反映的是冲动的人格特质。Canfield 等(2016)则将叙事语法(story grammar)和叙事完整性共同定义为“故事优秀度”(story goodness), 从优秀度、衔接度、精确度、奇异度

四个方面, 使用 5 点量表进行评分, 发现 OO 组在优秀度($p = 0.04$)和衔接度($p = 0.04$)方面的得分显著低于 TD 组, 并且通过对比叙述时是否看图画书的得分情况, 发现叙事能力在一定程度上依赖于工作记忆。

可见, 达到“最佳结果”的个体, 整体语言能力、造句能力、词汇知识、叙事能力都表现出相对不足, 其核心语言能力在一定程度上依赖于词汇知识、言语记忆和语音记忆, 叙事能力则和工作记忆有一定的相关。在研究工具的不断多样化和改进过程中, 如使用自发性叙事, 将会发现更多的语言和沟通剩余缺陷。

3.3 较为局限的重复性的行为、兴趣与活动模式

行为、兴趣与活动模式的局限性和重复性(RRBs)是自闭症谱系障碍的常见症状之一, 具体表现在两个方面: 第一, 刻板或重复的行为, 包括简单的躯体刻板运动(如拍手)、重复操作物体(如旋转硬币)和使用言语(如机械地模仿语言、刻板地使用单词或短语); 第二, 过度地坚持常规和局限的行为模式, 表现在抗拒改变(如作息、饮食、物品摆放等不轻易改变)和仪式化的行为模式(如绕圈踱步)(APA, 2013)。

Troyb, Orinstein, Tyson 和 Eigsti 等(2014)使用 ADOS、ADI-R、重复刻板行为量表修订版(Repetitive Behavior Scale-Revised, RBS-R)和耶鲁特殊兴趣调查表(Yale Special Interests Survey, YSIS), 对三组被试历史(2~6 岁)和目前(13~14 岁)的 RRBs 进行研究, 结果发现不论哪个时间段, OO 组都存在 RRBs, 在进入青少年期后, 其进餐时间和睡眠时间存在仪式化行为, 但其 RRBS 得分始终低于 ASD 组, 说明 RRBs 可能继续伴随其长时间的发展。

3.4 其他

抽动障碍、注意缺陷和多动障碍、抑郁症等都是自闭症的高发共病症, 达到“最佳结果”的自闭症个体同样会伴随其他一系列神经发展病症。Orinstein 和 Tyson 等(2015)使用学龄期儿童目前及终身版的情感障碍与精神分裂症时间表(The Schedule for Affective Disorders and Schizophrenia for School-Age Children-Present and Lifetime version)对三组被试的四类精神病症进行了研究, 包括焦虑障碍(如特殊恐怖症)、情绪障碍(如重度抑郁症)、外化障碍(如注意缺陷和多动障碍)、其他障碍(包括抽动障碍等), 结果发现和 TD 组相比,

OO组更多患有抽动障碍、注意缺陷和多动障碍、特殊恐怖症,但患其他障碍的比例无显著差异。随着时间的发展,“最佳结果”个体的其他神经病症有可能治愈,但是注意缺陷和沟通障碍等病症仍有可能持续存在,这和 Fein, Dixon, Paul 和 Levin (2005)的研究结果相吻合。

Troyb, Orinstein, Tyson 和 Helt 等(2014)使用伍德科克—约翰逊第三版成就测验(Woodcock-Johnson III)对学业能力进行测量,使用书面语言测试第三版(Test of Written Language)对阅读理解、解决数学问题、和书面表达的能力进行测试,结果显示 OO 组和 TD 组在所有测验项目中均无显著差异,说明 OO 组在学业方面不再存在剩余缺陷。Suh 等(2016)使用大五人格问卷(Big Five Inventory)对三组儿童人格的五个因素,即神经质、外向性、开放性、宜人性和责任感进行测量,结果显示 OO 组在 BFI 中“外向性”(如,爱说话)得分显著高于 TD 组,并且存在情绪不稳定的倾向。

