

# 발달장애의 치료저항성 행동문제에 대한 전기경련치료 적용의 최근 경향: 임상적 효과에 대한 서술적 고찰

서혜진<sup>1</sup> · 이남영<sup>2</sup> · 이규영<sup>3</sup> · 반건호<sup>4</sup> · 방수영<sup>3</sup> · 김희철<sup>5</sup> · 김용식<sup>3,6</sup> · 정인원<sup>1</sup>

<sup>1</sup>용인정신병원 정신건강의학과, <sup>2</sup>동국대학교일산병원 정신건강의학과, <sup>3</sup>노원을지대학교병원 정신건강의학과,

<sup>4</sup>경희대학교병원 정신건강의학과, <sup>5</sup>계명대학교 동산의료원 정신건강의학과, <sup>6</sup>의정부을지대학교병원 정신건강의학과

## Electroconvulsive Therapy for Treatment-Refractory Behaviors Problems in Neurodevelopmental Disorders

Hye-Jin Seo, MD, PhD,<sup>1</sup> Nam Young Lee, MD, PhD,<sup>2</sup> Kyu Young Lee, MD, PhD,<sup>3</sup> Geon Ho Bahn, MD, PhD,<sup>4</sup> Soo-Young Bhang, MD, PhD,<sup>3</sup> Hee Cheol Kim, MD, PhD,<sup>5</sup> Yong Sik Kim, MD, PhD,<sup>3,6</sup> In Won Chung, MD, PhD<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Department of Psychiatry, Yong-In Mental Hospital, Yongin, Korea

<sup>2</sup>Department of Psychiatry, Dongguk University Ilsan Hospital, Dongguk Medical Center, Goyang, Korea

<sup>3</sup>Department of Psychiatry, Nowon Medical Center, Eulji University, Seoul, Korea

<sup>4</sup>Department of Psychiatry, Kyung Hee University Hospital, Seoul, Korea

<sup>5</sup>Department of Psychiatry, Keimyung University Dongsan Medical Center, Daegu, Korea

<sup>6</sup>Department of Psychiatry, Uijeongbu Medical Center, Eulji University, Uijeongbu, Korea

Individuals with developmental disorders exhibit a broad spectrum of aggressive behaviors, including self-directed actions and those directed toward others. These behaviors can lead to physical harm, disruptions in daily life, caregiver stress, and an increased risk for abuse and institutionalization. An integrated and multidisciplinary approach, including psychosocial approaches and pharmacotherapy, has been attempted to treat self-injurious and aggressive behaviors, but has shown limited effectiveness in reducing those behaviors. Recently, the use of electroconvulsive therapy has increased as an alternative treatment for pediatric and adolescent patients with treatment-resistant behavior problems in developmental disorders. This review elucidates the indications and clinical effectiveness of electroconvulsive therapy in the management of self-injurious behavior and catatonia in patients with developmental disorders such as autism spectrum disorders and intellectual disabilities.

**Keywords** Neurodevelopmental disorder; Self-injurious behavior; Intellectual disabilities; Autism spectrum disorder; Catatonia; Electroconvulsive therapy.

**Received:** September 22, 2023 / **Revised:** September 27, 2023 / **Accepted:** October 2, 2023

**Address for correspondence:** In Won Chung, MD, PhD

Department of Psychiatry, Yong-In Mental Hospital, 940 Jungbudaero, Giheung-gu, Yongin 17089, Korea

**Tel:** +82-31-288-0218, **Fax:** +82-31-288-0180, **E-mail:** ciwkjs@gmail.com

## 서론

발달장애는 어릴 때부터 발생하여 신경심리발달의 다양한 영역에서 심각한 손상을 수반하는 일련의 정신질환을 의미한다.<sup>1)</sup> Diagnostic and Statistical Manual of Mental Dis-

orders, Fifth Edition (DSM-5)에서는 신경발달장애(neurodevelopmental disorder)에 지적장애(intellectual disability, ID), 의사소통장애(communication disorders), 자폐스펙트럼장애(autism spectrum disorder, ASD), 주의력결핍·과잉행동장애(attention-deficit/hyperactivity disorder), 특정학습장애(specific learning disorder), 운동장애(motor disorders), 기타 신경발달장애(other neurodevelopmental disorder) 등을 포함하고 있다.<sup>2)</sup>

© This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<https://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

발달장애로 인하여 나타나는 임상 증상 중에서 가장 심각한 것은 자신이나 타인에 대한 공격적인 행동으로써 문제 행동<sup>2)</sup> 또는 도전 행동(challenging behavior)으로 기술하고 있다. 즉, 이러한 행동은 강도나 빈도, 기간의 측면에서 다양한 형태로 나타나서 자신이나 타인의 신체적 안전을 심각한 위협에 빠트리며 주변 환경이나 사물에 손상을 일으키게 된다. 보호자나 간병인에게도 엄청난 스트레스가 가해지며, 결과적으로 지역사회에 적응하기 위한 새로운 생활 기술을 배우는데 실패하게 되어 환자 스스로 사회로부터 고립되게 되고, 결국에는 시설에 입소될 가능성까지 높아질 수 있다.<sup>3)</sup>

이러한 행동적 문제를 어떻게 도와줄 수 있는가에 대해서는 전문 지침서 및 법적 규정이 지역이나 사회마다 다를 수 있다.<sup>4)</sup> 이는 의학뿐 아니라 사회심리학 등 다학제 간의 통합적 접근이 필요하지만, 대부분의 정신치료적 접근은 통상적 치료에 비해 자해 및 자살 행동의 분명한 감소 효과의 차이를 보여주지 못하고 있다.<sup>5)</sup> 국내 발달장애 아동청소년의 문제 행동치료 가이드라인에 따르면 약물치료가 문제 행동의 치료에 중요한 한 축을 이루고 있다.<sup>6)</sup> 약물치료는 파괴적 또는 자해적 행동과 같은 심각한 문제가 발생한 경우와 동반 정신과적 장애의 특정 증상을 해결하기 위하여 사용되지만, 이러한 노력에도 문제 행동에 대한 성공적인 치료가 이루어지기에는 부족한 면이 많다.<sup>3)</sup> 이에 대한 대안으로 최근 전기경련치료(electroconvulsive therapy, ECT) 등의 뇌 자극술을 통한 중재 정신의학(interventional psychiatry)이 시도되고 있다.<sup>7,8)</sup>

ECT는 성인의 정신장애에서 우울증, 긴장증, 조현병 및 약물치료를 저항성이 있는 경우와 자살 위험성이 높은 정신과적 위기상황의 환자에서 치료효과를 보이고 있다. 적용하기가 쉽고 안전하며 내성 및 가역성이 좋은 비침습적 신경조절법이다.<sup>8,9)</sup> 치료 저항성의 심각한 행동 문제가 동반된 발달장애 환자는 ECT의 적응증에 해당되며, 대상 연령은 성인뿐만 아니라 소아청소년도 그 대상이 될 수 있다. 이에 대한 ECT 시행은 일반적인 의학에서 적용되는 윤리적 문제와 동일한 기준으로 적용되어야 하며, 치료 전반에 걸친 고려가 있어야 할 것이다.<sup>10)</sup> 또한, 의학적 치료의 견지에서 볼 때, 발달장애에 병존하는 행동적 문제를 치료하는 데 있어서 ECT가 다른 치료법이 실패한 경우에 마지막 방법으로 사용할 때 얼마나 효과적이고 분명한 임상적 변화를 보여주는지를 윤리적 기준에 앞서서 먼저 신중하게 검토되어야 할 것이다.<sup>8-12)</sup>

본 종설에서는 발달장애에서 ECT를 사용할 수 있는 적응증과 임상적 효과를 중심으로 문헌 고찰을 통하여 정리하였다. 발달장애로는 ID와 ASD를 중심으로 하고, 동반되는 자해 행동과 긴장증을 대상으로 ECT의 효용성에 초점을 맞추어 기술하고자 하였다. 국내·외에서 발표된 증례 및 연구들을

참고하기 위하여 영어로 ‘intellectual disabilities’와 ‘mental retardation’, ‘autism spectrum disorder’, ‘catatonia’, ‘electroconvulsive therapy’, ‘self-injurious behavior’ 등과, 한글로는 ‘지적장애’, ‘자폐 스펙트럼 장애’, ‘긴장증’, ‘전기경련치료’, ‘자해행동’ 등을 검색어로 사용하여 Google Scholar, DBpia, PubMed 및 KoreaMed를 중심으로 관련 논문 및 서적 등을 검색하여 본 종설의 주제와 연관성이 있는 문헌들을 검토하였다.

## 치료 저항성의 심각한 행동 문제

과거 1950년대까지는 정신병리학적으로 정의된 증상을 치료하는 현재의 정신의학적 기준과는 달리, 행동 조절이 잘 되고 주변에 피해를 주지 않는 것을 치료의 목표로 삼았는데, 이는 역사적으로 ECT의 도입 초기에 효과만을 기준으로 과도하게 시행함으로써 일부 남용하게 된 계기가 되기도 하였다.<sup>13)</sup> 그러므로 심각한 행동 문제가 동반된 발달장애 환자에 있어 ECT 적용의 기준이 되는지를 검토하고, 문제 행동을 효과적으로 중재하고 변화에 대한 객관적인 평가가 가능하기 위해서는<sup>2)</sup> 치료 대상이 되는 심각한 행동 문제가 무엇인지를 살펴볼 필요가 있다. 본 종설에서는 발달장애에서 보이는 자해 행동과 긴장증으로 논의를 국한한다.

## 자해 행동

Tate와 Baroff<sup>14)</sup>는 자기학대(masochism), 자동공격성(auto-aggression), 자기공격성(self-aggression), 자기 파괴적 행동(self-destructive behavior) 등의 공격적 행동에 대하여 자해 행동(self-injurious behavior, SIB)이라는 용어를 처음 사용하여 단순히 자신에 대하여 신체적 손상을 입히는 모든 행동으로 기술하였다.<sup>15-18)</sup> SIB는 파괴적 또는 공격적 의미는 적고 이론적이기 보다는 서술적인 의미를 갖고 있으며, 자신의 신체에 대한 물리적 손상을 유발하는 행동을 의미하고 자 극적이지 않다는 점에서 선호하게 되었다.<sup>19)</sup> SIB는 주로 반복적이고 리듬이 있지만 분명한 강화요소는 없으며, 따라서 상동증적(stereotypic) 행동과 유사한 면이 있다. 주로 물기(biting), 때리기(hitting), 머리와 팔다리 돌리기(head and limb banging), 얼굴 때리기(face slapping), 머리카락 잡아당기기(hair pulling), 눈 찌르기(eye poking), 몸을 긁고(scratching) 물어뜯기(biting) 등으로 심각한 부상을 초래할 수 있으며,<sup>14)20-22)</sup> 환자와 간병인 모두에게 상당한 부담이 될 수 있다.<sup>23)24)</sup>

