

孤独症谱系障碍患儿静止脸试验发声行为特征分析

翟梦瑶¹ 仇娜娜¹ 唐传高² 翁娇¹ 章丽丽³ 封敏¹
肖湘¹ 肖婷¹ 郑文明² 柯晓燕¹

(1. 南京医科大学附属脑科医院儿童心理卫生研究中心, 江苏 南京 210029;
2. 东南大学生物科学与医学工程学院, 江苏 南京 210096; 3. 无锡市儿童医院, 江苏 无锡 214023)

[摘要] **目的** 研究孤独症谱系障碍(ASD)患儿2岁前静止脸试验(SFP)发声行为特征及其与确诊时ASD症状严重程度之间的相关性。**方法** 前瞻性纳入43例7~23月龄可疑ASD患儿(可疑ASD组)及37例正常对照儿童(TD组), 测量两组静止脸试验(SFP)下发声行为的时长及频率, 随访至2岁, 确诊34例ASD(ASD组)。使用孤独症诊断观察量表(ADOS)评估ASD组患儿症状严重程度, 分析ASD组患儿2岁前发声行为特征及其与ASD症状严重程度的关系。**结果** 与TD组相比, ASD组SFP下有意义语言及朝向人发声时长及频率降低, 朝向物发声时长增加(均 $P<0.05$)。Spearman相关分析显示, ASD组总发声、非语言发声、呀呀学语、朝向人发声、朝向物发声时长及频率与ADOS语言和沟通维度呈负相关(均 $P<0.05$); 总发声、呀呀学语、朝向人发声时长及频率, 朝向物发声时长与ADOS相互性社会互动维度呈负相关(均 $P<0.05$); 总发声频率及呀呀学语时长、朝向人发声时长及频率与ADOS游戏维度呈负相关(均 $P<0.05$); 总发声及非语言发声频率、朝向人发声时长及频率与ADOS刻板行为和局限兴趣维度呈负相关(均 $P<0.05$)。多元线性回归分析发现, 总发声频率是ADOS语言和沟通维度的负向预测因子($P<0.001$); 朝向人发声时长是ADOS相互性社会互动维度的负向预测因子($P<0.05$)。**结论** SFP可以更好地突出ASD患儿2岁前的发声行为异常, 且这些异常能够早期预测ASD症状的严重程度。**[中国当代儿科杂志, 2020, 22(4): 361-367]**

[关键词] 孤独症谱系障碍; 静止脸试验; 发声行为; 儿童

Characteristics of vocalization in children with autism spectrum disorder during the still-face paradigm

ZHAI Meng-Yao, QIU Na-Na, TANG Chuan-Gao, WENG Jiao, ZHANG Li-Li, FENG Min, XIAO Xiang, XIAO Ting, ZHENG Wen-Ming, KE Xiao-Yan. Child Mental Health Research Center, Brain Hospital Affiliated to Nanjing Medical University, Nanjing 210029, China (Ke X-Y, Email: kexiaoyan@njmu.edu.cn)

Abstract: Objective To study the characteristics of vocalization during the still-face paradigm (SFP) before the age of 2 years and their correlation with the severity of autism spectrum disorder (ASD) symptoms at diagnosis in children with ASD. **Methods** A total of 43 children aged 7-23 months, who were suspected of ASD, were enrolled as the suspected ASD group, and 37 typical development (TD) children, aged 7-23 months, were enrolled as the TD group. The frequency and durations of vocalization in the SFP were measured. The children in the suspected ASD group were followed up to the age of 2 years, and 34 children were diagnosed with ASD. Autism Diagnostic Observation Schedule (ADOS) was used to assess the severity of symptoms. The correlation of the characteristics of vocalization before the age of 2 years with the severity of ASD symptoms was analyzed. **Results** Compared with the TD group, the ASD group had significant reductions in the frequency and durations of meaningful vocalization and vocalization towards people and a significant increase in the duration of vocalization toward objects ($P<0.05$). The Spearman correlation analysis showed that in the ASD group, the frequency and durations of total vocalization, non-speech vocalization,