综上所述,达到“最佳结果”的个体,在社交方面,更加主动、友好、外向,和正常个体一样受欢迎;在学业方面,其阅读理解、解决数学问题、书面表达能力正常,有助于适应普通班级学习要求。但是他们对社会关系的洞察力相对不足,友谊质量不高。由于 OO 个体在造句、接受性词汇知识、在谈话中保持轮替等方面都体现出语言和沟通能力相对不足,并且存在注意力、自制力以及不成熟的障碍,还伴随情绪不稳定,这些因素均可能会影响到他们的社交及沟通。除此之外,OO 个体在行为和兴趣方面还存在少量仪式化的行为。这些剩余缺陷为进一步的干预和研究指明了方向。

4 “最佳结果”的预测因素

自闭症及“最佳结果”的研究通常从自闭症个体特征和早期干预两方面来探讨其对结果的影响和预测,前者包括自闭症症状及其严重程度、诊断类型、语言发展、动作发展、智商及共病症;后者则包括诊断时间、开始干预的时间、干预方法及干预密集度等。除此之外,自闭症儿童家庭因素也会影响结果。

4.1 个体特征对“最佳结果”的影响

研究显示在早期阶段,较少的刻板行为、症状严重程度为轻度或中度、被诊断为 PDD-NOS

而非 AD、较好的语言能力以及动作发展水平都是“最佳结果”的积极预测因素,但智商的预测作用存在一定争议,而共病症的存在通常则是消极的预测因素。

在自闭症症状方面,RRBs 对之后的结果有显著的预测作用,Anderson, Liang 和 Lord (2014)指出 3 岁时较少的刻板行为可以预测之后“非常积极”的结果, Moulton, Barton, Robins, Abrams 和 Fein (2016)也发现早期 OO 组在 DSM-IV 中 RRBs 的得分显著低于 ASD 组。

症状的严重程度是结果影响因素之一。Sutera 等(2007)和 Helt 等(2008)通过对比 OO 组和 ASD 组早期症状,发现组间差异未达到显著性水平。随后 Fein 等(2013)的研究指出 OO 组和 ASD 组早期虽然在沟通能力和刻板行为方面无显著性差异,但前者社交方面的症状较轻。Mukaddes, Tutkunkardas, Sari, Aydin 和 Kozanoglu (2014)研究发现 90%的 OO 组被试其早期症状处于轻度和中度水平。Moulton 等(2016)对比两组的 CARS 分数,发现 OO 组得分显著低于 ASD 组。

诊断类型相关的研究结果则显示,2 岁时诊断为 PDD-NOS 的被试,在 4 岁时有 22%在达到“最佳结果”,而被诊断为 AD 的被试达到“最佳结果”的比例仅为 14% (Moulton et al., 2016),即诊断为 PDD-NOS 比诊断为 AD 更容易达到“最佳结果”(Helt et al., 2008; Sutera et al., 2007)。

早期语言发展和动作发展对自闭症结果也有显著的预测作用。Helt 等(2008)指出早期语言理解能力和口语模仿能力可以预测“最佳结果”,Mukaddes 等(2014)发现第一个词和第一个短语出现时间和之后结果之间的相关显著,即 OO 组早期沟通和语言能力发展显著优于 ASD 组,其他研究也得出相同的结果(Levy et al., 2010; Magiati, Tay, & Howlin, 2014)。达到“最佳结果”的个体,其早期的动作发展,尤其是精细动作的发展显著优于 ASD 组(Helt et al., 2008; Moulton et al., 2016; Sutera et al., 2007)。

智商是自闭症结果的主要影响因素,但不是唯一因素,因为许多高智商的自闭症个体仍出现较差的结果(Levy et al., 2010)。Magiati 等(2014)在对以往自闭症结果文献回顾的基础上,就认为自闭症儿童早期智商对结果的预测作用尚存争议。部分研究甚至指出早期智商的预测作用不明

显(Moulton et al., 2016),但也有部分研究则称其为强有力的预测因素(Helt et al., 2008; Suter et al., 2007),这可能和智商测量工具、被试类型不同等有关。相关的精神疾病,如抽动症、智力迟缓,或其他共病症则对结果有消极影响(Helt et al., 2008; Levy et al., 2010; Mukaddes et al., 2014)。

