

Handwriting Function in Children with Tourette Syndrome and Neurodevelopmental Disorders

Xiaoling Zhang¹, Xiumei Liu²

¹Weifang Medical College, Weifang Shandong

²Yantai Yuhuangding Hospital Affiliated to Qingdao University, Yantai Shandong
Email: zhangxl2019@163.com, xmliu0615@126.com

Received: Jul. 21st, 2020; accepted: Aug. 6th, 2020; published: Aug. 13th, 2020

Abstract

Handwriting function is one of the main factors that affect children's learning achievement and academic function. Tourette syndrome (Tourette syndrome, TS) children have Handwriting tics, which can be shown by echographia and paligraha. TS children often comorbid other neurodevelopmental disorders, and these neurodevelopments have different nature and degree of impairment in handwriting function. This article reviews the research on the handwriting function of Tourette Syndrome and its children with comorbid neurodevelopmental disorders, summarizes its handwriting characteristics and functional impairment, and aims to provide a basis for clinical intervention.

Keywords

Tourette Syndrome, Neurodevelopmental Disorders, Child, Handwriting Function

Tourette综合征及其共患神经发育障碍儿童的书写功能

张小玲¹, 刘秀梅²

¹潍坊医学院, 山东 潍坊

²青岛大学附属烟台毓璜顶医院, 山东 烟台

Email: zhangxl2019@163.com, xmliu0615@126.com

收稿日期: 2020年7月21日; 录用日期: 2020年8月6日; 发布日期: 2020年8月13日

摘要

书写功能是影响儿童学习成就和学业功能的主要因素之一。Tourette综合征儿童存在书写抽动, 可表现为模仿言语性书写和重复言语性书写。TS儿童常共患其他神经发育障碍, 这些神经发育存在不同性质和程度的书写功能损害。本文就TS及其共患神经发育障碍儿童的书写功能研究进行综述, 概括其书写特点及功能损害, 旨在为临床干预提供依据。

关键词

Tourette综合征, 神经发育障碍, 儿童, 书写功能

Copyright © 2020 by author(s) and Hans Publishers Inc.

This work is licensed under the Creative Commons Attribution International License (CC BY 4.0).

<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>



Open Access

1. 引言

Tourette 综合征(Tourette syndrome, TS)是儿童抽动障碍中较为严重的类型, 以多发性运动抽动和发声抽动为特征, 其症状多变、病程迁延、且容易合并多种共患病, 对儿童的学业、社交、情绪和生活质量产生一定影响。TS 是一种慢性神经精神障碍, 流行病学研究表明 TS 人群患病率约为 0.52%, 男性比女性更常见, 男女比例约为 4:1 [1]。按照美国精神障碍诊断与统计手册 DSM-V 的标准, TS 属于神经发育障碍的范畴。神经发育障碍是一组在发育阶段起病引起个体社交、学业或职业等社会适应功能损害的疾病, 包括儿童抽动障碍、智力障碍、孤独症谱系障碍(Autism spectrum disorder, ASD)、注意缺陷多动障碍(Attention deficit hyperactivity disorder, ADHD)、学习障碍(Learning disorder, LD)等[2]。TS 常与其他神经发育障碍如 ADHD、强迫症(Obsessive-compulsive disorder, OCD)、ASD、发育协调障碍(Developmental coordination disorder, DCD)等共病。在一项基于临床的大型研究中发现, TS 患者共患其他神经发育障碍高达 85.7%; 57.7%的 TS 患者有 2 种或 2 种以上的神经精神障碍[3]。相当一部分神经发育障碍儿童存在不同程度的学习困难, 而书写功能是影响儿童学习成就和学业功能的主要因素之一, 然而神经发育障碍儿童尤其是 TS 儿童的书写功能损害并没有引起广泛关注, 本文就 TS 及其共患神经发育障碍儿童的书写功能研究进行综述, 概括其书写特点及功能损害, 旨在为临床干预提供依据。