[收稿日期] 2020-01-02; **[接受日期]** 2020-02-26

[基金项目] 国家重点研发计划“重大慢性非传染性疾病防控研究”重点专项《儿童脑发育障碍的早期识别和综合干预》项目(2016YFC1306205); 江苏省科教强卫工程医学重点人才项目(ZDRCA2016076)。

[作者简介] 翟梦瑶, 女, 硕士研究生。

[通信作者] 柯晓燕, 女, 教授, 主任医师。Email: kexiaoyan@njmu.edu.cn。

babbling, vocalization towards people, and vocalization towards objects were negatively correlated with the score of communication in ADOS ($P<0.05$). The frequency and durations of total vocalization, babbling, and vocalization towards people and the duration of vocalization towards objects were negatively correlated with the score of reciprocal social interaction in ADOS ($P<0.05$). The frequency of total vocalization, the duration of babbling, and the frequency and duration of vocalization towards people were negatively correlated with the score of play in ADOS ($P<0.05$). The frequency of total vocalization and non-speech vocalization and the frequency and durations of vocalization towards people were negatively correlated with the score of stereotyped behaviors and restricted interests in ADOS ($P<0.05$). The multiple linear regression analysis showed that the frequency of total vocalization was a negative predictive factor for the score of communication in ADOS ($P<0.001$), and the duration of vocalization towards people was a negative predictive factor for the score of reciprocal social interaction in ADOS ($P<0.05$). **Conclusions** SFP can better highlight the abnormal vocalization of ASD children before the age of 2 years, and such abnormalities can predict the severity of ASD symptoms early. [Chin J Contemp Pediatr, 2020, 22(4): 361-367]

Key words: Autism spectrum disorder; Still-face paradigm; Vocalization; Child

孤独症谱系障碍 (autism spectrum disorder, ASD) 是一种起病于儿童早期的神经发育障碍性疾病, 以缺损的社会交往和社会交流能力、重复狭窄的兴趣行为模式为核心临床特征^[1]。语言交流能力异常是 ASD 患儿家长早期发现的最为普遍的症状, 56% ASD 父母早在患儿 10~16 月龄时便首次表现出对其语言交流能力不足的担忧^[2]。因此, 语言交流能力的缺损不仅为 ASD 患儿的临床症状表现, 也是引起家长担忧及就诊的主要原因。静止脸试验 (still-face paradigm, SFP) 可以诱发儿童典型的社交压力反应及增加消极情绪行为^[3-5]。SFP 静止期, ASD 患儿较正常儿童表现出更为典型的静止脸效应^[6-7]。既往关于 ASD 早期语言行为的研究均是在正常互动情境下进行的^[8-10], 但 ASD 作为一种以社交能力缺损为核心症状的疾病, 我们假设类似 SFP 的社交挫折情境会更容易突出 ASD 与正常儿童语言行为的差异, 从而有利于早期发现、早期诊断; 同时研究还假设 SFP 下 ASD 早期语言行为的异常与疾病严重程度相关。因此, 本研究拟使用 SFP 研究 23 月龄以内可疑 ASD 患儿的发声行为特征, 随访至 2 岁确诊后, 分析早期发声行为特征与确诊时 ASD 症状严重程度之间的关系。

1 资料与方法

1.1 研究对象

前瞻性选择 2018 年 1 月至 2019 年 7 月南京医科大学附属脑科医院儿科门诊诊断为可疑 ASD 患儿 43 例为研究对象, 设为可疑 ASD 组。入组标准: (1) 改良版婴幼儿孤独症量表 (Modified Checklist for Autism in Toddlers, M-CHAT) 筛查阳性;

(2) 经 2 名主治医师或主治医师以上的儿童精神科医生诊断, 符合美国精神障碍诊断与统计手册第 5 版 (DSM-5) 中 ASD 诊断标准的核心症状^[1];

(3) 年龄为 7~23 月龄; (4) 主要抚养者为母亲。排除标准: (1) 有明确的颅脑外伤史; (2) 伴神经系统疾病或严重躯体疾病; (3) 患有明确病因的遗传性或代谢性疾病, 如 Rett 综合征、脆性 X 综合征等。

