

Kontrowersje wokół diagnozy mutyzmu wybiórczego – krytyczna analiza trzech przypadków w świetle współczesnych badań oraz kryteriów diagnostycznych

The controversy around the diagnosis of selective mutism – a critical analysis of three cases in the light of modern research and diagnostic criteria

Justyna Holka-Pokorska¹, Agnieszka Piróg-Balcerzak², Marek Jarema¹

¹ III Klinika Psychiatrii, Instytut Psychiatrii i Neurologii

² Klinika Psychiatrii Dzieci i Młodzieży, Instytut Psychiatrii i Neurologii

Summary

The position of selective mutism disorder – SM – has been modified in the last edition of the classification of mental disorders DSM-5. It was removed from “Disorders of childhood and adolescence” and placed in “Anxiety disorders”. This caused two important changes in the interpretation of the symptoms of selective mutism. It highlighted anxious etiology of the disorder and also open the possibility to diagnose selective mutism in adults as a special category of anxiety disorders. The aim of this study was to present three different cases concerning the diagnostic difficulties of selective mutism (the child, the teenager and the persons who became adult during our observation) regarding current views on SM. In this study we presented the current view on the etiology, course and available therapies for selective mutism. Owing to updating the clinical knowledge about SM and describing three cases, we highlighted the controversies around the diagnosis and treatment of this disorder. Selective mutism might be a preliminary diagnosis, often leading to the diagnosis of other disorders of diverse etiology and course. Among the psychiatric aspects of the disorder, the ‘anxiety component’ of SM is crucial. In individuals with selective mutism, developmental disorders, social cognition and neurocognition deficits or dysfunctions of auditory processing often coexist. The severity and the type of comorbidities may determine the future course of the illness and the final effects of the therapy.

Słowa kluczowe: mutyzm wybiórczy, fobia społeczna, spektrum autyzmu – ASD

Key words: selective mutism, social phobia, ASD – Autism Spectrum Disorder

Wprowadzenie

Mutyzm wybiórczy (*selective mutism*) to zespół psychopatologiczny, którego etiologia oraz pozycja nozologiczna od wielu lat pozostają niejasne. Do dzisiaj nie stworzono także jednolitej koncepcji zarówno diagnozy, jak i terapii tego schorzenia. W ostatniej edycji klasyfikacji zaburzeń psychicznych DSM-5 dokonano zmian dotyczących pozycji klasyfikacyjnej tej jednostki syndromologicznej. Mutyzm wybiórczy został przeniesiony z kategorii „zaburzeń okresu dzieciństwa i adolescencji” do podrozdziału „zaburzeń lękowych” w DSM-5 [1]. W ten sposób podkreślono i „usankcjonowano” koncepcję pierwotnej lękowej etiologii tego zaburzenia [1].

Kryteria rozpoznawania SM nie zmieniły się [1]. Jednak według najnowszej edycji klasyfikacji DSM mutyzm wybiórczy może być rozpoznawany zarówno u dzieci i młodzieży, jak i osób dorosłych, pod warunkiem że stanowi on odmianę zaburzeń lękowych, a nie objaw psychozy, zaburzeń rozwojowych, neurologicznych czy zaburzeń mowy. Wokół diagnozy mutyzmu wybiórczego przez kilkadziesiąt ostatnich lat narosło sporo kontrowersji. Niektórzy badacze nie zaliczają mutyzmu wybiórczego do zaburzeń psychicznych czy emocjonalnych, ale uważają go za pochodną deficytów rozwoju mowy czy też zaburzenie behawioralne o typie zachowania unikającego [2].

Cel i metoda pracy

Prezentowana praca miała dwa cele. Jeden z nich stanowiło omówienie współczesnych poglądów na genezę i terapię mutyzmu wybiórczego w odniesieniu do nowego ujęcia pozycji klasyfikacyjnej tego zaburzenia. Do przeglądu literatury przedmiotu posłużyła baza MEDLINE, a uwzględniono w nim takie słowa kluczowe, jak: „selective mutism”, „selective mutism diagnosis”, „selective mutism treatment”. Do dalszej analizy zakwalifikowano prace badawcze reprezentatywne w zakresie analizowanych grup badawczych oraz opracowania istotne dla diagnozy oraz terapii pacjentów z mutyzmem wybiórczym. Wykorzystano także najważniejsze dotychczas opublikowane prace poglądowe dotyczące analizowanego tematu.