2. 书写的脑神经基础

传统观念认为人的言语功能主要与大脑额叶及颞叶的皮层有关, 如额叶下部(IFG, Broca 区)和颞上回后部(STG, Wernicke 区), 与其他言语功能相比, 书写是人类特有的更为复杂的高级技能。书写活动需要多个大脑功能区及神经反射通路的共同参与完成, 其基本的反射弧为“感受器(视听觉和其他感受器)-传入神经-中枢(语言、运动、视听觉、动觉及视空间各功能区)-传出神经-效应器(手)”, 因此书写过程需要认知(语言、言语工作记忆和组织)与运动计划和执行相协调[4]。神经影像学研究如磁共振成像、功能磁共振、正电子发射断层扫描等表明书写过程中大脑的颞叶、额叶、顶叶、枕叶、基底神经节、小脑等部位均得到激活。基底神经节通过基底节-小脑-大脑皮质网络参与拼写加工、正字法加工、书面语加工、语音加工、语义处理、言语记忆等复杂的认知和记忆过程[5] [6] [7], 并通过充当不同神经网络

之间的中枢枢来调节广泛认知和运动行为的启动和终止,起到协调整个言语过程及维持书写运动的连贯和流畅的作用[8]。以基底神经节损害为主的一些神经系统疾病会导致不同性质和程度的书写功能障碍,如视空间性书写(书写部位定向障碍,导致内容/字体结构紊乱,甚至无法辨认)、重复性书写、书写错误、书写缓慢等[9]。

3. TS 儿童的书写功能

TS 是一种以基底神经节病变为基础的运动调节障碍,病变部位可能涉及皮质-纹状体-丘脑-皮质环路(CTSTC)中的任意部分,引起抽动的主要原因与多巴胺神经递质代谢异常有关(纹状体多巴胺活动过度或突触后多巴胺受体超敏感)。神经影像学研究证实了抽动的发作主要源于将运动和感觉系统结合起来的皮质-纹状体-丘脑-皮质通路异常激活[10],也有研究表明小脑和皮质与基底神经节密切合作(基底节-小脑-丘脑-皮质网络)参与抽动的发生[11]。

Cavanna 等发现 TS 儿童存在模仿言语性书写(echographia)和重复言语性书写(paligraphia),模仿言语性书写表现为重复书写阅读的单词或句子;重复言语性书写表现为重复书写自发的单词或句子,如在签名区域反复书写自己的名字[12]。Mitchell 等发现 TS 患者的书写功能损害呈现出反复和空间失写的特征,在书写过程中多次勾勒每个字母,该重复书写行为严重影响了书写的清晰度和流畅性[13]。TS 儿童存在书写抽动(Handwriting Tics, HT), HT 的患病率高达 40%,且在男性中更显著。HT 可能有不同类型的表现,如重复书写,即一遍又一遍地书写相同的字母、单词或句子;多次勾勒出每个字母的轮廓;在书写时将笔向后拉。HT 与其他书面表达学习障碍(如书写障碍)不同:第一、书写抽动有典型的起伏波动的趋势(抽动作),而书面表达学习障碍是持续存在的;第二、抗抽动药物治疗可以减轻书写抽动(药物和/或习惯逆转训练对 56%的 HT 患者有效),但对书面表达学习障碍无效;第三、HT 通常会在青春期以后随着运动抽动的缓解而减轻或消退,而书面表达学习障碍可能持续存在[14]。

4. TS 共患其他神经发育障碍儿童的书写功能

TS 儿童常共患其他神经发育障碍,常见的有 ADHD、OCD、ASD、DCD 等[3] [15]这些神经发育障碍在症状表现上有广泛的重叠,如书写功能损害、重复行为、社交和沟通障碍、睡眠障碍、感觉处理异常、焦虑、抑郁和仪式性行为等,提示其有相近的生物学背景[16]。各种神经发育障碍有着不同表现形式的限制性重复行为:TS 儿童常出现模仿动作(不由自主地重复或模仿他人的动作)、模仿言语(重复他人发声)和言语重复(重复自己说的最后一个词或短语) [17]; ASD 儿童刻板、重复的动作举止,如不停地拍手、旋转身体或身体的某个部位; OCD 儿童重复无目的的动作,如强迫性触摸、频繁计数、重复排序; ADHD 儿童兴趣和活动的重复和定型模式[18]。在书写功能方面,ASD 儿童书写的整体清晰度与书写结构差[19]; ADHD 儿童的书写问题主要表现在空间组织差、字体大小和形状不稳定、书写错误较多等方面[20]; DCD 儿童通常书写缓慢且结构不佳[21]。不同神经发育障碍儿童的书写功能损害的异质性特点是大脑神经机制异常的外在表现,因此,应该重视 TS 及其共患病的书写功能损害。