4.2 早期干预对于“最佳结果”的影响

越早接受干预和治疗的儿童,其预后结果越好:体现在共同注意、社交水平(眼神接触、自由游戏)、认知能力(运动模仿、声音模仿、回应社交问题、跟随指令)、运动能力、理解和表达能力以及症状严重程度等方面(Granpeesheh, Dixon, Tarbox, Kaplan, & Wilke, 2009; Perry et al., 2011; Macdonald, Parry-Cruwys, Dupere, & Ahearn, 2014)。研究发现,在父母发现儿童患有发展性障碍的时间相当的情况下,OO组比HFA组更早得到父母的重视,从而较早接受了专家的确诊以及接受了较早和较多的集中干预(Orinstein et al., 2014)。

在干预方法方面,Helt等(2008)通过回顾自闭症干预结果的研究发现,大部分的“最佳结果”发生在使用行为干预方法之后。但Orinstein等(2014)指出某些OO个体同时接受了两种及以上的干预方法。Matson和Goldin(2014)也指出,早期集中行为干预(Early Intensive Behavioral Interventions, EIBI)作为自闭症儿童最有效的治疗方法已被广泛使用,其标志就是同时采用多种行为方法进行干预。

接受干预的密集程度对预后效果的预测作用不明显,部分研究显示OO组和HFA组的干预密度的组间差异在整体上并未达到显著水平(Orinstein et al., 2014; Perry et al., 2011)。但关于干预密集程度是否能够预测结果,尚存在三点疑问:第一,干预结果通常和干预的“质”和“量”有关,可能由“质”决定,可能两者相互影响共同决定,同时“质”也可能受到“量”的影响,两者的关系尚未明确;第二,有更多缺陷或者进步更慢的儿童有可能接受更密集的干预,这使得密集度和结果的关系更加复杂;第三,按照干预的密集度进行随机分组,会涉及到研究的伦理问题。除了诊断时间、干预开始的时间,干预方法,干预密集度之外,干预人员的质量、干预的场所在一定程度上可能会影响到干预效果。

相关研究还指出,家庭因素,如父母的参与

度等也是需要考虑的因素(Kirby, 2016; Narzisi, Grossi, Buscema, Calderoni, & Muratori, 2015)。Mukaddes等(2014)指出父母的社会地位和受教育程度决定了是否能为儿童的干预提供充足的经济支持,并且还影响了干预的动机和参与度。总之,个体特征、早期干预、家庭情况三者共同作用于预后效果,儿童个体特征是早期干预各方面选择的依据,早期干预相应地提高了儿童各方面能力发展,家庭情况则提供外部支持,共同促进儿童达到“最佳结果”。

5 小结与讨论

自闭症能否被治愈一直是颇具争议的话题。一方面,自闭症预后效果差,通常被认为终生无法治愈;而另一方面,越来越多最初被诊断为自闭症的儿童,脱离了自闭症谱系诊断,达到了“最佳结果”。对于此类研究,我们认为未来研究需重点厘清以下问题。

第一,如何界定和证明自闭症儿童获得了“最佳结果”或痊愈?这涉及到诊断工具及诊断的准确性、诊断标准的变化、以及在此基础上达成的对“最佳结果”界定的共识。首先,研究证明,自闭症诊断结论具有较高的稳定性。其次,Fein及其研究团队,在选择“最佳结果”被试时,有专业的临床医生、实验人员以及一系列专业的评估工具,如ADOS, ADI-R,降低了最初的误诊的可能性,因此得出的研究有较高的信度。然而,当历史诊断和当前诊断标准不一致时(如DSM-IV和DSM-5),是否会影响“最佳结果”的比例分布,即所谓的“最佳结果”是否是由于诊断标准变化所致尚需进一步探讨。

第二,究竟有多少自闭症儿童可以达到“最佳结果”?通过梳理自闭症预后结果的文献,发现自闭症个体能独立生活比例最高为16%,拥有长期亲密友谊或结婚的比例最高为33%~38%,有全职工作的比例最高为27%(Henninger & Natalie, 2013; Howlin & Moss, 2012)。使用社交结果评分的文献中达到较好结果(good/very good)的自闭症个体平均比例为19.7%(Steinhausen, Mohr Jensen, & Lauritsen, 2016)。Zwaigenbaum等(2016)对373名儿童在18个月、1岁、3岁三个时间段使用DSM-IV-R进行诊断,发现有2.2%脱离自闭症谱系。根据“最佳结果”的定义,以上数据只能是在某