Kolejny, nie mniej istotny cel pracy sprowadzał się do omówienia kontrowersji diagnostycznych towarzyszących rozpoznaniu mutyzmu wybiórczego. Zilustrowano je prezentacją trzech zróżnicowanych przypadków klinicznych, w których na pewnych etapach obserwacji rozpoznawano mutyzm wybiórczy. Przy ich opisie zwróciliśmy uwagę na charakterystykę kliniczną objawów, współistniejące zaburzenia psychiczne oraz przebieg zaburzeń. U dwóch pacjentów diagnoza mutyzmu wybiórczego została zweryfikowana.

Pozycja nozologiczna zespołu objawów określanego jako mutyzm wybiórczy

Kwestie etiologii oraz patogenezy zaburzeń psychicznych zazwyczaj wywołują wiele kontrowersji zarówno wśród naukowców, jak i klinicystów. Aby ułatwić pełniejszy opis psychopatologii pacjenta w założonym czasie, stworzono koncepcję *comorbidity*, tj. współwystępowania zaburzeń psychicznych. Dodatkowe uzupeł-

nienie *comorbidity* stanowi koncepcja *lifetime comorbidity*. Według Wittchena [4] oraz Jacobiego i wsp. [3] *lifetime comorbidity* pozwala na poszerzenie spojrzenia na indywidualną psychopatologię danego pacjenta o perspektywę rozwojową. Oba najważniejsze systemy diagnostyczne wykorzystywane w diagnozie psychiatrycznej pozostają systemami anozologicznymi.

Pozycja klasyfikacyjno-diagnostyczna mutyzmu wybiórczego ewoluowała od traktowanych marginalnie „specyficznych zaburzeń zachowania” do współczesnych poglądów ujmujących SM jako skrajną manifestację fobii społecznej. W 1934 roku Tramer, opisując przypadek ośmioletniego dziecka, które odmawiało mówienia w niektórych sytuacjach, wprowadził termin *elective mutism* (EM). Miał on podkreślać brak kontaktu werbalnego jako świadomy wybór osób dotkniętych tym zaburzeniem [5]. Jeszcze do lat dziewięćdziesiątych ubiegłego stulecia w literaturze sporo było niejednoznacznych teorii na temat mutyzmu wybiórczego, w których akcentowano niesubordynację oraz upór osób z mutyzmem wybiórczym. Dodatkowo z patogenezą SM łączono manipulacyjne i kontrolujące zachowania ze strony nadopiekuńczych rodziców (zwłaszcza matek) [6].

Termin *elective mutism* oraz wczesne amerykańskie kryteria diagnostyczne tego schorzenia uwypuklały znaczenie świadomej woli pacjentów przy wycofywaniu się z kontaktu werbalnego. Terminu tego używano na określenie zależnej od woli „odmowy mówienia” do większości osób oraz w większości sytuacji społecznych. Właśnie nazwa *elective mutism* figurowała jeszcze w klasyfikacji DSM-III-R, a także pojawiła się w polskim piśmiennictwie psychiatrycznym [7]. W latach osiemdziesiątych i dziewięćdziesiątych XX wieku skłaniano się do interpretacji wycofywania się z kontaktu werbalnego jako przejawu cech opozycyjno-buntowniczych, a nie lęku społecznego.

Jednak na etapie klasyfikacji DSM-IV, poprzez DSM-IV-R, a na DSM-5 skończywszy, nazwa *elective mutism* została zastąpiona przez *selective mutism*. Zabieg ten miał na celu uwypuklenie fenomenu mutyzmu, który polega na tym, że charakterystyczna dla zaburzenia wybiórczość mówienia dotyczy jedynie niektórych (wybranych), a nie większości środowisk społecznych, oraz nie łączy się ze świadomą manipulacją otoczeniem przez odmowę mówienia.

Według klasyfikacji ICD-10 mutyzm wybiórczy zaliczany jest do podgrupy „zaburzeń funkcjonowania społecznego rozpoczynających się zwykle w dzieciństwie lub w wieku młodzieńczym” [8]. Zgodnie z ICD-10 rozpoznanie mutyzmu wybiórczego stawia się w przypadku, gdy występują:

- a) prawidłowy lub bliski prawidłowemu poziom rozumienia mowy;
- b) wystarczający do społecznego komunikowania się poziom kompetencji w posługiwaniu się mową;
- c) wyraźne dowody, że dziecko w niektórych sytuacjach może mówić i mówi normalnie, albo prawie normalnie.