## SIB의 유형

발달장애에서 보이는 SIB의 일반적인 형태는 한 가지 이상의 신체 표면(body surfaces)에 대한 자해를 포함하며, 종종 심한 조직 손상을 초래하며 공격적이고 파괴적인 행동도 동반한다. 실제로, 국소 타박상, 부기, 출혈, 감염 가능성이 있는 개방창(open wounds), 외상성 굳은살 및 뼈 골화 형성(traumatic callous and bony ossification formation), 변형(disfigurement), 외상성 백내장 형성(resulting from traumatic cataract formation) 또는 망막 박리(retinal detachment)로 인한 시력 손상(vision impairment), 고막 파열로 인한 청력 상실(hearing loss subsequent to ruptured ear drums), 두개 골 골절, 뇌출혈, 상부 운동 신경세포 손상후의 발생 및 심지어 사망까지 이를 수도 있다.<sup>25)26)</sup> 머리를 겨냥하는 SIB는 눈과 뇌가 손상을 받을 위험이 있으므로 특히 위험하다. 이러한 심각한 손상은 일상 생활의 문제를 악화시키고, SIB의 예방을 위하여 종종 단호한 조치를 취해야 하는 보호자나 간병인에게 상당한 스트레스가 가해진다.<sup>18)</sup> 이와 같은 특성으로 볼 때 SIB는 특정 정신장애의 증상으로 간주하기는 어렵다.<sup>27)</sup> 정신건강의학과 진단 분류와 원인적 접근을 넘나드는 자해의 공통적인 특징이 있을 수 있기 때문이다.<sup>28)</sup> SIB가 오래 지속되어 부정적인 사회적 결과를 야기하게 되면 삶의 질을 심각하게 감소시키며 조기 사망과도 연관이 있다. 그럼에도 SIB에 대한 개입과 대책에 대한 논의가 거의 없는 편이다.<sup>4)</sup> 그러므로 SIB 자체가 치료의 대상이 된다고 할 수 있으며, SIB의 행동 유형이나 심각성 및 삶의 질에 대한 영향 등에 따라 접근 방법도 달라질 수가 있겠다.<sup>29)</sup>

## SIB의 분류

SIB의 중증도를 분류하기 위한 공식 체계는 없지만, 대체로 경증(빈도 및 심각성, 손상 정도가 낮음), 중등도(좀더 빈번하고 심한 손상으로 의료적 치료가 필요함), 중증(빈도가 잦고 부상이 심한 손상)으로 구분하고 있으며, 임상총괄인상 척도(Clinical Global Impression Scale for Global Improvement)를 기반으로 하여 7단계의 중증도를 구분하기도 하였다.<sup>30-33)</sup> 대부분 환아에 따라 '선호하는' 형태와 대상 위치가 있으며, 자해 행위는 매우 반복적이고 상동적이며, 이러한 특성은 동일한 유전질환이나 신경발달장애에서도 개인마다 크게 다를 수 있다.

Simeon과 Favazza<sup>19)</sup>는 SIB를 현상학적 기초에 의한 분류로 상동증적(stereotypic), 주요(major), 강박적(compulsive), 충동적(impulsive)의 4가지 범주를 제안하였다. 상동증적 SIB는 매우 반복적이고, 단조롭고, 고정되어 있고, 종종 리듬이 있고, 걸보기에는 매우 충동적이고, 일반적으로 내용이 없

는(즉, 생각, 감정 및 의미가 결여된) 행위를 말하며, 경증에서 자해 조직 손상까지 광범위할 수 있으며, 심각하거나 때로는 생명을 위협하기도 한다. 목격자가 있는 사회적 상황과는 독립적으로 일어나며, 일반적으로 ID, ASD, 유전적 질환 등과 관련이 있어서 좀 더 생물학적 영향이 높아 보인다. 주요 SIB는 가장 극적이고 종종 생명을 위협하는 형태의 자해를 포함하며 신체 조직의 중요하고 종종 돌이킬 수 없는 손상을 유발한다. 거세, 눈 적출, 사지 절단 등의 행동이 흔하며, 반복적이기 보다는 개별적으로 발생한다. 조현병과 같은 정신병적 환청과 망상 상태에서 흔하고 그 외 중독, 뇌염, 우울증, 성격장애 등과도 연관이 있다. 강박적 SIB는 머리카락 뽑기(trichotillomania), 손톱 물어뜯기(onychophagia), 피부 뜯기(skin picking) 또는 피부 긁기(신경증적 찰과상)와 같이 일반적으로 하루에 여러 번 발생하는 반복적이고 종종 의례적인 행동이 포함된다. 충동성 SIB는 강박성 SIB와 겹치는 면이 있지만 좀 더 충동적인 경우에 해당하며, 가장 흔한 행동으로는 피부 베기(skin cutting), 피부 태우기(skin burning), 핀으로 스스로 찌르기(self-sticking with pins), 그리고 자신의 신체 부위나 물건을 사용하거나 물건에 몸을 던지는 다양한 방법에 의한 자해 등이 있다. 충동성 SIB는 일시적이거나 반복적이며, 삽화적으로는 일반적으로 긴장 완화 및 기분 상승을 촉진하는 간헐적인 자해 사건(예: 베기, 화상, 자해)을 포함한다. 점차 시간이 지남에 따라 반복적으로 되는데, SIB에 점점 더 몰두하게 됨에 따라 중독과 같은 특성을 갖게 된다.<sup>34)</sup>

## SIB와 비자살적 자해

SIB 연구에서는 종종 자기절단, 훼손, 준자살(parasuicide) 등의 자살과 관련한 모호하거나 불분명한 정의를 사용하여 혼동을 유발하기도 한다.<sup>31)</sup> 광의로 볼 때는 의도적이면서 자신에게 어느 정도의 신체적 또는 심리적 상해를 입힐 수 있거나 초래할 것이라는 점을 알면서 하는 모든 행동으로써 자살 및 자살 의도가 있는 행동도 포함될 수 있기 때문이다. 하지만 SIB는 자살뿐 아니라 비자살적 자해(non-suicidal self-injury, NSSI)와도 구별하고 있다.<sup>35)</sup> NSSI를 DSM-5에서는 '추가 연구가 필요한 상태'의 범주에 포함하였다.<sup>36)</sup> NSSI의 개념은 특정 자해 빈도(지난 1년간 5일 이상)와 특정 기능(부정적인 감정이나 인지 상태로부터의 해소), 자살 의도의 부재 및 행동에 대한 사회적 수용 등을 필요로 한다는 정의가 제시되고 있다.<sup>36)37)</sup> 즉, 자살의 의도는 없으면서 자신의 감정 조절 또는 해소를 위한 의도적인 신체 손상의 병적 또는 비병적 행동이라고 할 수 있다.<sup>38)39)</sup> 문화적으로 수용되고 있는 문신이나 피어싱 등도 해당될 수 있는데, 특징적으로는 15세에서 19세 사이의 청소년이 날카로운 물건으로 피부 자해를 반복



하는 행동을 보인다.<sup>35)</sup> Favaro와 Santonastaso<sup>40)</sup>는 NSSI를 두 가지 형태로 구분하였다. 충동성 NSSI는 긴장이 고조된 후에 일시적인 완화로 작용하는 충동적 행동으로 피부 절단과 화상 등이 있으며, 강박적 NSSI는 습관성으로 반복되는 비기능적 운동 행동으로 머리카락 잡아당기기, 피부 뜯기 등이 있다.<sup>36)</sup> NSSI의 일차 치료는 정신치료가 효과적이며,<sup>41-43)</sup> 기저 정신장애 등 임상적 특성에 따라 항정신병약물, 세로토닌 재흡수 억제제, 벤조디아제핀 등을 사용할 수 있으나 아직 일관된 효용은 입증되지 않았다.<sup>44)</sup>

### SIB의 치료

SIB가 발달장애에서 나타나는 것에 대하여 발달정신병리학적 관점에서는 복잡한 시스템 이론에 기반한 ‘동등성’과 ‘다중성’의 개념을 통하여 SIB의 원인적 이질성으로 유전자 및 신경전달물질 등의 생물학적 변수, 행동 간에 예측할 수 없는 상호작용에 기인하는 것으로 설명하고는 있지만, 원인론적 이해나 위험 요인에 대한 실증적인 증거는 부족하다.<sup>45-47)</sup> 따라서 치료에 적용할 수 있을 만큼 신뢰성이 있는 이론적 가설은 아직 없어서 아직은 원인적인 접근은 어렵다는 것이다.<sup>36)45)</sup> SIB의 평가 및 치료에서 인정되는 표준화된 접근 방식 및 치료에서 인정되는 표준 접근법은 신경행동 또는 생체행동 모델로 알려져 있다.<sup>18)</sup> 현재로서는 행동 중재가 통제된 조건에서 사용될 때 종종 매우 효과적인 것으로 보고되지만 효과의 일반화 및 유지에 관한 자료 또한 거의 없으며,<sup>48)49)</sup> 일부 SIB 환자들에서 행동 중재는 제한적이거나 이득이 없다고 종종 주장되기도 한다.<sup>45)50)</sup> 국내에서는 2016년부터 보건복지부가 발달장애인의 행동 문제에 대한 전문적 치료를 위하여 거점병원을 지정하여 행동발달증진센터를 운영하고 있으며, 점차 전국으로 확대하고 있다.

여기서 고려할 점으로 자해라는 용어는 ‘그 행동은 바람직하지 않다고 보는 것이 자명함을 의미한다면 치료가 필요하고 정당하다’는 전제를 포함하게 된다. 임상적인 문제는 해결책만이 아니라 특별한 중재 방법 또한 필요한 것으로 정의되어야 한다.<sup>20)51)</sup> 그러나 자명하다는 기준은 과학적인 방법보다는 중재의 사회적 수용 가능성을 명시하는 데 더 많이 사용된다.<sup>20)</sup> 더욱이 근본적으로 SIB는 건강과 삶에 대한 열망과는 상충되는 것처럼 보이는 행동이다.<sup>31)</sup> 이로 인하여 앞서 언급한 것 같이 극단적인 치료가 사회적으로 받아들여질 수도 있을 것이다. 다시 말하면 정신장애 치료의 역사 속에서 보면 이런 사안일수록 치료와 관련된 선의(beneficence), 해악 금지(non-maleficence)와 관련된 지나치게 자의적인 윤리적 검토 후 마치 정의인 것 같이 되고, 잘못된 정보에 의한 정신건강능력(mental health literacy)<sup>52)</sup>을 가진 보호자의 동의

아래 시행되었을 가능성을 배제하기 어려울 것이다. 이런 흐름으로 인하여 어떤 치료법들은 유용성과는 상관없이 사회에서 무조건적으로 배척을 받게 된다. 이런 흐름의 가장 큰 피해자는 ECT로 도움을 받을 수 있는 수많은 환자일 것으로 생각할 수 있다. 물론 ECT가 바로 윤리적 검토를 철저히 거치지 않은 치료법이라 주장하는 사람도 있을 수 있으므로 근거-기반의 치료임을 입증하여야 한다. 그러나 SIB의 약물 치료에서도 보듯이 근거-기반의 치료의 문제를 고려해 놓지 않는다고 하여도, 약물 치료의 결과를 평가하는 척도들은 SIB와 같은 특정 행동의 변화를 측정하도록 고안되지 않았으며, 다양한 원인에 의한 ID 환자들에 대한 연구 결과도 하나의 치료법에 대한 반응은 변동성이 높을 가능성이 있다는 것이다.<sup>4)</sup> 이러한 문제점을 극복하는 것은 SIB에 광범위한 ECT가 시행된 후에 비로소 이루어질 수 있으므로 순환 모순이지만 원천적으로 불가능하다.