ASD 组: 随访可疑 ASD 组患儿至 2 岁, 7 例不符合 ASD 诊断, 失访 2 例, 符合 ASD 诊断共 34 例。入组标准: (1) 经 2 名主治医师或主治医师以上的儿童精神科医生诊断, 符合 DSM-5 中 ASD 诊断标准的核心症状^[1]; (2) 儿童孤独症评定量表 (Childhood Autism Rating Scale, CARS) 及孤独症诊断观察量表 (Autism Diagnostic Observation Schedule, ADOS) 筛查阳性。

正常对照 (typical development, TD) 组: 同期在南京地区招募正常发育儿童 37 例。入组标准:

(1) 年龄为 7~23 月龄; (2) 主要抚养者为母亲。排除标准: (1) 患有各类神经发育障碍及精神障碍; (2) 有明确颅脑外伤史; (3) 伴有神经系统疾病及躯体疾病史。

本研究均取得儿童家长的知情同意并签署知情同意书, 并经南京医科大学附属脑科医院医学伦理委员会审批 (2017-KY098-01)。

1.2 资料收集

所有儿童入组时均采用一般情况调查表采集临床资料, 并通过 Gesell 发育评估量表评估发育水平, 用发育商 (development quotient, DQ) 表示。随访可疑 ASD 患儿至 2 岁, 使用 ADOS 及 CARS 量表评估, 确诊 ASD 后使用 ADOS 量表评估 ASD

症状严重程度。

1.3 评估工具

1.3.1 M-CHAT M-CHAT量表是Robins等^[11]于2001年对婴幼儿孤独症筛查量表(CHAT)进行改良而形成,共包含23个条目,由患儿的主要照顾者填写,其中任意3项未通过或2项核心条目未通过提示筛查阳性。M-CHAT灵敏度及特异度较高,为目前国内外最常用的ASD早期筛查工具。

1.3.2 CARS CARS量表为Shopler等^[12]编制,适用于2岁及以上人群。共包含15个项目,按1~4级评分,分别对应“与年龄相当的行为表现”“轻度异常”“中度异常”“重度异常”,由经过培训的儿童心理专业人员评定,每级评分均有详细说明,以保证不同评分者的一致性。量表总分为15~60分,评分<30分诊断为非ASD,评分≥30分诊断为ASD。

1.3.3 Gesell发育评估量表 该量表适用于0~6岁儿童整体发育水平的评估,包括适应性、大运动、精细动作、语言和个人-社交5个维度,每个维度的发育水平以DQ表示,DQ>85分提示发育正常,<75分提示发育异常,75~85分提示可能发育异常。

1.3.4 ADOS 本研究使用ADOS量表评估ASD症状严重程度,由受过培训的专业人员完成评估。ADOS为ASD辅助诊断工具,具有较高的信效度,敏感度及特异度分别为96.5%和61.5%,可根据患儿语言能力分为4个模块^[13]。本研究采用模块1,包含4个维度:语言和沟通、相互性社会互动、游戏、刻板行为和局限兴趣,评分达到诊断临界分及以上的儿童诊断为ASD,分数越高代表ASD症状越严重。

1.4 SFP行为学录像

采用SFP行为学录像,采集ASD组和TD组儿童在SFP静止期的发声行为。所有儿童均在行为观察室内完成行为学录像,研究人员统一指导语及环境设置,要求儿童坐于固定的餐椅上,母亲坐于儿童对面,在不使用玩具且无身体接触的情况下与儿童互动2 min(基线期),随后中止互动,母亲保持中性面孔1 min(静止期)^[14]。

1.5 编码指标

依据既往研究中有关ASD发声行为的编码准则制定编码手册^[10,15-17],主要编码指标如下:

(1)非语言发声:儿童发声无可辨识的字词,如哭、笑、叹气、尖叫、咕咕声等;(2)呀呀学语:使用2个及以上的重叠音节以及使用不能被辨识的音节进行发声;(3)有意义语言:使用1个可辨识的单字或近似的单字发声,以及使用2个及以上单字组成的词组或短句进行发声;(4)朝向人发声:目光朝向他人面部与发声行为同时发生;(5)朝向物发声:目光朝向其他物体与发声行为同时发生;(6)总发声:包含上述所有发声行为。所有视频由2名受过训练的研究生使用Observer行为学编码软件依据编码手册进行编码,并计算发声行为的时长及频率,时长单位为“s”,频率单位为“次/min”,植物性发声(如咳嗽、打嗝、呵欠、喷嚏等)不计入分析。

