

Katatonie bij autismespectrumstoornis; overzicht en gevalsbeschrijving

D.M. DHOSSCHE, L.F. VAN DER STEEN, S.M. SHETTAR

- ACHTERGROND** Katatonie komt voor bij kinderen, adolescenten, en volwassenen met autismespectrumstoornis.
- DOEL** Een overzicht geven van katatonie bij autismespectrumstoornis.
- METHODE** Gevalsbeschrijving met discussie.
- RESULTATEN** Katatonie komt voor bij 12-17% van adolescenten en jongvolwassenen met autismespectrumstoornis die verwezen worden voor gespecialiseerde zorg of opgenomen zijn. Klinische ervaring en gevalsbeschrijvingen tonen dat benzodiazepinen en elektroconvulsie therapie veilige en effectieve acute behandelmethoden en onderhoudsbehandelingen zijn voor katatonie bij patiënten met een autismespectrumstoornis.
- CONCLUSIE** Katatonie is een herkenbaar en behandelbaar syndroom bij kinderen en adolescenten met autismespectrumstoornis.

TIJDSCHRIFT VOOR PSYCHIATRIE 57(2015)2, 89-93

TREFWOORDEN autismespectrumstoornis, katatonie, kinderen en jongeren



ARTIKEL



Het gebeurt heel dikwijls dat we iets niet zien omdat het te groot is.
Multatuli (1820-1887)

Katatonie wordt in toenemende mate herkend als comorbide stoornis bij patiënten met autismespectrumstoornis (ASS) (Dhossche e.a. 2006). De prevalentie van katatonie bij jongeren en jongvolwassenen met ASS wordt geschat op 12 tot 17%. Dit cijfer is gebaseerd op 4 studies waarvan 3 over patiënten die verwezen zijn naar gespecialiseerde behandelingscentra (Ohta e.a. 2006; Wing & Shah 2000) of zijn opgenomen (Ghaziuddin e.a. 2012), en die dus de prevalentie kunnen overschatten door selectiebias, maar ook op één studie over een bevolkingssteekproef van personen met ASS (Billstedt e.a. 2005). Het is niet bekend of de gevallen in al deze studies die aan de criteria voor katatonie voldoen, ook reageren op behandeling.

De diagnose van katatonie wordt klinisch vastgesteld volgens DSM-5 ongeacht de geassocieerde stoornis, op basis van de aanwezigheid van minstens 3 van 12 criteria: katalapsie, flexibilis cerea, stupor, extreme agitatie, mutisme, negativisme, postureren, maniërismen, stereotypieën,

grimassen, echolalie en echopraxie. Patiënten met symptomen van katatonie hebben een medische screening nodig om mogelijke onderliggende somatische stoornissen vast te stellen. Zo bleken in een groep van 58 kinderen en jongeren met katatonie 13 (22%) patiënten een onderliggend lichamelijk lijden en 18 (31%) een ontwikkelingsstoornis in de voorgeschiedenis te hebben, bijv. ASS, intellectuele beperking of ontwikkelingsachterstand (Consoli e.a. 2012). Slechts twee van de patiënten met een ontwikkelingsstoornis leden aan een identificeerbare onderliggende medische of psychiatrische aandoening.

Het is belangrijk om bij patiënten met ASS en katatonie de psychosociale situatie in kaart te brengen en een mogelijke rol van traumatische gebeurtenissen of mishandeling mee te wegen. Zo vonden Shah & Wing (2006) dat vaak stressvolle ervaringen voorafgingen aan de ontwikkeling van katatonie bij jongvolwassenen met ASS. Levensgebeurtenissen, verlies van routine en structuur, verlieservaringen,

conflicten met ouders, verzorgers of leeftijdgenoten en discrepanties tussen de capaciteiten van een op hoog niveau functionerend individu met ASS en de verwachtingen van ouders kunnen de ontwikkeling van katatonie in de hand werken. Katatonie is in sommige gevallen een extreme angstreactie op externe gebeurtenissen, mischien vooral bij kinderen en bij patiënten met ASS ten gevolge van hun grotere kwetsbaarheid (Dhossche 2011; Dhossche e.a. 2012).