种程度上预示了“最佳结果”个体的存在,或许还不能完全等同于“最佳结果”。由于“最佳结果”研究被试人数最多为34人,最少仅有13人,且年龄跨度大,最大超过13岁。因此,“最佳结果”个体的比例分布有待进一步调查研究。

第三,获得“最佳结果”个体的剩余缺陷为何尚未消除,这和自闭症儿童的核心缺陷有何关系,是否需要进一步为这些剩余缺陷提供必要的干预服务措施?首先,研究方法及工具的不断改进有利于发现更多的剩余缺陷,如在标准化语言测试中表现正常的“最佳结果”被试,在叙事中则表现出一定的语用困难。其次,自闭症的核心缺陷在“最佳结果”个体身上仍有体现,对于达到该结果的个体的进一步干预,是应该集中于核心缺陷方面,还是通过解决其他缺陷来间接解决核心缺陷,尚需进一步探讨。

第四,如何使更多的自闭症儿童达到“最佳结果”,自闭症儿童的个体特征、早期干预以及家庭因素在多大程度上可以预测“最佳结果”?回顾以往的研究,自闭症个体的早期智商和干预密集度的预测作用尚存争议,各个可能的影响因素是否以某种组合的形式共同预测结果尚未可知,因此,未来的研究一方面可将元分析技术与大样本的结构建模作为研究方法,一方面可使用多层回归分析来确定潜在的结果预测因子,以进一步探究“最佳结果”的影响及预测因素。

第五,获得“最佳结果”的儿童是否和未达到该结果的自闭症儿童存在生物学上的本质差异。目前已有研究针对“最佳结果”儿童、自闭症儿童、正常发展儿童在婴儿期的头围、身长和体重增长进行研究(Mraz, Dixon, Dumont-Mathieu, & Fein, 2009)。未来的研究可以使用脑功能成像技术,如功能核磁共振(functional magnetic resonance imaging, fMRI)、光学成像技术(optical brain image)、正电子发射层析成像(positron emission tomography, PET)、脑电图(electroencephalogram, EEG)、脑磁图(magnetoencephalography, MEG)等对自闭症儿童和达到“最佳结果”的儿童的脑部功能发展进行更加细致的研究,以发现两类儿童是否存在生物学差异。

综上,自闭症虽然预后效果差,一直以来被认为是伴随终生的疾病,但是确实存在部分早期被诊断为自闭症的儿童,随着年龄增长和相关干

预措施的介入,不再符合自闭症诊断标准,并且拥有正常的认知能力和适应能力,即达到了“最佳结果”。但就目前研究结果而言,首先,仅有一小部分自闭症儿童可以达到该结果;其次,达到该结果的儿童只是不再符合完整的诊断标准,但仍存在自闭症核心缺陷和共病症状,尚未达到完全的“痊愈”;再次,能否达到“最佳结果”,与自闭症个体本身的特征及干预特征相关,只有将自身特征和干预实施适当结合,才可能达到该结果;最后,“最佳结果”的研究主要来自美国和加拿大的研究团队,土耳其和瑞典的研究人员也进行了相关研究,而我国目前尚待引入自闭症的“最佳结果”或者“痊愈”的概念,以上研究可为我国自闭症个体的系统干预提供有效依据。