1.6 统计学分析

使用SPSS 22.0软件进行统计学处理。计数资料用例(%)表示,组间比较采用卡方检验。正态分布计量资料以均数±标准差($\bar{x} \pm s$)表示,组间比较采用独立样本 t 检验;非正态分布的计量资料以中位数(四分位数间距) $[M(P_{25}, P_{75})]$ 表示,组间比较采用Mann-Whitney U 检验。发声行为与年龄、发育水平、ASD临床症状严重程度的关系采用Spearman相关分析。回归分析采用多元线性回归。 $P<0.05$ 为差异有统计学意义。

2 结果

2.1 ASD组和TD组儿童一般情况比较

共纳入ASD组34例,平均年龄 19 ± 4 个月,其中男25例,女9例;TD组37例,平均年龄 14 ± 4 个月,其中男21例,女16例。两组患儿性别差异无统计学意义($P>0.05$)。ASD组患儿年龄大于TD组($P<0.05$)。ASD组患儿的适应性、精细动作、语言及个人-社交DQ较TD组显著落后(均 $P<0.05$),两组大运动DQ差异无统计学意义($P>0.05$)。见表1。

表1 ASD组和TD组儿童一般情况比较

$[\bar{x} \pm s$ 或 $M(P_{25}, P_{75})]$

项目	TD组 (n=37)	ASD组 (n=34)	$\chi^2/t/Z$ 值	P 值
性别(男/女,例)	21/16	25/9	2.185	0.139
年龄(月)	12.0 (12.0, 18.0)	20.0 (17.8, 22.0)	-4.664	<0.001
DQ(分)				
适应性	94 ± 8	79 ± 17	-4.770	<0.001
大运动	95.0 (91.5, 97.0)	86.0 (78.0, 104.3)	-1.308	0.191
精细动作	96.0 (92.5, 99.0)	90.0 (73.3, 97.0)	-2.783	0.005
语言	88 ± 8	61 ± 21	-7.050	<0.001
个人-社交	90.0 (87.0, 100.5)	76.5 (68.8, 90.3)	-3.981	<0.001
ADOS得分(分)				
语言和沟通	-	5.0 ± 1.5	-	-
相互性社会互动	-	9.8 ± 2.0	-	-
游戏	-	3(2, 4)	-	-
刻板行为	-	2.1 ± 1.4	-	-
CARS得分(分)	-	34 ± 4	-	-

注: DQ为Gesell发育量表的发育商。[ADOS]孤独症诊断观察量表; [CARS]儿童孤独症评定量表。

2.2 ASD组和TD组儿童发声行为比较

与TD组相比, ASD组在SFP静止期有意义语言发声时长及频率降低, 引入目光注视后ASD组朝向人发声时长及频率降低, 朝向物发声时长增加(均 $P<0.05$), 见表2。

2.3 SFP下ASD组发声行为与各因素的相关分析

Spearman相关分析发现, ASD患儿年龄与发声行为无相关性($P>0.05$); 适应性DQ与呀呀学语时长及频率呈正相关(分别 $r_s=0.482$ 、 0.493 , $P<0.05$); 语言DQ与有意义语言时长及频率呈正相关(分别 $r_s=0.504$ 、 0.502 , $P<0.05$)。见表3。

总发声、非语言发声、呀呀学语、朝向人

发声及朝向物发声时长及频率与ADOS语言和沟通维度呈负相关(分别均 $P<0.05$); 总发声、呀呀学语、朝向人发声时长及频率、朝向物发声时长与ADOS相互性社会互动维度呈负相关(均 $P<0.05$); 总发声频率及呀呀学语时长、朝向人发声时长及频率与ADOS游戏维度呈负相关(分别均 $P<0.05$); 总发声及非语言发声频率、朝向人发声时长及频率与ADOS刻板行为和局限兴趣维度呈负相关(均 $P<0.05$)。见表4。