DeJong e.a. (2014) hebben onlangs de literatuur onderzocht over de effectiviteit van diverse behandelingen voor katatonie bij ASS. Ze vonden 22 relevante artikelen waarin de behandeling van 28 kinderen en volwassen patiënten wordt beschreven. Hun overzicht vermeldt dat de bestaande literatuur hierover over het algemeen beperkt is en van relatief lage kwaliteit, vooral wat betreft rapportage van bijwerkingen, maar het gebruik van elektroconvulsivetherapie (ECT), lorazepam in hoge dosis en gedragstherapie ondersteunt. De auteurs vinden dat er gecontroleerde multicenterstudies nodig zijn om de optimale behandeling van katatonie bij personen met ASS te bepalen. We beschrijven de ziektegeschiedenis van een jongen met katatonie en ASS die niet in het overzichtsartikel van DeJong e.a. (2014) is opgenomen.

GEVALSBESCHRIJVING

Bij patiënt A, een 10-jarige jongen, werd op 4-jarige leeftijd ASS gediagnosticeerd, type hoog-functionerend, vanwege zijn beperkte interesses, vocale en motorische tics, specifieke fobieën, aandachttekort, ernstige agressieve uitbarstingen, obsessieve-compulsieve neigingen, abnormale mondbewegingen, onhandigheid en het weigeren algemene dagelijkse levensverrichtingen uit te voeren. Patiënt doubleerde groep 3 en ondervond problemen met lezen en rekenen. Zijn IQ was 80. Hij kende diverse specifieke, tijdsgelimiterde interesses gedurende zijn leven.

Anderhalf jaar geleden raakte patiënt volkomen overstuurd door een incident op school waarbij zijn beste vriend in zijn drinkbeker spuwde. De dagen hierna werd hij toemend en op het waanachtige af angstig dat andere mensen moedwillig op hem zouden spuwen. Hij vertelde dat het speeksel bochten omging, door muren en huid drong en een weg vond in zijn mond en daarna in zijn hersenen, waar het zijn fantasie en identiteit zou beschadigen. Hij kon het speeksel in zijn mond voelen binnenkomen en kon het door de lucht zien vliegen. Hij begon constant te spuwen, weigerde zijn kamer te verlaten en naar school te gaan en kreeg woede-uitbarstingen.

De zes maanden hierna werden verscheidene medicamenten ingezet, o.a. fluoxetine, sertraline, citalopram, antibiotica, olanzapine, quetiapine en risperidon, alle zonder enig resultaat. Aanvullende medische tests werden gedaan,

AUTEURS

DIRK M. DHOSSCHE, hoogleraar Kinder- en Jeugdpsychiatrie, Universiteit van Mississippi Medical Center, Jackson, Mississippi, vs.

LEONTIEN F. VAN DER STEEN, kinder- en jeugdpsychiater, Erasmus MC-Sophia, afd. Kinder- en Jeugdpsychiatrie/psychologie, Rotterdam.

SHASHIDHAR M. SHETTAR, psychiater en directeur ect, Universiteit van Mississippi Medical Center, Jackson, Mississippi, vs.

CORRESPONDENTIEADRES

Prof. dr. Dirk M. Dhossche, University of Mississippi Medical Center, 2500 North State Street, Jackson, MS 39216, USA.
E-mail: dirkdhossche@gmail.com

Geen strijdige belangen meegegeeld.