Jednakże u wyraźnej mniejszości dzieci z mutyzmem wybiórczym wywiad wskazuje albo na opóźnienia w rozwoju mowy, albo na trudności w artykulacji.

Zatem według klasyfikacji ICD-10 mutyzm wybiórczy uważany jest nadal za problem zdrowotny ograniczony wyłącznie do wieku dziecięcego, a nie odmianę zaburzeń lękowych, które mogą ujawnić się w różnych okresach życia.

Współczesne teorie społeczne i psychologiczne dotyczące etiopatogenezy mutyzmu wybiórczego

Większość doniesień naukowych dotyczących mutyzmu wybiórczego opiera się na bardzo niewielkich grupach badawczych lub jedynie opisach przypadków. Z tego względu badania epidemiologiczne dotyczące tej kategorii diagnostycznej mogą nie odzwierciedlać prawdziwego rozpowszechnienia tego zaburzenia. Z badań epidemiologicznych pochodzących z Europy Zachodniej, Stanów Zjednoczonych i Izraela wynika, że mutyzm wybiórczy jest stosunkowo rzadkim zaburzeniem i jest obserwowany w populacji z częstością od 0,03–0,76% [2, 9, 10]. Obserwuje się go dwukrotnie częściej u dziewczynek niż u chłopców [11, 12]. Niektórzy autorzy doszukują się uwarunkowań społeczno-kulturowych mutyzmu wybiórczego, zwracając uwagę, że powściągliwość społeczna wydaje się bardziej akceptowana i częściej „premiowana” w przypadku dziewcząt niż chłopców [13].

Jak już wspomniano, dotychczas nie stworzono jednolitej i obowiązującej teorii dotyczącej etiopatogenezy mutyzmu wybiórczego. Spośród teorii psychologicznych SM warto przyrzeć się teorii behawioralnej, psychodynamicznej oraz systemowej [14].

Psychologowie behawioralni, opierając się na teorii behawioralnej i negatywnych wzmocnieniach warunkujących proces uczenia się, zakładają, że w nowych sytuacjach społecznych układ współczulny przejmuje kontrolę hamującą nad zdolnością mówienia oraz całym zachowaniem dzieci z SM. Dlatego też dzieci z tym zaburzeniem w sytuacjach zagrażających (które stanowią dla nich nowe sytuacje społeczne) zachowują się jak „zneruchomiałe” czy też „zamrożone”. Na poziomie językowym przejawia się to natomiast milczeniem [9, 14, 15].

W teorii psychodynamicznej podkreśla się, że dla etiologii SM ważne są nierozwiązany konflikt edypalny oraz fiksacja na poziomie fazy oralnej lub analnej rozwoju psychoseksualnego [16]. Poprzez transpozycję złości wobec rodzica tej samej płci jako mechanizm obronny pojawia się regresja do niewerbalnego stadium rozwoju w sytuacjach, które wzmagają lęk i nasilają konflikt wewnętrzny [16]. Milczenie pełni funkcję mechanizmu obronnego służącego „karaniu” rodziców.

W teorii systemowej uwypukla się znaczenie neurotycznej kontroli rodzicielskiej nad dziećmi z mutyzmem wybiórczym, która łączy się jednocześnie z zależnością i ambiwalencją. W rezultacie dzieci tworzą nadmiernie silne przywiązanie do rodziców charakteryzujące się współzależnością. Skutkuje to brakiem zaufania wobec świata zewnętrznego, lękiem przed obcymi, lękiem przed asymilacją trudności oraz lękiem przed porozumiewaniem się za pomocą języka. Cała ta konstelacja objawów prowadzi do ostatecznej manifestacji klinicznej zaburzenia, przejawiającej się milczeniem [9, 17].