### 긴장증(catatonia)

#### 긴장증의 역사

긴장증은 1874년에 독일 정신과의사인 Karl Kahlbaum이 “환자의 비정상적인 근육 및 정신적 긴장을 나타내는 긴장의 광기(insanity of tension)”로 처음 기술하였으며, 기분과 사고의 혼란으로 운동 기능이 교란된 정신의학적 증후군이다.<sup>53)54)</sup> Kraepelin도 Kahlbaum의 관점을 받아들여서 1893년에 조울병 및 조기 치매 등의 정신병적 장애에서 나타나는 긴장증을 기술하였지만, 예후가 좋았음에도 불구하고 긴장증을 조기 치매의 진행성으로 악화되는 질병의 한 형태로 기술하였다.<sup>55)</sup> 그리하여 긴장증이 있으면 곧바로 ‘조현병’이라고 생각하게 되면서, 점차 긴장증은 조현병의 아형 중 하나로 인식되었다. Kahlbaum에 의해 기술된 운동 이상은 현대 정신의학에서는 일반적으로 근본적인 병리학적 개념과는 상관없이 긴장증의 전형적인 징후로 간주하였다.<sup>54)</sup>

Kahlbaum은 이미 긴장증에도 정동 증상이 존재함을 언급하였지만 초기 연구자들은 특징적인 증상의 한 가지 요소만 기술하는 데 그침으로써 운동 이상을 임상적으로 동질적인 개념으로 정의하는 데 실패하였다.<sup>54)</sup> Bonhoeffer<sup>56)</sup>는 다른 신체 질환에 의한 외인성 정신병에서 나타나는 긴장증을 기술하였으며, 이후에는 약물과 다른 물질 등 일반 의학적 상태에서 긴장증이 연관됨이 보고되었다.<sup>26)57)58)</sup> 이와 같이 질병분류학적으로는 비특이적으로 제안되었지만,<sup>59)60)</sup> 일부에서는 긴장증의 치료 결정과 예후에 대한 예측 가치가 높다는 점에서 별도의 독립적 진단으로 할 것을 주장하기도 하였다.<sup>54)</sup>

긴장증에 대한 관심은 1920년 후반부터 점차 줄어들었지

만, Wernicke-Kleist-Leonhard 학파만은 예외로 특히 정신 운동성 장애에 중점을 두었고, 정신 장애에서 나타나는 긴장 증에 대하여 자세하게 설명하였다.<sup>61-64</sup> 이는 Karl Leonhard의 내인성 정신병 분류에서 현재의 형태로 나타나는 긴장성 정신병(catatonic psychosis)의 독립적인 개념으로 귀결되었다.<sup>54,65</sup> 특히 강조될 것은 Leonhard가 1988년에 사망하기 전에 심리사회적 상황의 중요성과 아동기 긴장증을 추가하여 1986년에 “내인성 정신병의 분류” 6판에 포함하였다.<sup>66</sup> 소아 조현병 환자의 긴장증은 성인 조현병 환자에서 나타나는 증상과 유사하다고 하였다. 다만 소아에서의 운동성은 강박적 움직임의 경향이 매우 두드러짐으로써 때때로 오랜 기간에 걸쳐서 때리고 도는 운동이 쉬지 않고 반복되는데, 특히 거부적 긴장증(negativistic catatonia)에서 많이 관찰된다. 머리를 계속 돌리거나 비트는 행동은 긴장증에 특징적인 요소이다. 전신적 안절부절(restlessness)이 이상운동성 긴장증(parakinetic catatonia)에서 발생하는 것처럼 긴장증의 일부라면, 이 안절부절은 긴장성 아동에서 더 두드러지게 발생한다.<sup>67</sup> Leonhard는 긴장증으로 고통받는 아이들이 종종 자폐증 행동을 보인다고 강조했다.<sup>68</sup>

### 긴장증의 진단 분류

우리가 현재 사용하는 공식적 진단 분류에서도 긴장증은 1992년 International Classification of Diseases 10th Revision과 1994년 DSM, Fourth Edition (DSM-IV)까지는 전통적으로 Kraepelin의 분류에 따라 조현병의 아형으로 분류되었다. 다만, DSM-IV에서는 1970년대 이후 조증 등 기분 장애, 다른 의학적 질환, 뇌전증 등에서도 긴장증의 발생이 보고된 점<sup>25,26,69</sup>을 반영하여 조현병의 아형뿐 아니라, 일반 의학적 상태의 이차적인 증상 및 기분 삽화의 특정 지정자로 추가되었다.<sup>55</sup> 이후 DSM-5에서는 긴장증 증후군(catatonic syndrome)으로 재분류되면서 긴장증은 여러 다양한 장애에서 나타날 수 있는 것으로 보고되었다.<sup>70-73</sup> 소아청소년 긴장증의 유병률 추정치는 소아정신건강의학과 입원환자의 0.6%~17.0%까지 다양하다.<sup>74-77</sup> ASD 청소년과 성인에서는 4%~17%에서 긴장증의 발생이 추정된다.<sup>78-81</sup> 긴장증을 보이는 유전적 질환으로는 펠란-맥터미드 증후군,<sup>82</sup> 다운 증후군,<sup>83</sup> 22q11 결실 증후군, 프라더-윌리 증후군 등이 보고되고 있다.<sup>84-87</sup> 특히 치료되지 않은 악성 긴장증의 사망률은 최대 20%에 이른다.<sup>88</sup>

DSM-5에서는 혼미(stupor), 경직증(cataplexy), 납굴증(waxy flexibility), 함구증(mutism), 거부증(negativism), 자세(posturing), 매너리즘/타성(mannerism), 상동증(stereotypy), 흥분(agitation), 찡그림(grimacing), 반향언어(echo-

lalia), 반향동작(echopraxia)의 12가지 증상 중에서 3가지만 있으면 긴장증으로 진단하도록 하였다. 즉, 어느 하나의 질병 특유한 증상은 없으며, 환자와 시간에 따라 크게 다를 수 있다.<sup>37,89</sup> 긴장증은 다른 상태와 쉽게 인식되고 구별될 수 있으며, 특징적인 경과와 효과적인 치료 반응을 갖고 있기 때문에 독립적이고 별도의 증후군으로 분류할 것을 주장하고 있으나,<sup>89,90</sup> 정신증 이외에서는 긴장증 진단이 용이하지 않고<sup>91</sup> 분명한 정신병리학적 정의와 개념이 명확하지 않아 진단적 매뉴얼에는 반영되지 않고 있기 때문에 긴장증의 발견과 진단을 발전시킬 필요가 있다.

이에 따라 긴장증 평가 척도로 Modified Rogers Scale,<sup>92</sup> Rogers Catatonia Scale,<sup>93</sup> Bush-Francis Catatonia Rating Scale,<sup>94</sup> Northhoff Catatonia Rating Scale,<sup>95</sup> Braunig Catatonia Rating Scale,<sup>96</sup> Kanner Scale<sup>97</sup> 등이 개발 되어있다.<sup>71</sup>

### 긴장증의 치료

긴장증에 대한 체계적인 연구는 부족하며,<sup>98</sup> 치료적 효과는 생명을 위협하는 등 정신과적 응급상태의 환자에서 신속한 치료 효과를 보이는 후향적 연구와 임상 보고서에 근거하고 있다.<sup>99</sup> 긴장증의 약물치료로 1930년대 초기에는 바르비투르산염, 1980년대 이후 현재는 벤조디아제핀을 사용하고 있으며 90% 이상이 반응하였다.<sup>100</sup> 로라제팜에 내성이 있거나,<sup>101,102</sup> 부분적 반응을 보이거나,<sup>103</sup> 아모바르비탈에 저항성을 보이는<sup>104</sup> 등 약물치료가 실패한 경우는 ECT가 효과적이다. 보다 악성이고 섬망이 있고, 생명을 위협받는 긴장증에 대한 ECT의 효능은 더 효과적이다.<sup>100</sup> 하지만 앞서 기술한 것처럼 임상보고서에 의존하는 경우가 많기 때문에 일관된 결과를 도출하기가 어렵다. 국내에서 보고된 소아 사례를 예로 들어 보면, ASD나 ID의 병력이 없는 11세 남아가 고열과 강직, 섬망, 긴장성 흥분 등 치사성 긴장증 소견을 보였다.<sup>105</sup> 약물치료로 일부 증상이 호전되었으나 대소변을 가리지 못하는 퇴행 행동과 다양한 난치성 행동 문제가 지속되어 응급으로 ECT를 적용한 사례보고가 있다. 4회의 ECT로 강직이나 긴장성 자세 등 행동 문제의 개선 효과가 있었다. 이 사례보고에서는 전하량 및 전극 위치 등 ECT 방법에 대한 자세한 기술은 없었으나, 경련 기간이 1분 23초에서 3분 23초로 두 번은 약물투여로 중단시켜야 할 정도로 긴 것으로 보아 전하량이 다소 높았을 가능성은 있다.

긴장증의 치료에는 동반되는 진단의 영향을 많이 받는다.<sup>106</sup> 특히 소아청소년에는 긴장증을 양극성 장애나 정신병 등의 기존 병리로 잘 못 진단하게 되어 병적 상태를 장기화하는 경우가 있다.<sup>107</sup> 역사적으로도 긴장증은 조현병의 한 유형으로 보았기 때문에 ECT가 조현병의 1차 치료방법으로 간

주되지 않아서 긴장증의 조기 치료로 선택되지 않은 면이 있다.<sup>99)</sup> 벤조디아제핀에 의한 치료 반응의 분석은 긴장증의 현상학과 병태생리학을 탐색하기 위하여 중요하다. ECT는 긴장증 뿐만 아니라 정신 장애의 전체 증상을 개선하는 반면, 벤조디아제핀은 우울증이나 정신증 등에는 효과없이 긴장증의 징후 및 증상만을 완화시킨다.<sup>61)</sup> Taylor와 Fink<sup>106)</sup>가 제안한 긴장증의 치료 알고리즘에서는, 먼저 긴장증 평가 척도로 증상을 평가하고, 다음에 로라제팜 유발시험(lorazepam challenge test)으로 1 mg을 정주하여 2-5분 후에 긴장증의 증상 평가를 반복하고 변화가 없는 경우 1 mg을 추가하여 증상 평가를 반복하도록 하였다. 평가 척도상 50% 이상의 증상 감소가 있으면 일일 6-24 mg의 로라제팜으로 치료하는데, 신속한 호전이 있으면 6개월간 로라제팜의 유지치료를 한다. 긴장증이 1주일 내에 해소되지 않거나 로라제팜 유발시험에 반응이 없으면 양측성 ECT를 시행하도록 하고 있다.<sup>89)</sup>

## 발달장애에서의 SIB와 긴장증

지금까지 기술된 바와 같은 반복적인 SIB는 전형적으로 ID 나 ASD에서 흔하고 심각하게 나타나며,<sup>65)108)</sup> 본질적으로 이질적인 특성을 갖고 있다. 이는 자기 자신과 타인에 대하여 불안감을 주고 매우 두려운 부적응 행동으로, 심각한 발달장애, 현실감의 상실, 또는 자신의 감정과 공격 충동의 조절 능력의 결핍 등을 시사한다. 이러한 요소들은 SIB에 대한 이해와 치료에 방해가 될 수 있다. ASD, ID, 뚜레 증후군, 정신병, 충동조절장애, 상동증, 심한 인격장애 등과 같은 정신의학적인 상태의 다양한 측면에 더하여 더욱 복잡해지기 때문이다.<sup>109)</sup> 다른 사람들 앞에서 심하게 머리 흔들기를 보이는 발달장애에서의 자해는 비장애인인 혼자서 가끔 손목을 긋는 행동과는 다른 현상으로 간주된다.<sup>31)</sup>