Het artikel werd voor publicatie geaccepteerd op 26-6-2014.

zoals bloedonderzoek op algemene hematologische en metabole parameters en op auto-immuunantistoffen (te weten lupusantilichamen, *pediatric autoimmune neuropsychiatric disorders associated with streptococcal infections* (PANDAS)-serologie en anti-N-methyl-D-aspartaat (NMDA)-receptorantilichamen), beeldvormend onderzoek (MRI-scan van het brein) en lumbaalpunctie. Alle negatief.

Zes maanden na het begin van de symptomen, waren er voor het eerst dagenlange episodes waarin patiënt niets zei, niets at, zijn kleren uittrok en volledig ontkleed bleef, het toilet niet meer gebruikte en in hurkende houding op dezelfde plek in de gang bleef zitten. Het was eenmalig noodzakelijk hem intraveneus vocht toe te dienen. Bij hem werd katatonie gediagnosticeerd en hij werd ingesteld op lorazepam met positief effect. Echter, hij nam de medicatie inconsequent en zijn situatie verslechterde.

Tien maanden na aanvang van de symptomen, werd ECT besproken met zijn ouders, die hiermee akkoord gingen. Voor de start met ECT werd nog een proefbehandeling met intramusculaire lorazepam in hoge dosis geprobeerd (maximumdosis van 24 mg in 3 giften van 8 mg i.m. per dag), met geringe verbetering, maar zonder sedatie.

Bilaterale ECT 3 maal per week werd gestart. Een paar minuten voor de ECT werd i.v. flumazenil toegediend om het anticonvulsieve effect van de lorazepam tegen te gaan, die in een dosis van 24 mg i.m. gecontinueerd werd tijdens de eerste twee weken van ECT. Dit resulteerde in motorische aanvallen met een typische duur van 20-50 s en op het eeg geregistreerde aanvallen van 30-60 s.

Na de derde ECT sprak patiënt soms, al was dat beperkt tot één of twee woorden die hij voornamelijk van anderen nabootste (echolalie). Na 6 behandelingen liet hij aanraking door anderen toe en spuwde minder.

Lorazepam werd verlaagd tot 8 mg i.m. en aripiprazol i.m. werd opgestart om mogelijk het antipsychotisch effect van ECT te versnellen en te versterken. Patiënt bleef langzaam verbeteren, waarbij hij uit zichzelf zijn kamer kon verlaten en over de afdeling rondliep, totdat hij plotseling op dag 31 van opname weer volledig verbaal werd, onder 8 mg lorazepam i.m., 20 mg aripiprazol i.m. en na 12 keer ECT. Hij was in staat een gesprek te voeren met zijn leerkracht, zij het met enige latentietijd bij het spreken zelf. Hij wist dat hij in het ziekenhuis was en welk seizoen het was, maar niet de maand of de dag.

Patiënt zei dat hij nog altijd bezorgd was dat hij zou sterven als iemand op hem zou spuwen. De week hierna ging hij snel vooruit en was hij in staat met zijn moeder de ziekenhuiscafetaria te bezoeken. Zijn traagheid bij spreken verdween. Ook maakte hij weer gebruik van het toilet, nam zelf zijn medicatie in en sliep in zijn bed. Twee aanvullende ECT's werden gegeven, waarna hij met ontslag ging met poliklinische controle en dagbehandeling. In het beloop van het hele ECT-traject werden geen bijwerkingen gemeld behalve soms lichte hoofdpijn in de middagen na ECT.

In de maanden die volgden, bleef patiënt vrij van symptomen van katatonie en kon de lorazepam worden verlaagd tot 4 mg p.o. per dag. Vanwege een lichte tremor van de handen werd aripiprazol verlaagd tot 15 mg p.o. per dag. Soms was patiënt bezorgd dat hij speeksel of viezigheid op zich zou krijgen, maar kon dan worden afgeleid naar andere onderwerpen met geruststelling en begrenzing door ouders.

Negen maanden na ontslag volgde de patiënt weer lessen op speciaal onderwijsniveau en slikte hij per dag nog 4 mg lorazepam en 10 mg aripiprazol. Ouders vonden dat hun zoon terug was op zijn oude niveau van functioneren en het cognitief zelfs beter deed dan voor het begin van zijn ziekte, nu meer dan anderhalf jaar geleden.