值得进一步探讨的是 TS 共患 OCD 患者的书写功能损害, Cavanna 等报道共患 OCD 的 TS 患者的书写功能损害表现为重复书写,重复书写单词与单词的语音特征有关,类似“强迫性抽动” [12]。这就提出了一个问题,该患者的书写功能损害的表现更类似 TS? 还是更像是 OCD? 大约有 60%的 TS 患者共患 OCD,而在 OCD 患者中约有 30%共患 TS。TS 和 OCD 都被认为是皮质-纹状体-丘脑-皮质回路功能障碍的结果,两者之间的相似之处是重复的动作或行为[22]。正如 TS 的多种抽动症状如重复摩擦、拍击行为被认为是介于抽动和强迫行为之间,一些强迫症的症状,如重复的触摸仪式、痴迷于对称性等,可能既代表复杂抽动,也代表强迫行为,重复性书写是否是两者症状之间的边缘形式或者说是混合形式需

要更广泛、更深入的研究。

综上所述,书写是一项复杂的语言处理过程,需要高级认知(语言、言语工作记忆和组织)、运动规划、运动协调能力等多种高级神经功能的参与,需要基底节-小脑-大脑皮质网络协同合作才能完成。TS 儿童存在书写抽动,具有与其他书面表达学习障碍不同的特点,可表现为模仿言语性书写和重复言语性书写。TS 儿童常共患其他神经发育障碍,各种神经发育障碍有着不同表现形式的限制性重复行为,存在不同性质和程度的书写功能损害,在临床上应该引起重视并及时干预,以便更好的改善 TS 及其共患病儿童的功能损害,提高其生命质量。未来希望有更多的研究关注 TS 及其共患神经发育障碍儿童的书写功能,通过这类儿童的书写功能的研究,能够制定出系统的书写功能损害评定量表,为不同神经发育障碍儿童的功能损害的诊断、治疗及预后提供更有效且直观的临床诊疗工具。此外,通过对 TS 及其共患神经发育障碍儿童书写功能的深入研究或许能够对不同神经发育障碍儿童的发病机制有更进一步的了解。

基金项目

国家自然科学基金面上项目(81871076);山东省自然科学基金面上项目(ZR2017LH038)。

参考文献

- [1] Scharf, J.M., Miller, L.L., Gauvin, C.A., Alabiso, J., Mathews, C.A. and Ben-Shlomo, Y. (2015) Population Prevalence of Tourette Syndrome: A Systematic Review and Meta-Analysis. *Movement Disorders*, **30**, 221-228. <https://doi.org/10.1002/mds.26089>
- [2] Cravedi, E., Deniau, E., Giannitelli, M., Xavier, J., Hartmann, A. and Cohen, D. (2017) Tourette Syndrome and Other Neurodevelopmental Disorders: A Comprehensive Review. *Child and Adolescent Psychiatry and Mental Health*, **11**, 59. <https://doi.org/10.1186/s13034-017-0196-x>
- [3] Hirschtritt, M.E., Lee, P.C., Pauls, D.L., Dion, Y., Grados, M.A., Illmann, C., King, R.A. and Sandor, P. (2015) Lifetime Prevalence, Age of Risk, and Genetic Relationships of Comorbid Psychiatric Disorders in Tourette Syndrome. *JAMA Psychiatry*, **72**, 325-333. <https://doi.org/10.1001/jamapsychiatry.2014.2650>
- [4] Chung, P.J., Patel, D.R. and Nizami, I. (2020) Disorder of Written Expression and Dysgraphia: Definition, Diagnosis, and Management. *Translational Pediatrics*, **9**, S46-S54. <https://doi.org/10.21037/tp.2019.11.01>
- [5] Chang, E.F., Raygor, K.P. and Berger, M.S. (2015) Contemporary Model of Language Organization: An Overview for Neurosurgeons. *Translational Pediatrics*, **122**, 250-261. <https://doi.org/10.3171/2014.10.JNS132647>
- [6] Bostan, A.C. and Strick, P.L. (2018) The Basal Ganglia and the Cerebellum: Nodes in an Integrated Network. *Nature reviews Neuroscience*, **19**, 1-11. <https://doi.org/10.1038/s41583-018-0002-7>
- [7] Viñas-Guasch, N. and Wu, Y.J. (2017) The Role of the Putamen in Language: A Meta-Analytic Connectivity Modeling Study. *Brain Structure and Function*, **222**, 3991-4004. <https://doi.org/10.1007/s00429-017-1450-y>
- [8] Florio, T.M., Scarnati, E., Rosa, I., DiCenso, D., Ranieri, B., Cimini, A., Galante, A. and Alecci, M. (2018) The Basal Ganglia: More than Just a Switching Device. *CNS Neuroscience & Therapeutics*, **24**, 677-684. <https://doi.org/10.1111/cns.12987>
- [9] Peterson, R.K., McDonald, K.P., Vincent, M., Williams, T.S., Dlamini, N. and Westmacott, R. (2019) Characterizing Language Outcomes Following Childhood Basal Ganglia Stroke. *Applied Neuropsychology: Child*. <https://doi.org/10.1080/21622965.2019.1590202>
- [10] Martino, D., Ganos, C. and Worbe, Y. (2018) Neuroimaging Applications in Tourette's Syndrome. *International Review of Neurobiology*, **143**, 65-108. <https://doi.org/10.1016/bs.irm.2018.09.008>
- [11] Caligiore, D., Mannella, F., Arbib, M.A. and Baldassarre, G. (2017) Dysfunctions of the Basal Ganglia-Cerebellar-Thalamo-Cortical System Produce Motor Tics in Tourette Syndrome. *PLOS Computational Biology*, **13**, e1005395. <https://doi.org/10.1371/journal.pcbi.1005395>
- [12] Cavanna, A.E., Ali, F. and Rickards, H. (2011) Paligraphia and Written Jocularly in Gilles de la Tourette Syndrome. *Movement Disorders*, **26**, 930-931. <https://doi.org/10.1002/mds.23495>
- [13] Mitchell, J.W. and Cavanna, A.E. (2013) Handwriting Abnormality in Tourette Syndrome. *The Journal of Neuropsychiatry and Clinical Neurosciences*, **25**, E40-E41. <https://doi.org/10.1176/appi.neuropsych.12050116>
- [14] Zanaboni Dina, C., Bona, A.R., Zekaj, E., Servello, D. and Porta, M. (2016) Handwriting Tics in Tourette's Syndrome: A Single Center Study. *Front Psychiatry*, **7**, 15. <https://doi.org/10.3389/fpsy.2016.00015>