## ASD

ASD의 초기 연구에서는 긴장증을 포함하지 않았지만 일부 증상은 긴장증과 겹친다.<sup>110)</sup> ASD는 임상적으로 유의미한 사회적 의사소통 기술의 결핍 뿐만 아니라, 제한적이고 반복적이며 상동증적인 양상의 관심 및 활동, 행동을 나타낸다.<sup>37)</sup> 상동증적 행동의 가장 심한 형태는 손상을 유발할 가능성이 높은 SIB로 ASD의 1/4에서 나타나며, 머리 흔들기(head banging), 자신 때리기(self-directed slapping) 및 주먹으로 치기(punching), 긁기(scratching), 문지르기(rubbing), 물기(biting) 등을 보인다.<sup>111-113)</sup> 이러한 긴장증이나 SIB 등의 행동 증상들은 치료가 가능하기 때문에 감별 또는 구별하는 노력이 중요하다.<sup>114)</sup>

## ASD와 SIB

ASD 소아들에게 SIB는 흔하며 핵심 진단 증상의 하나가 된다.<sup>112)115)</sup> 머리 흔들기나 자기 때리기, 물기 등의 행동은 종종 리드미컬하게 제한적이고 반복적인 행동(restricted, repetitive behavior)의 특징적인 형태로 나타나는데, 이는 출혈, 골절, 감각 상실 등의 신체적 손상을 유발할 수 있다.<sup>16)</sup> SIB는 이러한 신체적 상해 외에도 적절한 사회적 적응 기술을 습득하고 삶의 질을 개발하는 데 방해가 되며,<sup>116)</sup> 결국에는 정신 병원에 입원하거나 주거 시설에 입소하게 되면서 치료 비용도 높아지게 되며,<sup>117)118)</sup> 부모나 보호자에게는 스트레스와 우울증을 증가시킨다.<sup>119)120)</sup> 정신 증상을 분류하는 기준이나 평가하는 척도에서는 이러한 반복 행동의 SIB를 범주 또는 하위 척도로 명명하고 있다.<sup>121)</sup>

ASD 환자의 경우, SIB의 시점 유병률 추정치는 소아에서 20%-53%로 다양하며,<sup>116)122)</sup> SIB는 자폐증의 흔한 증상으로 알려져 있지만 메타분석에 의한 유병률의 결론은 아직 없다. 37개 논문의 14379명의 참가자 자료를 분석한 최근 연구에 의하면 자폐증 자해의 통합 추정 유병률은 42% (신뢰 구간 38%-47%)였다.<sup>123)</sup> ASD에서 공격성은 8%-68%에서 나타난다.<sup>124)</sup> 성인 환자에서는 SIB가 69%까지 증가하기도 한다.<sup>125)</sup> 미국의 자폐증과 발달 장애 모니터링(Autism and Developmental Disability Monitoring) 네트워크 내 8065명의 어린이들에 대한 연구에서는 시간과 기관 전체에서 27.7%의 유병률을 기록했다.<sup>122)</sup> 2018년에 자폐증 및 지적 발달 장애를 가진 성인을 대상으로 한 연구에 따르면 SIB는 두 가지 진단을 모두 받은 사람의 37.7%에서 발생했지만 ASD가 없는 사람의 경우는 11.4%에 불과했다.<sup>126)127)</sup> ASD 환자의 SIB 유병률은 발달 지연 및 장애(developmental delays and disorders, DD) 환자보다 높으며, 특히 중증도 환자가 많다.<sup>125)128-131)</sup> 또한 DD와 ASD가 동반되면 SIB 위험성이 증가한다.<sup>128)132)133)</sup> 실제로 ASD 환자에서 SIB와 공격적 행동 등이 가장 빈번한 입원 사유가 되고 있다.<sup>134)135)</sup> SIB의 위험 요인은 SIB의 발생 확률을 직접 증가시키고 인과관계의 일부가 되며, 표지자는 SIB의 발생 확률의 증가와 관련이 있지만 반드시 인과관계가 있지는 않은 것으로 구분하고 있는데 현재까지는 서로 상이한 연구 결과들이 많다.<sup>115)136)</sup> ASD에서 SIB는 3년 이상 지속되며, 충동성과 사회적 상호관계의 결핍은 이들에게 지속적인 자해에 대한 중단적 위험 표지자가 된다. 이러한 결과는 자해의 발현과 유지에 있어 행동 조절 장애와 ASD 유형의 결함을 시사한다.<sup>22)</sup>

SIB는 이자극성, 상동증 및 과잉 행동 등과 유의한 관계가 있다. Brinkley 등<sup>137)</sup>이 이상 행동 점검표(Aberrant Behaviour Checklist, ABC)를 통하여 SIB가 높은 ASD 환자들이



ABC 하위 척도에서 유의하게 더 높은 점수를 받아서 운동성 충동 조절의 어려움과 억제 장애로 악화되는 이상 행동 간의 관련이 있음을 확인하였다.<sup>138)</sup> 한편 SIB는 사회적 철수를 의미하는 무기력(lethargy) 영역 사이에는 유의한 관계가 없었다.<sup>139)140)</sup> 상동증적 행동과 관련한 잦은 반복적 또는 의식적 행동들은 SIB에 대한 강력한 위협표지자가 되며,<sup>141)</sup> 상동증은 SIB와 종종 유사하며 특정 사례에서는 SIB의 전구 증상이 되기도 한다.<sup>142)143)</sup>

ASD 환자에서 SIB의 치료는 복잡하고 다면적이다. 최근의 치료는 정신약물과 행동적 접근법을 함께하는 포괄적인 방법을 사용한다. 행동적 접근법은 자해를 유지하거나 강화하는 작동 기능을 구별하여 결과적으로 자해 행동을 중단시키거나 다른 행동으로 대체하도록 증재한다.<sup>144)145)</sup> 예를 들어 ASD 환자가 이차 이득 또는 부정적 행동의 일반적 양상으로 파괴적 행동을 하는 경우에는 세밀한 행동 분석을 통하여 그에 따른 치료방법을 적용한다.<sup>146)</sup> 약물치료에는 항정신병약물, 항우울제, 항불안제, 항경련제, 오피오이드 길항제 등이 효과있는 증재로 사용되고 있다.<sup>147)148)</sup> 현재 아리피프라졸<sup>149)150)</sup>과 리스페리돈<sup>151)</sup>은 ASD의 자해에 대하여 FDA가 적응으로 인정한 약물이다. 한편 증상이 심하거나 약물치료에 저항성을 보이는 경우에는 신체적 손상이나 사회적 부적응의 악화를 사전에 막을 수 있도록 추가적인 치료방법을 고려할 필요가 있다.<sup>113)152)</sup> Wachtel 등<sup>7)126)153)</sup>에 의하면 집중적인 약물치료와 행동 증재가 SIB의 장기간 억제에 효과가 없었던 환자들, 즉 1시간 내 수백 번의 자해 행동으로 출혈, 봉와직염, 만성 부종, 외상성 백내장, 망막 박리로 인한 실명과 같은 치명적인 결과를 유발한 환자들에서 ECT로 모두 크게 개선되었으며 신속한 반응을 보였다. 종종 1-2회의 ECT 시행으로도 현저한 개선이 있었으며 일부에서는 SIB의 빈도가 ECT 치료 전과 비교하여 90% 이상의 억제 효과가 있었다.<sup>113)</sup> 기분장애, 정신병 및 긴장증 환자에서 SIB가 나타나는 경우 ECT가 효과를 보인다는 것을 감안하면,<sup>154-156)</sup> 기분장애와 긴장증이 병발한 ASD 및 ID가 있는 소아청소년에서 반복적이고 치료저항성인 SIB를 ECT로 성공적으로 사용한 사례 보고가 증가하고 있음을 이해할 수 있다.<sup>113)</sup>

## ASD와 긴장증

영국, 스웨덴, 미국 등에서 실시된 대규모 연구<sup>78)80)81)157)</sup>에서 ASD 환자의 12%~20%에서 긴장증의 진단기준을 충족하는 병존 질환으로 발생하는 것으로 알려지고 있다. ASD 환자에서 반복적이고 매우 자주 공격적 증상 또는 SIB가 일상 기능의 변화와 다른 긴장증의 증상이 병존하고 이차 이득이 없다면 긴장증의 진단을 고려해야 한다.<sup>18)146)158)159)</sup>

Wing과 Shah<sup>81)</sup>는 자폐 청소년과 청년 집단에서 약 17%가 긴장증의 현대 기준을 만족한다고 보고하였다. 대부분의 긴장증 증상은 10세에서 19세 사이에 시작되었으며, 15세 이상이 되어야 긴장증의 완전한 증후군을 보였다. 그들은 특히 특징적인 자폐증의 긴장증이 될 수 있는 추가 증상으로 무동기증(amotivation), 전반적 둔화(global slowness), 신속한 의존(prompt-dependence) 및 이전에 습득한 작업을 완료하는데 오랜 시간이 걸림(prolonged time to complete previously mastered tasks) 등을 강조하였다. 이러한 행동들은 반항적(oppositional) 또는 고집스러운(stubborn) 행동으로 오인할 수 있기 때문에 추가 증상으로 인식하는 것이 중요하다.<sup>110)</sup> Billstedt 등<sup>80)</sup>의 연구에서는 17세에서 40세의 120명의 자폐성 사람들 중에서 13명(12%)은 중증의 운동 개시 문제를 동반한 긴장증으로 임상적인 진단을 받았다. Ghaziuddin 등<sup>78)</sup>의 일반 소아청소년 입원 환자 101명에 대한 후향적 병력지 조사에서 17.8%가 긴장증의 연구 기준에 부합하였다. Breen과 Hare<sup>157)</sup>는 온라인 모집과 검사를 통하여 99명의 ASD 환자를 대상으로 약화된 행동 설문지(Attenuated Behaviour Questionnaire)로 20명(20.2%)의 긴장증을 진단하였다. 반면 Hutton 등<sup>60)</sup>은 135명의 ASD 환자를 대상으로 한 추적 조사에서 5명(3.7%)만이 긴장증이 발현되었다고 하였다.