DISCUSSIE

De beschreven casus van een 10-jarige jongen met ASS (hoog-functionerend) is markant vanwege de overgang van obsessieve-compulsieve gedragingen in wanen en vervolgens katatonie. Er waren geen andere specifieke luxerende factoren aan te wijzen behalve het voorval waarin zijn beste vriend in zijn drinkbeker spuwde op school. Het is waarschijnlijk dat de patiënt voordien stress ondervond vanwege zijn sociale en cognitieve beperkingen in vergelijking met zich normaal ontwikkelende leeftijdgenoten.

Behandeling van katatonie

De gecombineerde behandeling met ECT, lorazepam en het atypische antipsychoticum aripiprazol leverde uitstekende resultaten op bij deze patiënt met katatonie en ASS. Het is onmogelijk op basis van een enkele gevalbeschrijving te bewijzen dat benzodiazepinen en vooral ECT effectief waren in deze casus, maar het strookt met andere gevallen en de literatuur (DeJong e.a. 2014). De exacte bijdrage van aripiprazol in deze casus blijft ook in het ongewisse. Vanuit onze ervaring (Dhossche & Wachtel 2013) verkiezen wij een proefbehandeling met benzodiazepinen, meestal lorazepam die soms opgevoerd moet worden tot meer dan 20 mg per dag voor er verbetering optreedt.


Wanneer geen verbetering optreedt na het gebruik van benzodiazepinen volgt ECT, soms met onderhoudsbehandeling ECT. Bilaterale elektrodeplaatsing is de effectiefste vorm van ECT in het geval van katatonie. Er bestaan hoe dan ook grote obstakels in de toegankelijkheid van deze behandelvormen, zowel in de vs (Wachtel e.a. 2013) als in Europa (Sienaert 2012) en om dezelfde redenen. De voornaamste zijn de sterke vooroordelen rond het gebruik van ECT en hoge dosis benzodiazepinen bij kinderen en jongeren, onbekendheid met deze behandelvormen, en de misconceptie dat katatonie niet meer voorkomt.

Kinderen en jongeren met ASS en een acuut begin van symptomen die passen bij een op een obsessieve-compulsieve stoornis gelijkend beeld met katatonie werden eerder beschreven door Hutton e.a. (2008). In een vervolgonderzoek waarin 135 patiënten met ASS tot minstens hun 21ste jaar werden gevolgd, ontwikkelde zich bij vijf van hen een obsessieve-compulsieve stoornis (OCS) met katatonie met plots begin van opvallende rituelen, gepaard gaande met hoge lijdensdruk door de obsessieve gedachten en weerstand tegen de compulsies. In twee gevallen verbeterden de toestandsbeelden met behandeling (in één casus zelfs volledig), maar bij de andere twee werd slechts partiële remissie bereikt en bleef het obsessieve-compulsieve beeld in aanzienlijke mate voortsliepen. Geen van deze patiënten werd behandeld met benzodiazepinen of ECT.

Hutton e.a. (2008) trekken het gebruik van ECT in twijfel en waarschuwen om niet te snel over te gaan tot 'heroïsche interventies zonder aangetoonde waarde'. Zij bevelen het gebruik aan van de farmacologische en psychologische benaderingen die effectief zijn bij – niet met autisme geassocieerde – OCS. Onze gevalbeschrijving onderstreept echter dat ECT en benzodiazepinen een belangrijke rol kunnen spelen in het opheffen van katatonie, ook in de context van een acuut OCS-achtig beeld bij kinderen en jongeren met ASS.