参考文献

- American Psychiatric Association. (2013). *Diagnostic and statistical manual of mental disorders* (5th ed.). Washington, DC: American Psychiatric Association.
- Anderson, D. K., Liang, J. W., & Lord, C. (2014). Predicting young adult outcome among more and less cognitively able individuals with autism spectrum disorders. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 55(5), 485-494.
- Barbaro, J., & Dissanayake, C. (2016). Diagnostic stability of autism spectrum disorder in toddlers prospectively: Identified in a community-based setting: Behavioural characteristics and predictors of change over time. *Autism*, 21(7), 830-840.
- Botting, N. (2002). Narrative as a tool for the assessment of linguistic and pragmatic impairments. *Child Language Teaching and Therapy*, 18(1), 1-21.
- Canfield, A. R., Eigsti, I. M., de Marchena, A., & Fein, D. (2016). Story goodness in adolescents with autism spectrum disorder (ASD) and in optimal outcomes from ASD. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 59(3), 533-545.
- Fein, D., Barton, M., Eigsti, I. M., Kelley, E., Naigles, L., Schultz, R. T., ... Tyson, K. (2013). Optimal outcome in individuals with a history of autism. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 54(2), 195-205.
- Fein, D., Dixon, P., Paul, J., & Levin, H. (2005). Brief report: Pervasive developmental disorder can evolve into ADHD: Case illustrations. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 35(4), 525-534.
- Geurts, H. M., & Embrechts, M. (2010). Pragmatics in pre-schoolers with language impairments. *International Journal of Language & Communication Disorders*, 45(4), 436-447.

- Granpeesheh, D., Dixon, D. R., Tarbox, J., Kaplan, A. M., & Wilke, A. E. (2009). The effects of age and treatment intensity on behavioral intervention outcomes for children with autism spectrum disorders. *Research in Autism Spectrum Disorders, 3*(4), 1014–1022.
- Helt, M., Kelley, E., Kinsbourne, M., Pandey, J., Boorstein, H., Herbert, M., ... Fein, D. (2008). Can children with autism recover? If so, how? *Neuropsychology Review, 18*(4), 339–366.
- Henninger, N. A., & Taylor, J. L. (2013). Outcomes in adults with autism spectrum disorders: A historical perspective. *Autism, 17*(1), 103–116.
- Howlin, P., Goode, S., Hutton, J., & Rutter, M. (2004). Adult outcome for children with autism. *Journal of Child Psychology and Psychiatry, 45*(2), 212–229.
- Howlin, P., Mawhood, L., & Rutter, M. (2000). Autism and developmental receptive language disorder—a follow-up comparison in early adult life. II: Social, behavioural, and psychiatric outcomes. *Journal of Child Psychology and Psychiatry, 41*(5), 561–578.
- Howlin, P., & Moss, P. (2012). Adults with autism spectrum disorders. *Canadian Journal of Psychiatry, 57*(5), 275–283.
- Irvine, C. A., Eigsti, I. M., & Fein, D. A. (2016). *Uh, um*, and autism: Filler disfluencies as pragmatic markers in adolescents with optimal outcomes from autism spectrum disorder. *Journal of Autism & Developmental Disorders, 46*(3), 1061–1070.
- Kanner, L. (1943). Autistic disturbances of affective contact. *Childhood Psychosis, 2*, 217–250.
- Kanner, L. (1971). Follow-up study of eleven autistic children originally reported in 1943. *Journal of Autism & Childhood Schizophrenia, 1*(2), 119–145.
- Kelley, E., Naigles, L., & Fein, D. (2010). An in-depth examination of optimal outcome children with a history of autism spectrum disorders. *Research in Autism Spectrum Disorders, 4*(3), 526–538.