ASD에서 ECT는 ASD 자체보다는 동반하는 공격성과 SIB, 긴장증 등의 증상을 성공적으로 치료하는 데 도움이 된다.<sup>126)159)161)</sup> 소아청소년 ASD 환자에서 긴장증의 관해를 위해서는 집중적으로 주 3회를 시행하며, 중증 또는 악성 긴장증에는 3-5일간 매일 ECT 치료가 필요할 수도 있다. 환자의 전체적인 반응은 처음 5-6 세션 후에, 그리고 다시 10-12 세션 후에 평가하도록 한다. 급성기 ECT 후에는 일반적으로 재발을 방지하기 위해 유지 ECT (6개월 이상 매주 또는 격주마다 ECT 세션)를 하도록 한다.<sup>162-165)</sup>

## ID

오랫동안 ID에서 나타나는 정서 및 행동 장애들은 병존하는 정신장애로 보기보다는 부적응적인 학습 능력과 심리사회적 경험의 결과로 간주되었다.<sup>166)</sup> 그러나 ID 환자에서 정신장애의 유병률은 일반인구의 약 7%에 비하여 3-4배 높으며,<sup>167-170)</sup> 평가 과정, 진단 기준, 장애의 정도에 따라 10%-80%의 병존 질환 유병률을 보인다.<sup>171)172)</sup> 병존 질환으로서 특히 조현병은 일반 인구보다 2-3배 높으며, 기분장애도 흔하게 발생하는데 2%-10%는 심각한 기분장애를 나타내고 50%는 기분부전장애가 동반된다.<sup>173)174)</sup> 즉, 일반인구에서 정신장애의 치료에 대한 관심과 동일하게 또는 더 많이 ID 환자의 치료적 접근이 필요하다.<sup>168)175)</sup> ID의 존재 여부에 따라 ASD의 자해

가 차이를 보일 수가 있다. ID가 없는 ASD의 자해는 일반인의 자해 또는 NSSI와 유사한 면이 있다.<sup>176)</sup> 즉, 절단, 파기, 화상 등이 나타나서 ID 환자에서 보이는 머리 흔들기와 자신 때리기 등의 반복적이고 리듬이 있는 행동과는 다르다. 이는 ID가 없는 경우의 자해가 부정적 감정을 조절하고 정서적 고통을 감소하기 위한 것이라면 인지적 행동접근이 더 유용할 수 있다.<sup>123)</sup>

ID에 정신질환이 동반되는 경우에는 진단, 증상 및 행동의 특성에 따라 약물치료를 포함한 기존의 치료법을 우선하게 된다.<sup>177)</sup> 그러나, 일부 환자에서 약물치료 등에 실패한 난치성 정신질환이 있는 경우에는 ECT가 추천되며, 특히 기분장애와 조현병의 과잉행동(hyperactivity)과 자극 과민성(irritability) 등의 증상에 효과적이다.<sup>162)167)178)179)</sup> 한편 ID 환자에서 정신장애의 유병률은 증가하는 추세이고 ECT가 이러한 병존 질환에서 효과적이지만, ECT는 지적 장애가 없는 환자보다 3배 적게 시행되고 있다.<sup>167)169)180)</sup> 이에 대하여 Reinblatt 등<sup>179)</sup>은 서면 동의를 받기 어렵거나 무작위 대조군 연구 등의 증거 기반 자료가 적기 때문이라고 하였다. ID의 병존 질환인 정신병과 기분 장애 등으로 인한 자해 행동 및 공격성으로 자신과 보호자들에게 위해가 가해질 수 있다.<sup>7)126)181)182)</sup> ID 환자에서 병존 질환으로 기존의 치료법에 반응이 없는 난치성 정신병 또는 기분 장애가 있는 경우 대부분 사례 시리즈로 보고된 결과이지만 ECT가 괄목할 만한 임상적 효과를 보였으며 부작용도 적었다.<sup>168)179)183)184)</sup>

Collins 등<sup>184)</sup>은 문헌 조사를 통하여 ECT를 받은 72명의 ID 환자를 검토하였다. 대부분 사례 보고였으며, 연령은 14-69세로 51% (37명)는 경도, 29% (21명)는 중등도, 4% (3명)는 중증 ID에 해당하였다. ECT의 적응증은 정서 장애(58%)가 가장 많았으며, 그 외 조현병, 조현정동장애, 행동 장애, 긴장증 등이었다. ECT 전에 약물 치료를 받은 환자들은 평균 5종류의 항정신성 약물을 투여받고 있었다. 양측성 전극위치를 단측성 전극위치보다 더 많이 사용하였으며, ECT의 평균 세션 수는 다양하였으며 ID의 중증도와는 상관 관계가 없었다.

## 결 론

본 중설에서는 신경발달장애 중 ID와 ASD에서 나타나는 심각한 행동 문제인 SIB와 긴장증의 임상양상 및 특징을 알아보고, 이러한 난치성 행동 문제의 치료로 ECT의 유용성에 대해 기술하였다. 문헌 고찰을 통해서 ECT가 기존 치료법에 반응이 없는 난치성 자해 행동과 긴장증에 효과적임을 알 수 있었고, 특히 성인뿐만 아니라 소아청소년에게도 유용한 치료가 될 수 있음을 보여주었다. 소아청소년에서 ECT 사용

은 유용한 임상 반응, 적은 부작용, 최소한의 장기적 신경인지 효과에도 불구하고, 여전히 많은 장애물로 인하여 불필요한 치료 지연과 함께 치료에 대한 접근성 저하를 초래하고 있다. 소아청소년에서 ECT에 의한 경련이나 마취제의 영향에 대한 자료는 충분하지 않아서 대부분 성인 자료에서 추론하고 있다. 향후 연구과제로 소아청소년에 대한 ECT의 직접적인 효능 및 안전성, 빈번한 마취유도에 의한 영향 등의 결과가 필요할 것으로 보인다.<sup>185)</sup>

**중심 단어:** 신경발달장애; 자해 행동; 지적 장애; 자폐스펙트럼장애; 긴장증; 전기경련치료.

## Acknowledgments

This research was partly supported by the research fund of the Yong-In Institute of Psychiatry affiliated with the Yong-In Hospital Maintenance Foundation, a medical corporation.

## Conflicts of interest

Yong Sik Kim received grants, research support, and honoraria from Janssen and Otsuka. All remaining authors have declared no conflicts of interest.

## Author Contributions

Conceptualization: Nam Young Lee, Hee Cheol Kim, Yong Sik Kim, In Won Chung. Data curation: Hye-Jin Seo, Nam Young Lee, Kyu Young Lee, In Won Chung. Formal analysis: Hye-Jin Seo, Nam Young Lee, Kyu Young Lee, In Won Chung. Funding acquisition: Hye-Jin Seo, Kyu Young Lee, Hee Cheol Kim, In Won Chung. Investigation: Hye-Jin Seo, Soo-Young Bhang, Yong Sik Kim, In Won Chung. Methodology: Hye-Jin Seo, Kyu Young Lee, Soo-Young Bhang, In Won Chung. Project administration: Kyu Young Lee, Hee Cheol Kim, In Won Chung. Resources: Nam Young Lee, Kyu Young Lee, Soo-Young Bhang, In Won Chung. Software: Nam Young Lee, Kyu Young Lee, Soo-Young Bhang, Hee Cheol Kim. Supervision: Geon Ho Bahn, Soo-Young Bhang, Hee Cheol Kim, Yong Sik Kim. Validation: Nam Young Lee, Kyu Young Lee, Geon Ho Bahn, Yong Sik Kim. Visualization: Kyu Young Lee, Geon Ho Bahn, Soo-Young Bhang, In Won Chung. Writing—original draft: Hye-Jin Seo, Nam Young Lee, In Won Chung. Writing—review & editing: Nam Young Lee, Yong Sik Kim, In Won Chung.

## ORCID iDs

Hye-Jin Seo	<a href="https://orcid.org/0000-0003-2683-7717">https://orcid.org/0000-0003-2683-7717</a>
Nam Young Lee	<a href="https://orcid.org/0000-0002-5704-0463">https://orcid.org/0000-0002-5704-0463</a>
Kyu Young Lee	<a href="https://orcid.org/0000-0003-3214-6082">https://orcid.org/0000-0003-3214-6082</a>
Geon Ho Bahn	<a href="https://orcid.org/0000-0002-3550-0422">https://orcid.org/0000-0002-3550-0422</a>
Soo-Young Bhang	<a href="https://orcid.org/0000-0001-5254-0314">https://orcid.org/0000-0001-5254-0314</a>
Hee Cheol Kim	<a href="https://orcid.org/0000-0001-7957-4872">https://orcid.org/0000-0001-7957-4872</a>
Yong Sik Kim	<a href="https://orcid.org/0000-0002-8845-5186">https://orcid.org/0000-0002-8845-5186</a>
In Won Chung	<a href="https://orcid.org/0000-0002-7852-7430">https://orcid.org/0000-0002-7852-7430</a>

## REFERENCES

- 1) Rutter MJ, Bishop D, Pine DS, Scott S, Stevenson JS, Taylor EA, et al. Rutter's child and adolescent psychiatry. 5th ed. Hoboken, NJ:



- John Wiley & Sons;2011.
- 2) **Kim BN, Kim Y.** Guidelines for the treatment of problem behavior in children and adolescents with developmental disabilities. Chapter 3: understanding problem behavior. Seoul: National Center for Mental Health;2018. p.30-55.
  - 3) **Gomez A, Rana F, Varghese S.** Pharmacological interventions for self-injurious behaviour in adults with intellectual disabilities: abridged republication of a Cochrane systematic review. *J Psychopharmacol* 2014;28:624-632.
  - 4) **Furniss F, Biswas AB.** Self-injurious behavior in individuals with neurodevelopmental conditions. Cham: Springer;2020.
  - 5) **Bahji A, Pierce M, Wong J, Roberge JN, Ortega I, Patten S.** Comparative efficacy and acceptability of psychotherapies for self-harm and suicidal behavior among children and adolescents: a systematic review and network meta-analysis. *JAMA Netw Open* 2021;4: e216614.
  - 6) **Kim BN, Kim Y.** Guidelines for the treatment of problem behavior in children and adolescents with developmental disabilities. Chapter 5: medication for autism problem behavior. Seoul: National Center for Mental Health;2018. p.78-87.
  - 7) **Wachtel LE, Contrucci-Kuhn SA, Griffin M, Thompson A, Dhossche DM, Reti IM.** ECT for self-injury in an autistic boy. *Eur Child Adolesc Psychiatry* 2009;18:458-463.
  - 8) **Kim T, Ryu JE, Bahn GH.** Brain stimulation and modulation for autism spectrum disorder. *Hanyang Med Rev* 2016;36:65-71.
  - 9) **Doruk Camsari D, Kirkovski M, Croarkin PE.** Therapeutic applications of invasive neuromodulation in children and adolescents. *Psychiatr Clin North Am* 2018;41:479-483.
  - 10) **Consoli A, Benmiloud M, Wachtel L, Dhossche D, Cohen D, Bonnot O.** Electroconvulsive therapy in adolescents with the catatonia syndrome: efficacy and ethics. *J ECT* 2010;26:259-265.
  - 11) **González-Menéndez A, Arboleya Faedo T, González-Pando D, Ordoñez-Cambor N, García-Vega E, Paino M.** Psychological inflexibility in people with chronic psychosis: the mediating role of self-stigma and social functioning. *Int J Environ Res Public Health* 2021;18:12376.
  - 12) **Sachs M, Madaan V.** Electroconvulsive therapy in children and adolescents: brief overview and ethical issues. Washington, DC: American Academy of Child and Adolescent Psychiatry;2012.
  - 13) **Jeong SH, Yoon T, Kim YS.** Chapter 2. Social implications. In: Kim YS, Kang UG, Ahn YM, Yoon T, Chung IW, editors. *Electroconvulsive therapy: theory and practice*. Seoul: Seoul National University Publication Center;2019. p.27-29.
  - 14) **Tate BG, Baroff GS.** Aversive control of self-injurious behavior in a psychotic boy. *Behav Res Ther* 1966;4:281-287.
  - 15) **Cain AC.** The presuperego 'turning-inward' of aggression. *Psychoanal Q* 1961;30:171-208.
  - 16) **Fee VE, Matson JL.** Definition, classification, and taxonomy. In: Luiselli JK, Matson JL, Singh NN, editors. *Self-injurious behavior. Disorders of human learning, behavior, and communication*. New York: Springer;1992. p.3-20.
  - 17) **Goldfarb W.** Psychological privation in infancy and subsequent adjustment. *Am J Orthopsychiatry* 1945;15:247-255.
  - 18) **Wachtel LE, Shorter E, Fink M.** Electroconvulsive therapy for self-injurious behaviour in autism spectrum disorders: recognizing catatonia is key. *Curr Opin Psychiatry* 2018;31:116-122.
  - 19) **Simeon D, Favazza AR.** Self-injurious behaviors: phenomenology and assessment. In: Simeon D, Hollander E, editors. *Self-injurious behaviors: assessment and treatment*. Washington, DC: American Psychiatric Association Publishing;2001. p.1-28.
  - 20) **Schroeder SR, Mulick JA, Rohahn J.** The definition, taxonomy, epidemiology, and ecology of self-injurious behavior. *J Autism Dev Disord* 1980;10:417-432.
  - 21) **Crapper L, Ernst C.** Comparative analysis of self-injury in people with psychopathology or neurodevelopmental disorders. *Pediatr Clin North Am* 2015;62:619-631.
  - 22) **Richards C, Moss J, Nelson L, Oliver C.** Persistence of self-injurious behaviour in autism spectrum disorder over 3 years: a prospective cohort study of risk markers. *J Neurodev Disord* 2016;8:21.
  - 23) **Furniss F, Biswas AB.** Recent research on aetiology, development and phenomenology of self-injurious behaviour in people with intellectual disabilities: a systematic review and implications for treatment. *J Intellect Disabil Res* 2012;56:453-475.
  - 24) **Devine DP.** Self-injurious behaviour in autistic children: a neurodevelopmental theory of social and environmental isolation. *Psychopharmacology (Berl)* 2014;231:979-997.
  - 25) **Abrams R, Taylor MA.** Catatonia. A prospective clinical study. *Arch Gen Psychiatry* 1976;33:579-581.
  - 26) **Gelenberg AJ.** The catatonic syndrome. *Lancet* 1976;1:1339-1341.
  - 27) **Dellinger-Ness LA, Handler L.** Self-injurious behavior in human and non-human primates. *Clin Psychol Rev* 2006;26:503-514.
  - 28) **Jones IH, Daniels BA.** An ethological approach to self-injury. *Br J Psychiatry* 1996;169:263-267.
  - 29) **Sabus A, Feinstein J, Romani P, Goldson E, Blackmer A.** Management of self-injurious behaviors in children with neurodevelopmental disorders: a pharmacotherapy overview. *Pharmacotherapy* 2019;39:645-664.
  - 30) **Fong A, Friedlander R, Richardson A, Allen K, Zhang Q.** Characteristics of children with autism and unspecified intellectual developmental disorder (intellectual disability) presenting with severe self-injurious behaviours. *Int J Dev Disabil (in press)*.
  - 31) **Nock MK.** Self-injury. *Annu Rev Clin Psychol* 2010;6:339-363.
  - 32) **Whitlock J, Muehlenkamp J, Eckenrode J.** Variation in nonsuicidal self-injury: identification and features of latent classes in a college population of emerging adults. *J Clin Child Adolesc Psychol* 2008;37:725-735.
  - 33) **Klonsky ED, Olino TM.** Identifying clinically distinct subgroups of self-injurers among young adults: a latent class analysis. *J Consult Clin Psychol* 2008;76:22-27.
  - 34) **Yates TM.** The developmental psychopathology of self-injurious behavior: compensatory regulation in posttraumatic adaptation. *Clin Psychol Rev* 2004;24:35-74.
  - 35) **Volkmar FR.** Self-injurious Behavior. In: Volkmar FR, editor. *Encyclopedia of autism spectrum disorders*. New York: Springer;2013. p.2730-2734.
  - 36) **Oudijn M, Linders J, Mocking R, Lok A, van Elburg A, Denys D.** Psychopathological and neurobiological overlap between anorexia nervosa and self-injurious behavior: a narrative review and conceptual hypotheses. *Front Psychiatry* 2022;13:756238.
  - 37) **American Psychiatric Association.** Diagnostic and statistical manual of mental disorders. 5th ed. Arlington, VA: American Psychiatric Association;2013.
  - 38) **Favazza AR.** Nonsuicidal self-injury: how categorization guides treatment. *Curr Psychiatr* 2012;11:21-25.
  - 39) **Nock MK, Favazza AR.** Nonsuicidal self-injury: definition and classification. In: Nock MK, editor. *Understanding nonsuicidal self-injury: origins, assessment, and treatment*. Washington, DC: American Psychological Association;2009. p.9-18.
  - 40) **Favaro A, Santonastaso P.** Self-injurious behavior in anorexia nervosa. *J Nerv Ment Dis* 2000;188:537-542.
  - 41) **Levy KN, Yeomans FE, Diamond D.** Psychodynamic treatments of self-injury. *J Clin Psychol* 2007;63:1105-1120.
  - 42) **Linehan MM, Comtois KA, Murray AM, Brown MZ, Gallop RJ, Heard HL, et al.** Two-year randomized controlled trial and follow-up of dialectical behavior therapy vs therapy by experts for suicidal behaviors and borderline personality disorder. *Arch Gen Psychiatry* 2006;63:757-766.
  - 43) **Kahng S, Iwata BA, Lewin AB.** Behavioral treatment of self-inju-

- ry, 1964 to 2000. *Am J Ment Retard* 2002;107:212-221.
- 44) **Sandman CA.** Psychopharmacologic treatment of nonsuicidal self-injury. In: Nock MK, editor. *Understanding nonsuicidal self-injury: origins, assessment, and treatment.* Washington, DC: American Psychological Association;2009. p.291-322.
  - 45) **Dimian AF, Symons FJ.** A systematic review of risk for the development and persistence of self-injurious behavior in intellectual and developmental disabilities. *Clin Psychol Rev* 2022;94:102158.
  - 46) **Beauchaine TP, Klein DN, Crowell SE, Derbidge C, Gatzke-Kopp L.** Multifinality in the development of personality disorders: a biology × sex × environment interaction model of antisocial and borderline traits. *Dev Psychopathol* 2009;21:735-770.
  - 47) **Cicchetti D, Blender JA.** A multiple-levels-of-analysis perspective on resilience: implications for the developing brain, neural plasticity, and preventive interventions. *Ann N Y Acad Sci* 2006;1094: 248-258.
  - 48) **Gregori E, Rispoli M, Gerow S, Lory C.** Treatment of self-injurious behavior in adults with intellectual and developmental disabilities: a systematic review. *J Dev Phys Disabil* 2018;30:111-139.
  - 49) **Chezan LC, Gable RA, McWhorter GZ, White SD.** Current perspectives on interventions for self-injurious behavior of children with autism spectrum disorder: a systematic review of the literature. *J Behav Educ* 2017;26:293-329.
  - 50) **Rojahn J, Schroeder SR, Hoch TA.** Self-injurious behavior in intellectual disabilities. 1st ed. Amsterdam: Elsevier;2008.
  - 51) **Baer DM.** A case for the selective reinforcement of punishment. In: Neuringer C, editor. *Behavior modification in clinical psychology.* 1st ed. New York: Appleton-Century-Crofts;1970. p.243-249.
  - 52) **Godfrey Born C, McClelland A, Furnham A.** Mental health literacy for autism spectrum disorder and depression. *Psychiatry Res* 2019;279:272-277.
  - 53) **Kahlbaum KL.** Catatonia. Levi Y, Pridon T, translator. Baltimore, MD: Johns Hopkins University Press;1973.
  - 54) **Pfuhmann B, Stöber G.** The different conceptions of catatonia: historical overview and critical discussion. *Eur Arch Psychiatry Clin Neurosci* 2001;251(Suppl 1):14-17.
  - 55) **Fink M.** Catatonia: a syndrome appears, disappears, and is rediscovered. *Can J Psychiatry* 2009;54:437-445.
  - 56) **Bonhoeffer K.** Die exogenen reaktionstypen. *Arch Psychiatr Nervenkr* 1917;58:58-70.
  - 57) **Carroll BT, Anfinson TJ, Kennedy JC, Yendrek R, Boutros M, Bilion A.** Catatonic disorder due to general medical conditions. *J Neuropsychiatry Clin Neurosci* 1994;6:122-133.
  - 58) **Barnes MP, Saunders M, Walls TJ, Saunders I, Kirk CA.** The syndrome of Karl Ludwig Kahlbaum. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 1986;49:991-996.
  - 59) **Bush G, Fink M, Petrides G, Dowling F, Francis A.** Catatonia. I. Rating scale and standardized examination. *Acta Psychiatr Scand* 1996;93:129-136.
  - 60) **Lohr JB, Wisniewski AA.** Movement disorders: a neuropsychiatric approach. New York: Guilford Press;1987.
  - 61) **Ungvari GS, Kau LS, Wai-Kwong T, Shing NF.** The pharmacological treatment of catatonia: an overview. *Eur Arch Psychiatry Clin Neurosci* 2001;251(Suppl 1):131-134.
  - 62) **Leonhard K.** Zur unterteilung und erbologie der schizophrenien. I. Mitt. Die "typischen" unterformen der katatonie. *Allg Z Psychiat* 1942;120:1-23. German
  - 63) **Kleist K, Leonhard KU, Schwab H.** Die katatonie auf grund katamnesticher untersuchungen. III. Teil. Formen und verläufe der eigentlichen katatonie. *Z Ges Neurol Psychiat* 1940;168:535-586. German
  - 64) **Kleist K.** Untersuchungen zur kenntnis der psychomotorischen bewegungsstörungen bei geisteskranken. Leipzig: Klinkhardt;1908. German
  - 65) **Leonhard K.** Classification of endogenous psychoses and their differentiated etiology. Second, revised and enlarged edition. Vienna: Springer;1999.
  - 66) **Cahn CH.** Translator's Notes. In: Leonhard K, editor. *Classification of endogenous psychoses and their differentiated etiology.* Vienna: Springer;1999. p.XVII-XVIII.
  - 67) **Leonhard K, Beckmann H.** Early childhood catatonia. In: Leonhard K, Beckmann H, editors. *Classification of endogenous psychoses and their differentiated etiology.* Vienna: Springer;1999. p.330-386.
  - 68) **Neumärker KJ.** Classification matters for catatonia and autism in children. *Int Rev Neurobiol* 2006;72:3-19.
  - 69) **Morrison JR.** Catatonia. Retarded and excited types. *Arch Gen Psychiatry* 1973;28:39-41.
  - 70) **Rajagopal S.** Catatonia. *Adv Psychiatr Treat* 2007;13:51-59.
  - 71) **Sienaert P, Rooseleer J, De Fruyt J.** Measuring catatonia: a systematic review of rating scales. *J Affect Disord* 2011;135:1-9.
  - 72) **Fink M.** Rediscovering catatonia: the biography of a treatable syndrome. *Acta Psychiatr Scand Suppl* 2013;127:1-47.
  - 73) **Wilcox JA, Reid Duffy P.** The syndrome of catatonia. *Behav Sci (Basel)* 2015;5:576-588.
  - 74) **Benarous X, Raffin M, Ferrafiat V, Consoli A, Cohen D.** Catatonia in children and adolescents: new perspectives. *Schizophr Res* 2018;200:56-67.
  - 75) **Thakur A, Jagadheesan K, Dutta S, Sinha VK.** Incidence of catatonia in children and adolescents in a paediatric psychiatric clinic. *Aust N Z J Psychiatry* 2003;37:200-203.
  - 76) **Takaoka K, Takata T.** Catatonia in childhood and adolescence. *Psychiatry Clin Neurosci* 2003;57:129-137.
  - 77) **Cohen D, Flament M, Dubos PF, Basquin M.** Case series: catatonic syndrome in young people. *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry* 1999;38:1040-1046.
  - 78) **Ghaziuddin N, Dhossche D, Marcotte K.** Retrospective chart review of catatonia in child and adolescent psychiatric patients. *Acta Psychiatr Scand* 2012;125:33-38.
  - 79) **Ohta M, Kano Y, Nagai Y.** Catatonia in individuals with autism spectrum disorders in adolescence and early adulthood: a long-term prospective study. *Int Rev Neurobiol* 2006;72:41-54.
  - 80) **Billstedt E, Gillberg IC, Gillberg C.** Autism after adolescence: population-based 13- to 22-year follow-up study of 120 individuals with autism diagnosed in childhood. *J Autism Dev Disord* 2005; 35:351-360.
  - 81) **Wing L, Shah A.** Catatonia in autistic spectrum disorders. *Br J Psychiatry* 2000;176:357-362.
  - 82) **Kohlenberg TM, Trelles MP, McLarney B, Betancur C, Thurm A, Kolevzon A.** Psychiatric illness and regression in individuals with Phelan-McDermid syndrome. *J Neurodev Disord* 2020;12:7.
  - 83) **Santoro SL, Baumer NT, Cornacchia M, Franklin C, Hart SJ, Haugen K, et al.** Unexplained regression in Down syndrome: management of 51 patients in an international patient database. *Am J Med Genet A* 2022;188:3049-3062.
  - 84) **Poser HM, Trutia AE.** Treatment of a Prader-Willi patient with recurrent catatonia. *Case Rep Psychiatry* 2015;2015:697428.
  - 85) **Stredny CM, Hauptman AJ, Sargado S, Soccorso C, Katz T, Gorman MP, et al.** Development of a multidisciplinary clinical approach for unexplained regression in Down syndrome. *Am J Med Genet A* 2022;188:2509-2511.
  - 86) **Faadda GL, Wachtel LE, Higgins AM, Shprintzen RJ.** Catatonia in an adolescent with velo-cardio-facial syndrome. *Am J Med Genet A* 2015;167:2150-2153.
  - 87) **Butcher NJ, Boot E, Lang AE, Andrade D, Vorstman J, McDonald-McGinn D, et al.** Neuropsychiatric expression and catatonia in 22q11.2 deletion syndrome: an overview and case series. *Am J Med Genet A* 2018;176:2146-2159.