CONCLUSIE

Katatonie bij kinderen en jongeren met ass is een klinische realiteit die behandeling behoeft met benzodiazepinen en ect. Er zijn echter tegenwoordig grote obstakels in de toegankelijkheid van deze behandelvormen vooral als gevolg van vooroordelen en gebrek aan ervaring ermee en onderzoek ernaar.

 De ouders van de jongen geven uitdrukkelijk toestemming om zijn casus te publiceren.

LITERATUUR

- Billstedt E, Gilberg C, Gilberg C. Autism after adolescence: population-based 13- to 22-year follow-up study of 120 individuals with autism diagnosed in childhood. *J Autism Devel Disord* 2005; 35: 351-60.
- Consoli A, Raffin M, Laurent C, Bodeau N, Champion D, Amoura Z, e.a. Medical and developmental risk factors of catatonia in children and adolescents: a prospective case-control study. *Schizophr Res* 2012; 137: 151-8.
- DeJong H, Bunton P, Hare DJ. A systematic review of interventions used to treat catatonic symptoms in people with autistic spectrum disorders. *J Autism Dev Disord* 2014; Mar 19. [Epub ahead of print]
- Dhossche D. Catatonia: the ultimate yet treatable motor reaction to fear in autism *Autism - Open Access* 2011; 1: doi: 10.4172/auo.1000103.
- Dhossche D, Wachtel L. ECT for catatonia in autism. In Ghaziuddin M, Walter G, red. *Electroconvulsive therapy in children and adolescents*. New York City: Oxford University Press 2013.
- Dhossche D, Wing L, Ohta M, Neumarker K-J. Catatonia in autism spectrum disorders. In *International Review of Neurobiology*. San Diego: Elsevier Academic Pres; 2006.
- Dhossche DM, Ross CA, Stoppelbein L. The role of deprivation, abuse, and trauma in pediatric catatonia without a clear medical cause. *Acta Psychiatr Scand* 2012; 125: 25-32.
- Ghaziuddin N, Dhossche D, Marcotte K. Retrospective chart review of catatonia in child and adolescent psychiatric patients. *Acta Psychiatr Scand* 2012; 125: 33-8.
- Hutton J, Goode S, Murphy M, Le Couteur A, Rutter M. New-onset psychiatric disorders in individuals with autism. *Autism* 2008; 12: 373-90.
- 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.
- Shah A, Wing L. Psychological approaches to chronic catatonia-like deterioration in autism spectrum disorders. *Int Rev Neurobiol* 2006; 72: 245-64.
- Sienaert P. Behandeling van jongeren met autisme en katatonie: ethische plicht. *Tijdschr Psychiatr* 2012; 54: 493-5.
- Wachtel LE, Dhossche DM, Fink M, Jaffe R, Kellner CH, Weeks H, e.a. ECT for developmental disability and severe mental illness. *Am J Psychiatry* 2013; 170: 1498-9.
- Wing L, Shah A. Catatonia in autistic spectrum disorders. *Br J Psychiatry* 2000; 176: 357-62.

SUMMARY

Catatonia in autism spectrum disorders: Review and case-report

D.M. DHOSSCHE, L.F. VAN DER STEEN, S.M. SHETTAR

BACKGROUND Catatonia develops in children, adolescents, and adults with autism spectrum disorders.

AIM To review catatonia in autism spectrum disorders.

METHOD A case-report is presented and discussed.

RESULTS Catatonia is a comorbid syndrome occurring in 12-17% of selected groups of adolescents and young adults with autism spectrum disorders who have been referred for specialised care or admitted to hospital. Clinical experience and case-reports indicate that benzodiazepines and electroconvulsive therapy can be used safely and effectively in both the treatment in acute cases and maintenance treatments for catatonia patients with autism spectrum disorders.

CONCLUSION Catatonia is a recognisable and treatable syndrome in children and adolescents with autism spectrum disorders.

TIJDSCHRIFT VOOR PSYCHIATRIE 57(2015)2, 89-93

KEY WORDS autism spectrum disorders, catatonia, children and adolescents