- Kelley, E., Paul, J. J., Fein, D., & Naigles, L. R. (2006). Residual language deficits in optimal outcome children with a history of Autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders, 36*(6), 807–828.
- Kirby, A. V. (2016). Parent expectations mediate outcomes for young adults with autism spectrum disorder. *Journal of Autism and Developmental Disorders, 46*(5), 1643–1655.
- Kleinman, J. M., Ventola, P. E., Pandey, J., Verbalis, A. D., Barton, M., Hodgson, S., ... Fein, D. (2008). Diagnostic stability in very young children with autism spectrum disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders, 38*(4), 606–615.
- Lake, J. K., Humphreys, K. R., & Cardy, S. (2011). Listener vs. speaker-oriented aspects of speech: Studying the disfluencies of individuals with autism spectrum disorders. *Psychonomic Bulletin & Review, 18*(1), 135–140.
- Levy, S. E., Giarelli, E., Lee, L. C., Schieve, L. A., Kirby, R. S., Cunniff, C., ... Rice, C. E. (2010). Autism spectrum disorder and co-occurring developmental, psychiatric, and medical conditions among children in multiple populations of the United States. *Journal of Developmental and Behavioral Pediatrics, 31*(4), 267–275.
- Lovaas, O. I. (1987). Behavioral treatment and normal educational and intellectual functioning in young autistic children. *Journal of Consulting & Clinical Psychology, 55*(1), 3–9.
- MacDonald, R., Parry-Cruwys, D., Dupere, S., & Ahearn, W. (2014). Assessing progress and outcome of early intensive behavioral intervention for toddlers with autism. *Research in Developmental Disabilities, 35*(12), 3632–3644.
- Magiati, I., Tay, X. W., & Howlin, P. (2014). Cognitive, language, social and behavioural outcomes in adults with autism spectrum disorders: A systematic review of longitudinal follow-up studies in adulthood. *Clinical Psychology Review, 34*(1), 73–86.
- Matson, J. L., & Goldin, R. L. (2014). Early intensive behavioral interventions: Selecting behaviors for treatment and assessing treatment effectiveness. *Research in Autism Spectrum Disorders, 8*(2), 138–142.
- Mayo, J., Chlebowski, C., Fein, D. A., & Eigsti, I. M. (2013). Age of first words predicts cognitive ability and adaptive skills in children with ASD. *Journal of Autism and Developmental Disorders, 43*(2), 253–264.
- Moulton, E., Barton, M., Robins, D. L., Abrams, D. N., & Fein, D. (2016). Early characteristics of children with ASD who demonstrate optimal progress between age two and four. *Journal of Autism & Developmental Disorders, 46*(6), 2160–2173.
- Mraz, K. D., Dixon, J., Dumont-Mathieu, T., & Fein, D. (2009). Accelerated head and body growth in infants later diagnosed with autism spectrum disorders: A comparative study of optimal outcome children. *Journal of Child Neurology, 24*(7), 833–845.
- Mukaddes, N. M., Tutkunkardas, M. D., Sari, O., Aydin, A., & Kozanoglu, P. (2014). Characteristics of children who lost the diagnosis of autism: A sample from Istanbul, Turkey. *Autism Research and Treatment, 2014*, Article ID 472120.
- Mundy, P. (1993). Normal versus high-functioning status in children with autism. *American Journal on Mental Retardation, 97*(4), 381–384.
- Narzisi, A., Grossi, E., Buscema, M., Calderoni, S., & Muratori, F. (2015). Outcome predictors in autism spectrum disorders preschoolers undergoing treatment as usual: Insights from an observational study using artificial neural networks. *Neuropsychiatric Disease and Treatment, 11*, 1587–1599.