以SFP静止期发声行为的时长及频率为自变量, ADOS语言和沟通、相互性社会互动、游戏及刻板行为和局限兴趣维度为因变量, 进行多元线性回归分析发现, 总发声频率是ADOS语言和沟通维度的负向预测因子($t=-4.102$, $P<0.001$); 朝向人发声时长是ADOS相互性社会互动维度的负向预测因子($t=-3.162$, $P=0.003$)。见表5。

表2 ASD组和TD组儿童发声行为比较

$[M(P_{25}, P_{75})]$

项目	TD组 (n=37)	ASD组 (n=34)	Z 值	P 值
发声时长(s)				
总发声	10.3(2.4, 19.4)	12.6(1.1, 30.9)	-0.754	0.451
非语言发声	2.7(0, 11.2)	6.4(0.5, 28.3)	-1.647	0.100
呀呀学语	0(0, 1.6)	0(0, 2.6)	-0.349	0.727
有意义语言	1.0(0, 3.7)	0(0, 0)	-3.959	<0.001
朝向人发声	4.7(1.6, 14.1)	1.2(0, 5.3)	-2.820	0.005
朝向物发声	2.3(0, 8.4)	8.8(0.5, 20.5)	-2.566	0.010
发声频率(次/min)				
总发声	6.0(2.0, 10.0)	3.5(1.0, 8.0)	-1.254	0.210
非语言发声	2.0(0, 5.5)	2.5(0.8, 6.0)	-0.584	0.559
呀呀学语	0(0, 1)	0(0, 2)	-0.456	0.648
有意义语言	1.0(0, 2.5)	0(0, 0)	-3.912	<0.001
朝向人发声	4.0(2.0, 6.0)	1.0(0, 2.3)	-3.990	<0.001
朝向物发声	3.0(1.0, 4.0)	2.0(0.8, 5.3)	-0.105	0.917

表 3 发声行为与 ASD 患儿月龄、发育水平的相关性

项目	月龄		适应性 DQ		大运动 DQ		精细动作 DQ		语言 DQ		个人-社交 DQ	
	r_s 值	P 值	r_s 值	P 值	r_s 值	P 值	r_s 值	P 值	r_s 值	P 值	r_s 值	P 值
总发声时长	-0.005	0.978	0.176	0.352	0.010	0.957	-0.149	0.433	0.293	0.116	-0.086	0.653
总发声频率	0.078	0.683	0.243	0.195	0.055	0.775	-0.043	0.822	0.211	0.263	-0.059	0.755
非语言发声时长	-0.168	0.375	0.038	0.841	0.043	0.822	-0.145	0.444	0.065	0.733	-0.084	0.660
非语言发声频率	0.123	0.517	0.042	0.827	-0.114	0.547	-0.163	0.388	-0.109	0.567	-0.185	0.328
呀呀学语时长	0.228	0.225	0.482	0.007	0.102	0.593	0.234	0.214	0.336	0.070	0.129	0.496
呀呀学语频率	0.228	0.226	0.493	0.006	0.119	0.531	0.239	0.204	0.346	0.061	0.139	0.463
有意义语言时长	0.145	0.444	0.001	0.998	0.030	0.877	-0.073	0.703	0.504	0.005	0.089	0.639
有意义语言频率	0.148	0.434	-0.001	0.995	0.030	0.875	-0.077	0.684	0.502	0.005	0.086	0.651
朝向人发声时长	0.027	0.886	0.302	0.105	0.219	0.246	0.151	0.427	0.225	0.231	0.169	0.371
朝向人发声频率	-0.032	0.868	0.313	0.092	0.164	0.388	0.187	0.322	0.330	0.075	0.238	0.204
朝向物发声时长	0.052	0.783	0.109	0.566	-0.058	0.762	-0.241	0.200	0.275	0.142	-0.174	0.358
朝向物发声频率	0.245	0.192	0.057	0.765	-0.138	0.468	-0.269	0.151	0.095	0.619	-0.298	0.109