- 88) **Cornic F, Consoli A, Tanguy ML, Bonnot O, Périssé D, Tordjman S, et al.** Association of adolescent catatonia with increased mortality and morbidity: evidence from a prospective follow-up study. *Schizophr Res* 2009;113:233-240.
- 89) **Fink M, Taylor MA, Ghaziuddin N.** Catatonia in autistic spectrum disorders: a medical treatment algorithm. *Int Rev Neurobiol* 2006;72:233-244.
- 90) **Dhossche D, Cohen D, Ghaziuddin N, Wilson C, Wachtel LE.** The study of pediatric catatonia supports a home of its own for catatonia in DSM-5. *Med Hypotheses* 2010;75:558-560.
- 91) **van der Heijden FM, Tuinier S, Arts NJ, Hoogendoorn ML, Kahn RS, Verhoeven WM.** Catatonia: disappeared or under-diagnosed? *Psychopathology* 2005;38:3-8.
- 92) **Lund CE, Mortimer AM, Rogers D, McKenna PJ.** Motor, volitional and behavioural disorders in schizophrenia. I: assessment using the modified Rogers scale. *Br J Psychiatry* 1991;158:323-327.
- 93) **Starkstein SE, Petracca G, Tesón A, Chemerinski E, Merello M, Migliorelli R, et al.** Catatonia in depression: prevalence, clinical correlates, and validation of a scale. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 1996;60:326-332.
- 94) **Bush G, Fink M, Petrides G, Dowling F, Francis A.** Catatonia. II. Treatment with lorazepam and electroconvulsive therapy. *Acta Psychiatr Scand* 1996;93:137-143.
- 95) **Northoff G, Koch A, Wenke J, Eckert J, Böker H, Pflug B, et al.** Catatonia as a psychomotor syndrome: a rating scale and extrapyramidal motor symptoms. *Mov Disord* 1999;14:404-416.
- 96) **Bräunig P, Krüger S, Shugar G, Höffler J, Börner I.** The catatonia rating scale I—development, reliability, and use. *Compr Psychiatry* 2000;41:147-158.
- 97) **Carroll BT, Kirkhart R, Ahuja N, Soovere I, Lauterbach EC, Dhossche D, et al.** Katatonia: a new conceptual understanding of catatonia and a new rating scale. *Psychiatry (Edgmont)* 2008;5:42-50.
- 98) **Francis A, Divadeenam KM, Petrides G.** Advances in the diagnosis and treatment of catatonia. *Convuls Ther* 1996;12:259-261.
- 99) **Petrides G, Malur C, Fink M.** Chapter 13. Convulsive therapy. In: Caroff SN, Mann SC, Francis A, Fricchione GL, editors. *Catatonia: from psychopathology to neurobiology*. 1st ed. Arlington, VA: American Psychiatric Publishing;2004. p.151-160.
- 100) **Pelzer AC, van der Heijden FM, den Boer E.** Systematic review of catatonia treatment. *Neuropsychiatr Dis Treat* 2018;14:317-326.
- 101) **Yeung PP, Milstein RM, Daniels DC, Bowers MB Jr.** ECT for lorazepam-refractory catatonia. *Convuls Ther* 1996;12:31-35.
- 102) **Malur C, Pasol E, Francis A.** ECT for prolonged catatonia. *J ECT* 2001;17:55-59.
- 103) **Ungvari GS, Leung HC, Lee TS.** Benzodiazepines and the psychopathology of catatonia. *Pharmacopsychiatry* 1994;27:242-245.
- 104) **McCall WV, Shelp FE, McDonald WM.** Controlled investigation of the amobarbital interview for catatonic mutism. *Am J Psychiatry* 1992;149:202-206.
- 105) **Cho IH, Joung Y, Hong S.** A case of lethal catatonia in a 11-year-old boy. *J Korean Acad Child Adolesc Psychiatry* 1999;10:121-133.
- 106) **Taylor MA, Fink M.** Catatonia in psychiatric classification: a home of its own. *Am J Psychiatry* 2003;160:1233-1241.
- 107) **Reinfeld S, Gill P.** Diagnostic overshadowing clouding the efficient recognition of pediatric catatonia: a case series. *CNS Spectr* (in press).
- 108) **Matson JL, Turygin NC.** How do researchers define self-injurious behavior? *Res Dev Disabil* 2012;33:1021-1026.
- 109) **Simeon D, Hollander E.** *Self-injurious behaviors: assessment and treatment*. Washington, DC: American Psychiatric Association Publishing;2001.
- 110) **Dhossche DM, Wachtel LE.** ECT for catatonia in autism. In: Ghaziuddin N, Walter G, editors. *Electroconvulsive therapy in children and adolescents*. New York: Oxford University Press;2013.
- 111) **Bartak L, Rutter M.** Differences between mentally retarded and normally intelligent autistic children. *J Autism Child Schizophr* 1976;6:109-120.
- 112) **Minshawi NF, Hurwitz S, Fodstad JC, Biebl S, Morriss DH, McDougle CJ.** The association between self-injurious behaviors and autism spectrum disorders. *Psychol Res Behav Manag* 2014;7:125-136.
- 113) **D'Agati D, Chang AD, Wachtel LE, Reti IM.** Treatment of severe self-injurious behavior in autism spectrum disorder by neuromodulation. *J ECT* 2017;33:7-11.
- 114) **Dhossche DM.** Autism as early expression of catatonia. *Med Sci Monit* 2004;10:RA31-RA39.
- 115) **Dimian AF, Botteron KN, Dager SR, Elison JT, Estes AM, Pruett JR Jr, et al.** Potential risk factors for the development of self-injurious behavior among infants at risk for autism spectrum disorder. *J Autism Dev Disord* 2017;47:1403-1415.
- 116) **Baghdadli A, Pascal C, Grisi S, Aussilloux C.** Risk factors for self-injurious behaviours among 222 young children with autistic disorders. *J Intellect Disabil Res* 2003;47(Pt 8):622-627.
- 117) **Mandell DS.** Psychiatric hospitalization among children with autism spectrum disorders. *J Autism Dev Disord* 2008;38:1059-1065.
- 118) **Minshawi NF, Hurwitz S, Morriss D, McDougle CJ.** Multidisciplinary assessment and treatment of self-injurious behavior in autism spectrum disorder and intellectual disability: integration of psychological and biological theory and approach. *J Autism Dev Disord* 2015;45:1541-1568.
- 119) **Bitsika V, Sharpley CF.** Stress, anxiety and depression among parents of children with autism spectrum disorder. *J Psychol Couns Sch* 2004;14:151-161.
- 120) **Lecavalier L.** Behavioral and emotional problems in young people with pervasive developmental disorders: relative prevalence, effects of subject characteristics, and empirical classification. *J Autism Dev Disord* 2006;36:1101-1114.
- 121) **Lam KS, Aman MG.** The repetitive behavior scale-revised: independent validation in individuals with autism spectrum disorders. *J Autism Dev Disord* 2007;37:855-866.
- 122) **Soke GN, Rosenberg SA, Hamman RF, Fingerlin T, Robinson C, Carpenter L, et al.** Brief report: prevalence of self-injurious behaviors among children with autism spectrum disorder—a population-based study. *J Autism Dev Disord* 2016;46:3607-3614.
- 123) **Steenfeldt-Kristensen C, Jones CA, Richards C.** The prevalence of self-injurious behaviour in autism: a meta-analytic study. *J Autism Dev Disord* 2020;50:3857-3873.
- 124) **Hill AP, Zuckerman KE, Hagen AD, Kriz DJ, Duvall SW, van Santen J, et al.** Aggressive behavior problems in children with autism spectrum disorders: prevalence and correlates in a large clinical sample. *Res Autism Spectr Disord* 2014;8:1121-1133.
- 125) **Bodfish JW, Symons FJ, Parker DE, Lewis MH.** Varieties of repetitive behavior in autism: comparisons to mental retardation. *J Autism Dev Disord* 2000;30:237-243.
- 126) **Wachtel LE, Kahng S, Dhossche DM, Cascella N, Reti IM.** ECT for catatonia in an autistic girl. *Am J Psychiatry* 2008;165:329-333.
- 127) **Folch A, Cortés MJ, Salvador-Carulla L, Vicens P, Irazábal M, Muñoz S, et al.** Risk factors and topographies for self-injurious behaviour in a sample of adults with intellectual developmental disorders. *J Intellect Disabil Res* 2018;62:1018-1029.
- 128) **Matson JL, Rivet TT.** Characteristics of challenging behaviours in adults with autistic disorder, PDD-NOS, and intellectual disability. *J Intellect Dev Disabil* 2008;33:323-329.
- 129) **Schroeder SR, Marquis JG, Reese RM, Richman DM, Mayo-Ortega I, Oyama-Ganiko R, et al.** Risk factors for self-injury, aggression, and stereotyped behavior among young children at risk for intellectual and developmental disabilities. *Am J Intellect Dev Disabil* 2014;119:351-370.