- [15] Baweja, R. and Byler, D. (2017) Tourette's Syndrome and Comorbid Neurological Condition. *Current Developmental Disorders Reports*, **4**, 1-3. <https://doi.org/10.1007/s40474-017-0113-2>
- [16] Kern, J.K., Geier, D.A., King, P.G., Sykes, L.K., Mehta, J.A. and Geier, M.R. (2015) Shared Brain Connectivity Issues, Symptoms, and Comorbidities in Autism Spectrum Disorder, Attention Deficit/Hyperactivity Disorder, and Tourette Syndrome. *Brain Connect*, **5**, 321-335. <https://doi.org/10.1089/brain.2014.0324>
- [17] Gill, C.E. and Kompoliti, K. (2020) Clinical Features of Tourette Syndrome. *Journal of Child Neurology*, **35**, 166-174. <https://doi.org/10.1177/0883073819877335>
- [18] Wilkes, B.J. and Lewis, M.H. (2018) The Neural Circuitry of Restricted Repetitive Behavior: Magnetic Resonance Imaging in Neurodevelopmental Disorders and Animal Models. *Neuroscience & Biobehavioral Reviews*, **92**, 152-171. <https://doi.org/10.1016/j.neubiorev.2018.05.022>
- [19] Finnegan, E. and Accardo, A.L. (2018) Written Expression in Individuals with Autism Spectrum Disorder: A Meta-Analysis. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, **48**, 868-882. <https://doi.org/10.1007/s10803-017-3385-9>
- [20] Capodieci, A., Lachina, S. and Cornoldi, C. (2018) Handwriting Difficulties in Children with Attention Deficit Hyperactivity Disorder (ADHD). *Research in Developmental Disabilities*, **74**, 41-49. <https://doi.org/10.1016/j.ridd.2018.01.003>
- [21] Prunty, M.M., Barnett, A.L., Wilmut, K. and Plumb, M.S. (2016) The Impact of Handwriting Difficulties on Compositional Quality in Children with Developmental Coordination Disorder. *British Journal of Occupational Therapy*, **79**, 591-597. <https://doi.org/10.1177/0308022616650903>
- [22] Hartmann, A. and Millet, B. (2018) Repetitive Movements and Behaviors in Neurological and Psychiatric Practice: Distinctions and Similarities between Tourette Disorder and Obsessive-Compulsive Disorder. *Revue Neurologique (Paris)*, **174**, 199-202. <https://doi.org/10.1016/j.neurol.2018.01.364>