注：DQ 为 Gesell 发育量表的发育商。

表 4 发声行为与 ASD 症状严重程度的相关性^{*}

项目	语言和沟通		相互性社会互动		游戏		刻板行为和局限兴趣	
	r_s 值	P 值	r_s 值	P 值	r_s 值	P 值	r_s 值	P 值
总发声时长	-0.527	0.003	-0.440	0.015	-0.308	0.098	-0.323	0.082
总发声频率	-0.559	0.001	-0.361	0.050	-0.447	0.013	-0.435	0.016
非语言发声时长	-0.420	0.021	-0.296	0.112	-0.160	0.398	-0.271	0.147
非语言发声频率	-0.550	0.002	-0.253	0.178	-0.309	0.097	-0.420	0.021
呀呀学语时长	-0.392	0.032	-0.423	0.020	-0.367	0.046	-0.317	0.088
呀呀学语频率	-0.378	0.040	-0.422	0.020	-0.349	0.059	-0.297	0.111
有意义语言时长	-0.122	0.522	-0.190	0.315	-0.196	0.298	0.057	0.765
有意义语言频率	-0.119	0.530	-0.188	0.319	-0.196	0.298	-0.057	0.765
朝向人发声时长	-0.424	0.020	-0.481	0.007	-0.444	0.014	-0.387	0.035
朝向人发声频率	-0.429	0.018	-0.434	0.017	-0.431	0.017	-0.485	0.007
朝向物发声时长	-0.470	0.009	-0.386	0.035	-0.219	0.246	-0.219	0.246
朝向物发声频率	-0.490	0.006	-0.273	0.145	-0.316	0.089	-0.233	0.216

注：* 由 ADOS 量表评估 ASD 症状严重程度。

表 5 发声行为与 ASD 症状严重程度的多元线性回归分析^{*}

变量	<i>b</i> 值	<i>S_b</i> 值	<i>b'</i> 值	<i>t</i> 值	<i>P</i> 值	<i>b</i> 的 95% <i>CI</i>	
						上限	下限
语言和沟通							
常量	5.902	0.307		19.240	<0.001	5.277	6.526
总发声频率	-0.194	0.047	-0.587	-4.102	<0.001	-0.290	-0.098
相互性社会互动							
常量	10.357	0.349		29.700	<0.001	9.647	11.068
朝向人发声时长	-0.104	0.033	-0.488	-3.162	0.003	-0.171	-0.037

注：* 由 ADOS 量表评估 ASD 症状严重程度。

3 讨论

SFP最早由Tronick等^[14]首次提出,通过3~5 min的行为学录像观察儿童在挫折情景下的行为表现,用于评估儿童的情绪调节能力、社会互动行为以及社交期待等^[4-6],同时也可以评估母婴互动风格^[3]。而且,SFP是一种相对标准化的行为学试验,可操作性强,特别适合将其引入ASD早期行为观察研究。2015年,Ostfeld-Etzion等^[7]在ASD患儿中运用SFP,发现在静止期ASD患儿消极行为增加、积极行为降低等现象比正常儿童更为突出。

本研究发现当母亲中止互动表现出静止脸时,正常儿童会通过更多有意义语言及伴随目光注视的发声行为来唤起母亲互动,ASD患儿则表现出更少的有意义语言及朝向人发声行为、更长时间朝向物发声行为,这一定程度上可以反映ASD患儿识别挫折情境的困难。Lambert-Brown等^[6]通过前瞻性研究发现,SFP下ASD患儿在5~7月龄时已表现出情感表达的明显异常。本研究发现,与正常儿童相比,ASD患儿在SFP静止期存在时长更短且频率更低的有意义语言发声行为,体现了ASD患儿语言发育进程的延迟^[10,16]及社会互动能力的缺损^[1];引入目光注视探讨ASD患儿在SFP静止期发声行为的质量,发现ASD患儿在挫折情境下发声质量不佳,存在时长更短且频率更低的朝向人发声以及时长更长的朝向物发声行为,这与既往研究存有不一致的地方^[10,15]。既往研究普遍支持ASD朝向人发声行为明显减少,朝向物发声行为与正常儿童无差异。Chericoni等^[10]通过回顾性分析家庭视频录像发现,12~18月龄ASD患儿发声行为明显伴有更少的目光注视,朝向物发声行为与正常儿童无明显差异。Ozonoff等^[15]通过前瞻性研究分析6~36月龄行为学观察视频发现,12~36月龄ASD患儿表现显著减少的朝向人发声行为,朝向物体的发声及注视物体的频率在任何时间点均无明显异常。朝向物发声行为出现的差异可能由于本研究采用在社交挫折情境而非正常互动情境所致,这体现了类似SFP这类挫折情境可突显ASD早期交流能力的异常。此外,发声行为是否伴有目光注视也可反映ASD患儿在面对挫折情境时的情绪调节策略,正常儿童面对挫折情