- 130) Wiggins LD, Levy SE, Daniels J, Schieve L, Croen LA, DiGuseppi C, et al. Autism spectrum disorder symptoms among children enrolled in the study to explore early development (SEED). *J Autism Dev Disord* 2015;45:3183-3194.
- 131) Soke GN, Rosenberg SA, Rosenberg CR, Vasa RA, Lee LC, DiGuseppi C. Brief report: self-injurious behaviors in preschool children with autism spectrum disorder compared to other developmental delays and disorders. *J Autism Dev Disord* 2018;48:2558-2566.
- 132) McClintock K, Hall S, Oliver C. Risk markers associated with challenging behaviours in people with intellectual disabilities: a meta-analytic study. *J Intellect Disabil Res* 2003;47(Pt 6):405-416.
- 133) Cervantes PE, Matson JL. Comorbid symptomology in adults with autism spectrum disorder and intellectual disability. *J Autism Dev Disord* 2015;45:3961-3970.
- 134) Siegel M, Milligan B, Robbins D, Prentice G. Electroconvulsive therapy in an adolescent with autism and bipolar I disorder. *J ECT* 2012;28:252-255.
- 135) Handen BL, Mazefsky CA, Gabriels RL, Pedersen KA, Wallace M, Siegel M. Risk factors for self-injurious behavior in an inpatient psychiatric sample of children with autism spectrum disorder: a naturalistic observation study. *J Autism Dev Disord* 2018;48:3678-3688.
- 136) Burt BA. Definitions of risk. *J Dent Educ* 2001;65:1007-1008.
- 137) Brinkley J, Nations L, Abramson RK, Hall A, Wright HH, Gabriels R, et al. Factor analysis of the aberrant behavior checklist in individuals with autism spectrum disorders. *J Autism Dev Disord* 2007;37:1949-1959.
- 138) Richman DM, Barnard-Brak L, Bosch A, Thompson S, Grubb L, Abby L. Predictors of self-injurious behaviour exhibited by individuals with autism spectrum disorder. *J Intellect Disabil Res* 2013;57:429-439.
- 139) Cooper SA, Smiley E, Allan LM, Jackson A, Finlayson J, Mantry D, et al. Adults with intellectual disabilities: prevalence, incidence and remission of self-injurious behaviour, and related factors. *J Intellect Disabil Res* 2009;53:200-216.
- 140) Oliver C, Sloneem J, Hall S, Arron K. Self-injurious behaviour in Cornelia de Lange syndrome: I. Prevalence and phenomenology. *J Intellect Disabil Res* 2009;53:575-589.
- 141) Oliver C, Petty J, Ruddick L, Bacarese-Hamilton M. The association between repetitive, self-injurious and aggressive behavior in children with severe intellectual disability. *J Autism Dev Disord* 2012;42:910-919.
- 142) Berkson G, Tupa M, Sherman L. Early development of stereotyped and self-injurious behaviors: I. Incidence. *Am J Ment Retard* 2001;106:539-547.
- 143) Rattaz C, Michelon C, Baghdadi A. Symptom severity as a risk factor for self-injurious behaviours in adolescents with autism spectrum disorders. *J Intellect Disabil Res* 2015;59:730-741.
- 144) Paclawskyj TR, Kurtz PF, O'Connor JT. Functional assessment of problem behaviors in adults with mental retardation. *Behav Modif* 2004;28:649-667.
- 145) Oliver C, Richards C. Practitioner review: self-injurious behaviour in children with developmental delay. *J Child Psychol Psychiatry* 2015;56:1042-1054.
- 146) Haq AU, Ghaziuddin N. Maintenance electroconvulsive therapy for aggression and self-injurious behavior in two adolescents with autism and catatonia. *J Neuropsychiatry Clin Neurosci* 2014;26:64-72.
- 147) Aman MG, Collier-Crespin A, Lindsay RL. Pharmacotherapy of disorders in mental retardation. *Eur Child Adolesc Psychiatry* 2000;9(Suppl 1):S98-S107.
- 148) Masi G. Pharmacotherapy of pervasive developmental disorders in children and adolescents. *CNS Drugs* 2004;18:1031-1052.
- 149) Marcus RN, Owen R, Kamen L, Manos G, McQuade RD, Carson WH, et al. A placebo-controlled, fixed-dose study of aripiprazole in children and adolescents with irritability associated with autistic disorder. *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry* 2009;48:1110-1119.
- 150) Owen R, Sikich L, Marcus RN, Corey-Lisle P, Manos G, McQuade RD, et al. Aripiprazole in the treatment of irritability in children and adolescents with autistic disorder. *Pediatrics* 2009;124:1533-1540.
- 151) McDougle CJ, Scahill L, Aman MG, McCracken JT, Tierney E, Davies M, et al. Risperidone for the core symptom domains of autism: results from the study by the autism network of the research units on pediatric psychopharmacology. *Am J Psychiatry* 2005;162:1142-1148.
- 152) Adler BA, Wink LK, Early M, Shaffer R, Minshawi N, McDougle CJ, et al. Drug-refractory aggression, self-injurious behavior, and severe tantrums in autism spectrum disorders: a chart review study. *Autism* 2015;19:102-106.
- 153) Wachtel LE, Reti IM, Ying H. Stability of intraocular pressure after retinal reattachment surgery during electroconvulsive therapy for intractable self-injury in a 12-year-old autistic boy. *J ECT* 2014;30:73-76.
- 154) Cizadlo BC, Wheaton A. Case study: ECT treatment of a young girl with catatonia. *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry* 1995;34:332-335.
- 155) Arora M, Prahara SK, Prakash R. [Electroconvulsive therapy for multiple major self-mutilations in bipolar psychotic depression]. *Turk Psikiyatri Derg* 2008;19:209-212. Turkish
- 156) Fink M. *Electroshock: healing mental illness*. 2nd ed. Oxford: Oxford University Press;2009.
- 157) Breen J, Hare DJ. The nature and prevalence of catatonic symptoms in young people with autism. *J Intellect Disabil Res* 2017;61:580-593.
- 158) Wachtel LE, Dhossche DM. Self-injury in autism as an alternate sign of catatonia: implications for electroconvulsive therapy. *Med Hypotheses* 2010;75:111-114.
- 159) Sajith SG, Liew SF, Tor PC. Response to electroconvulsive therapy in patients with autism spectrum disorder and intractable challenging behaviors associated with symptoms of catatonia. *J ECT* 2017;33:63-67.
- 160) Hutton J, Goode S, Murphy M, Le Couteur A, Rutter M. New-onset psychiatric disorders in individuals with autism. *Autism* 2008;12:373-390.
- 161) Bailine SH, Petravičute S. Catatonia in autistic twins: role of electroconvulsive therapy. *J ECT* 2007;23:21-22.
- 162) Fink M, Taylor MA. *Catatonia: a clinician's guide to diagnosis and treatment*. Cambridge: Cambridge University Press;2003.
- 163) Dhossche DM, Shah A, Wing L. Blueprints for the assessment, treatment, and future study of catatonia in autism spectrum disorders. *Int Rev Neurobiol* 2006;72:267-284.
- 164) Mazzone L, Postorino V, Valeri G, Vicari S. Catatonia in patients with autism: prevalence and management. *CNS Drugs* 2014;28:205-215.
- 165) Luiselli JK, Bird F, Wachtel LE. Electroconvulsive therapy (ECT) for autism spectrum disorder associated with catatonia and self-injury: a clinical review. *Adv Neurodev Disord* 2021;5:117-125.
- 166) Addington D, Addington JM, Ens I. Mentally retarded patients on general hospital psychiatric units. *Can J Psychiatry* 1993;38:134-136.
- 167) Thuppall M, Fink M. Electroconvulsive therapy and mental retardation. *J ECT* 1999;15:140-149.
- 168) Aziz M, Maixner DF, DeQuardo J, Aldridge A, Tandon R. ECT and mental retardation: a review and case reports. *J ECT* 2001;17:149-152.
- 169) van Waarde JA, Stolker JJ, van der Mast RC. ECT in mental retardation: a review. *J ECT* 2001;17:236-243.

- 170) **Ring H, Zia A, Lindeman S, Himlok K.** Interactions between seizure frequency, psychopathology, and severity of intellectual disability in a population with epilepsy and a learning disability. *Epilepsy Behav* 2007;11:92-97.
- 171) **Rutter M, Graham P, Yule W.** A neuropsychiatric study in childhood. Cambridge: Cambridge University Press;1970.
- 172) **Kishore MT, Nizamie A, Nizamie SH, Jahan M.** Psychiatric diagnosis in persons with intellectual disability in India. *J Intellect Disabil Res* 2004;48:19-24.
- 173) **Lund J.** The prevalence of psychiatric morbidity in mentally retarded adults. *Acta Psychiatr Scand* 1985;72:563-570.
- 174) **Bregman JD, Harris JC.** Mental retardation. In: Kaplan S, Sadock B, editors. *Comprehensive textbook of psychiatry*. Philadelphia, PA: Lippincott Williams and Wilkins;1998. p.2224.
- 175) **Moloney M, Hennessy T, Doody O.** Reasonable adjustments for people with intellectual disability in acute care: a scoping review of the evidence. *BMJ Open* 2021;11:e039647.
- 176) **Maddox BB, Trubanova A, White SW.** Untended wounds: non-suicidal self-injury in adults with autism spectrum disorder. *Autism* 2017;21:412-422.
- 177) **Katz G, Lazzano-Ponce E.** Intellectual disability: definition, etiological factors, classification, diagnosis, treatment and prognosis. *Salud Publica Mex* 2008;50(Suppl 2):S132-S141.
- 178) **Caroff SN, Mann SC, Francis A, Fricchione GL.** Catatonia: from psychopathology to neurobiology. 1st ed. Washington, DC: American Psychiatric Association Publishing;2004.
- 179) **Reinblatt SP, Rifkin A, Freeman J.** The efficacy of ECT in adults with mental retardation experiencing psychiatric disorders. *J ECT* 2004;20:208-212.
- 180) **Little JD, McFarlane J, Ducharme HM.** ECT use delayed in the presence of comorbid mental retardation: a review of clinical and ethical issues. *J ECT* 2002;18:218-222.
- 181) **Wachtel LE, Griffin MM, Dhossche DM, Reti IM.** Brief report: electroconvulsive therapy for malignant catatonia in an autistic adolescent. *Autism* 2010;14:349-358.
- 182) **Wachtel LE, Jaffe R, Kellner CH.** Electroconvulsive therapy for psychotropic-refractory bipolar affective disorder and severe self-injury and aggression in an 11-year-old autistic boy. *Eur Child Adolesc Psychiatry* 2011;20:147-152.
- 183) **Kessler RJ.** Electroconvulsive therapy for affective disorders in persons with mental retardation. *Psychiatr Q* 2004;75:99-104.
- 184) **Collins J, Halder N, Chaudhry N.** Use of ECT in patients with an intellectual disability. *Psychiatrist* 2012;36:55-60.
- 185) **Stein ALS, Sacks SM, Roth JR, Habis M, Saltz SB, Chen C.** Anesthetic management during electroconvulsive therapy in children: a systematic review of the available literature. *Anesth Analg* 2020; 130:126-140.