- Orinstein, A. J., Helt, M., Troyb, E., Tyson, K. E., Barton, M. L., Eigsti, I., ... Fein, D. A. (2014). Intervention for optimal outcome in children and adolescents with a history of autism. *Journal of Developmental & Behavioral Pediatrics, 35*(4), 247–256.
- Orinstein, A. J., Suh, J., Porter, K., De Yoe, K. A., Tyson, K. E., Troyb, E., ... Fein, D. A. (2015). Social function and communication in optimal outcome children and adolescents with an autism history on structured test measures. *Journal of Autism and Developmental Disorders, 45*(8), 2443–2463.
- Orinstein, A., Tyson, K. E., Suh, J., Troyb, E., Helt, M., Rosenthal, M., ... Fein, D. A. (2015). Psychiatric symptoms in youth with a history of autism and optimal outcome. *Journal of Autism and Developmental Disorders, 45*(11), 3703–3714.
- Perry, A., Cummings, A., Geier, J. D., Freeman, N. L., Hughes, S., Managhan, T., ... Williams, J. (2011). Predictors of outcome for children receiving intensive behavioral intervention in a large, community-based program. *Research in Autism Spectrum Disorders, 5*(1), 592–603.
- Rutter, M., & Lockyer, L. (1967). A five to fifteen year follow-up study of infantile psychosis. I. Description of sample. *The British Journal of Psychiatry, 113*(504), 1169–1182.
- Sallows, G. O., & Graupner, T. D. (2005). Intensive behavioral treatment for children with autism: Four-year outcome and predictors. *American Journal of Mental Retardation, 110*(6), 417–438.
- Steinhausen, H. C., Mohr Jensen, C., & Lauritsen, M. B. (2016). A systematic review and meta-analysis of the long-term overall outcome of autism spectrum disorders in adolescence and adulthood. *Acta Psychiatrica Scandinavica, 133*(6), 445–452.
- Suh, J., Eigsti, I. M., Naigles, L., Barton, M., Kelley, E., & Fein, D. (2014). Narrative performance of optimal outcome children and adolescents with a history of an autism spectrum disorder (ASD). *Journal of Autism and Developmental Disorders, 44*(7), 1681–1694.
- Suh, J., Orinstein, A., Barton, M., Chen, C. M., Eigsti, I. M., Ramirez-Esparza, N., & Fein, D. (2016). Ratings of broader autism phenotype and personality traits in optimal outcomes from autism spectrum disorder. *Journal of Autism and Developmental Disorders, 46*(11), 3505–3518.
- Sutera, S., Pandey, J., Esser, E. L., Rosenthal, M. A., Wilson, L. B., Barton, M., ... Fein, D. (2007). Predictors of optimal outcome in toddlers diagnosed with autism spectrum disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders, 37*(1), 98–107.
- Tek, S., Mesite, L., Fein, D., & Naigles, L. (2014). Longitudinal analyses of expressive language development reveal two distinct language profiles among young children with autism spectrum disorders. *Journal of Autism & Developmental Disorders, 44*(1), 75–89.
- Troyb, E., Orinstein, A., Tyson, K., Eigsti, I. M., Naigles, L., & Fein, D. (2014). Restricted and repetitive behaviors in individuals with a history of ASDs who have achieved optimal outcomes. *Journal of Autism and Developmental Disorders, 44*(12), 3168–3184.
- Troyb, E., Orinstein, A., Tyson, K., Helt, M., Eigsti, I. M., Stevens, M., & Fein, D. (2014). Academic abilities in children and adolescents with a history of autism spectrum disorders who have achieved optimal outcomes. *Autism, 18*(3), 233–243.
- Tyson, K., Kelley, E., Fein, D., Orinstein, A., Troyb, E., Barton, M., ... Rosenthal, M. (2014). Language and verbal memory in individuals with a history of autism spectrum disorders who have achieved optimal outcomes. *Journal of Autism and Developmental Disorders, 44*(3), 648–663.
- Young, E. C., Diehl, J. J., Morris, D., Hyman, S. L., & Bennetto, L. (2005). The use of two language tests to identify pragmatic language problems in children with autism spectrum disorders. *Language Speech & Hearing Services in Schools, 36*(1), 62–72.
- Zwaigenbaum, L., Bryson, S. E., Brian, J., Smith, I. M., Roberts, W., Szatmari, P., ... Vaillancourt, T. (2016). Stability of diagnostic assessment for autism spectrum disorder between 18 and 36 months in a high-risk cohort. *Autism Research, 9*(7), 790–800.

Can children with autism spectrum disorder recover? Research evidence based on “optimal outcomes” and residual deficits of individuals in spectrum

LIN Yunqiang¹; ZHU Huimin¹; LIAN Fuxin²

(¹ Hangzhou College for Kindergarten Teachers, Zhejiang Normal University, Hangzhou 311231, China)

(² Institutes of Psychology Sciences, Hangzhou Normal University, Hangzhou 311121, China)

Abstract: Autism Spectrum Disorders (ASD) are generally assumed to be lifelong due to its poor prognosis. However, more sophisticated research has shown that autistic children diagnosed and treated at earlier ages are able to enter the normal range of cognitive and adaptive skills. With proper intervention, meanwhile, they lose their autism diagnosis and achieve “optimal outcomes.” That said, most of them still display varying degrees of residual deficits. This paper first describes ASD outcomes and traces the definitional evolution of “optimal outcomes.” It then analyses the distribution of optimal outcome children, with a particular focus on residual deficits. In so doing, the paper teases out individual characteristics and predictors of outcome in this group to provide empirical and effective evidence for systematic intervention in children with ASD.

Key words: children with autism spectrum disorder; recovery; optimal outcomes; residual deficits