境时常采取积极的情绪调节策略,如尝试与母亲积极互动试图重新唤起母亲的注意力;ASD患儿在面对挫折情境时表现出更消极的情绪调节策略,体现在更少的朝向人发声行为及更多的朝向物发声行为^[18]。然而目前有关ASD发声行为与情绪调节策略的研究相对较少,仍需进一步论证。

本研究发现,ASD患儿的适应性、精细动作、语言、个人-社交等发育水平均显示落后,与既往研究一致,即ASD患儿存在异常的发育轨迹^[19]。本研究中年龄与发声行为不存在相关性,发育水平仅影响SFP静止期发声行为的个别指标,但不具有代表性,这也就是说生理年龄的差异以及发育水平的异常不能与SFP下ASD患儿发声行为的特征联系。在SFP静止期,除有意义语言外,ASD总发声、非语言发声、呀呀学语、朝向人发声及朝向物发声行为的时长越短、频率越低,ADOS各个维度的得分便越高,表明在挫折情境下,发声行为的异常与ASD症状严重程度相关,发声时长越短及发声频率越低与更为严重的ASD症状相联系,这与既往研究一致^[16]。ASD患儿的总发声频率越高,说明ADOS语言和沟通维度得分越低;朝向人发声时长越长,说明ADOS相互性社会互动维度得分越低,这一结果提示在SFP静止期,可以通过总发声频率以及朝向人发声时长预测ASD症状严重程度。本研究未发现在SFP静止期有意义语言发声行为与ASD症状严重程度的相关性,这可能反映在SFP下有意义语言发声行为并非衡量ASD症状严重程度的有效行为指标,这一结果也可能是受限于SFP时长较短所致。

综上,运用SFP可发现2岁前ASD患儿存在有意义语言及朝向人发声的发声时长更短、发声频率更低,朝向物发声时长更长的发声行为特征。在SFP静止期更少的发声行为与更严重的ASD症状相联系,总发声频率及有意义语言发声时长可以预测ASD症状严重程度,提示社交挫折情境下ASD患儿的发声行为是重要的行为学指标。目前已有研究指出,SFP具有较好的临床应用价值,利用SFP视频反馈的方法可为ASD家长提供养育支持^[20]。本研究从ASD发声行为的角度,对SFP的临床应用价值提供一定理论支持。本研究存有一定局限:近年来研究发现,母亲的行为影响亲子互动的质量,母亲患有心理精神障碍影响儿童在

SFP 下行为表现^[21-22], 未来研究需要将母亲的行为纳入到研究中; 此外, ASD 组发育水平普遍落后, 为控制两组儿童发育水平平衡, 入组时 ASD 组年龄较 TD 组偏大。未来的研究方向是扩大样本量, 以期在控制年龄及发育水平的条件下对研究结果进一步拓展及验证。

[参 考 文 献]

- [1] 美国精神医学学会. 孤独症谱系障碍 [M]// 精神障碍诊断与统计手册 (第 5 版). 张道龙, 刘春宇, 童慧琦, 等译. 北京: 北京大学出版社, 2015: 46-55.
- [2] Herlihy L, Knoch K, Vibert B, et al. Parents' first concerns about toddlers with autism spectrum disorder: effect of sibling status[J]. *Autism*, 2015, 19(1): 20-28.
- [3] Handal AJ, Garcia Saavedra L, Schrader R, et al. Assessment of maternal-infant interaction: application of the Still Face Paradigm in a rural population of working women in Ecuador[J]. *Matern Child Health J*, 2017, 21(3): 458-466.
- [4] Yaari M, Rotzak NL, Mankuta D, et al. Preterm-infant emotion regulation during the still-face interaction[J]. *Infant Behav Dev*, 2018, 52: 56-65.
- [5] Müller M, Zietlow AL, Tronick E, et al. What dyadic reparation is meant to do: an association with infant cortisol reactivity[J]. *Psychopathology*, 2015, 48(6): 386-399.
- [6] Lambert-Brown BL, McDonald NM, Mattson WI, et al. Positive emotional engagement and autism risk[J]. *Dev Psychol*, 2015, 51(6): 848-855.
- [7] Ostfeld-Etzion S, Golan O, Hirschler-Guttenberg Y, et al. Neuroendocrine and behavioral response to social rupture and repair in preschoolers with autism spectrum disorders interacting with mother and father[J]. *Mol Autism*, 2015, 6: 11.
- [8] Swanson MR, Shen MD, Wolff JJ, et al. Naturalistic language recordings reveal "hypervocal" infants at high familial risk for autism[J]. *Child Dev*, 2018, 89(2): e60-e73.
- [9] Roche L, Zhang D, Bartl-Pokorny KD, et al. Early vocal development in autism spectrum disorder, rett syndrome, and fragile X syndrome: insights from studies using retrospective video analysis[J]. *Adv Neurodev Disord*, 2018, 2(1): 49-61.
- [10] Chericoni N, de Brito Wanderley D, Costanzo V, et al. Pre-linguistic vocal trajectories at 6-18 months of age as early markers of autism[J]. *Front Psychol*, 2016, 7: 1595.
- [11] Robins DL, Fein D, Barton ML, et al. The Modified Checklist for Autism in Toddlers: an initial study investigating the early detection of autism and pervasive developmental disorders[J]. *J Autism Dev Disord*, 2001, 31(2): 131-144.
- [12] Schopler E, Reichler RJ, DeVellis RF, et al. Toward objective classification of childhood autism: Childhood Autism Rating Scale (CARS)[J]. *J Autism Dev Disord*, 1980, 10(1): 91-103.
- [13] 周秉睿, 徐琼, 鲁萍, 等. 中文版《孤独症诊断观察量表》模块 1 信度和效度评价及临床应用研究 [J]. *中国循证儿科杂志*, 2013, 8(4): 257-261.
- [14] Tronick E, Als H, Adamson L, et al. The infant's response to entrainment between contradictory messages in face-to-face interaction[J]. *J Am Acad Child Psychiatry*, 1978, 17(1): 1-13.
- [15] Ozonoff S, Iosif AM, Baguio F, et al. A prospective study of the emergence of early behavioral signs of autism[J]. *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry*, 2010, 49(3): 256-266.e1-2.
- [16] Paul R, Fuerst Y, Ramsay G, et al. Out of the mouths of babes: vocal production in infant siblings of children with ASD[J]. *J Child Psychol Psychiatry*, 2011, 52(5): 588-598.
- [17] Werner E, Dawson G. Validation of the phenomenon of autistic regression using home videotapes[J]. *Arch Gen Psychiatry*, 2005, 62(8): 889-895.
- [18] Guo Y, Garfin DR, Ly A, et al. Emotion coregulation in mother-child dyads: a dynamic systems analysis of children with and without autism spectrum disorder[J]. *J Abnorm Child Psychol*, 2017, 45(7): 1369-1383.
- [19] Iverson JM. Early motor and communicative development in infants with an older sibling with autism spectrum disorder[J]. *J Speech Lang Hear Res*, 2018, 61(11): 2673-2684.
- [20] Giusti L, Provenzi L, Montirosso R. The Face-to-Face Still-Face (FFSF) paradigm in clinical settings: socio-emotional regulation assessment and parental support with infants with neurodevelopmental disabilities[J]. *Front Psychol*, 2018, 9: 789.
- [21] Reck C, Van Den Bergh B, Tietz A, et al. Maternal avoidance, anxiety cognitions and interactive behaviour predicts infant development at 12 months in the context of anxiety disorders in the postpartum period[J]. *Infant Behav Dev*, 2018, 50: 116-131.
- [22] Asselmann E, Venz J, Wittchen HU, et al. Maternal anxiety and depressive disorders prior to, during and after pregnancy and infant interaction behaviors during the Face-to-Face Still Face Paradigm at 4 months postpartum: a prospective-longitudinal study[J]. *Early Hum Dev*, 2018, 122: 45-53.

(本文编辑: 王颖)