Omawiając psychologiczne teorie dotyczące etiologii mutyzmu wybiórczego, warto na koniec przytoczyć tzw. nową zintegrowaną teorię rozwojową. Podkreśla ona znaczenie wcześniejszej lękowej predyspozycji biologiczno-temperamentalnej u dzieci z deficytami w zakresie rozwoju mowy. Według zintegrowanej teorii rozwojowej dzieci z SM przed podjęciem edukacji przedszkolnej (lub szkolnej, jeśli dziecko nie uczęszczało do przedszkola) pozostają nieświadome swoich deficytów językowych. Jednak w przypadku podejmowania nowych, „wymagających” kontaktów społecznych

z rówieśnikami z prawidłowym rozwojem funkcji językowych dzieci z SM podlegają wykluczeniu z grupy rówieśniczej. Początek edukacji może stanowić też czas pierwszej konfrontacji dzieci z SM ze swoimi dysfunkcjami. U dzieci z lękowymi wzorcami reagowania może to uruchomić wzór unikania konfrontacji w środowisku przedszkolnym (lub szkolnym) i aktywować wzór zachowań mutystycznych [2]. Model zintegrowanej teorii rozwojowej kładzie także nacisk na znaczenie unikającego wzorca reagowania w rodzinie pacjentów z mutyzmem wybiórczym.

Już w latach dziewięćdziesiątych ubiegłego stulecia zaproponowano teorię, że mutyzm wybiórczy stanowi rodzaj silnie wyrażonej fobii społecznej powiązanej ze spektrum zaburzeń mowy oraz zaburzeń behawioralnych [18]. Teoria ta powstała na podstawie obserwacji, wedle których mutyzm wybiórczy najczęściej dotyka dzieci z rodzin, w których występuje fobia społeczna [18]. Objawy mutyzmu wybiórczego u dzieci mogą odpowiadać unikaniu publicznych wypowiedzi przez osoby z fobią społeczną w życiu dorosłym. W innym badaniu u dzieci z mutyzmem wybiórczym stwierdzono wyższy poziom lęku, więcej cech obsesyjnych oraz wyższy odsetek skarg somatycznych niż u dzieci z grupy kontrolnej [19].

Przeciwnicy zaliczania mutyzmu wybiórczego do spektrum zaburzeń lękowych podkreślają, że najczęstszy okres rozwoju pierwszych objawów lęku społecznego nie pokrywa się z najczęstszym okresem ujawnienia objawów mutyzmu wybiórczego [17]. Objawy mutyzmu wybiórczego przeważnie ujawniają się po raz pierwszy u dzieci w wieku od 3 do 6 lat, natomiast fobia społeczna – u nastolatków w wieku 11–13 lat. W badaniu przeprowadzonym przez Melfsena i wsp. [17] oceniano poziom lęku u dzieci z objawami mutyzmu wybiórczego. Okazało się, że badane dzieci charakteryzował niższy poziom lęku społecznego w porównaniu z dziećmi z rozpoznaniem fobii społecznej. Wnioski Melfsena potwierdzono także w badaniu Yeganeha i wsp. [20]. W badanej grupie dzieci z rozpoznaniem mutyzmu wybiórczego stwierdzono niższy poziom lęku społecznego niż w podgrupie dzieci z objawami mutyzmu wybiórczego i współistniejącej fobii społecznej. Dodatkowo wykazano, że dzieci z mutyzmem wybiórczym określały nasilenie występującego u nich lęku społecznego jako niższe w porównaniu z dziećmi z objawami fobii społecznej, ale bez współistniejących objawów mutyzmu wybiórczego [20, 21].

Teoria mutyzmu wybiórczego jako odmiany lęku społecznego to jedna z najważniejszych teorii ostatnich lat dotyczących tego zagadnienia. Jednak dopiero badania minionych dwóch dekad spowodowały, że zaprzestano postrzegać mutyzm wybiórczy jako odmianę zachowań opozycyjno-buntowniczych. Znalazło to odzwierciedlenie w ostatniej edycji klasyfikacji DSM-5 poprzez usytuowanie mutyzmu wybiórczego w podrozdziale zaburzeń lękowych [1]. W podrozdziale zaburzeń lękowych umieszczone zostały również: zaburzenie o charakterze lęku separacyjnego, fobie specyficzne, fobia społeczna, zaburzenie o charakterze lęku panicznego, agorafobia, zaburzenie lękowe uogólnione, niespecyficzne zaburzenie lękowe, zaburzenia lękowe związane ze stanem somatycznym oraz spowodowane substancjami psychoaktywnymi lub lekami.

Badania opisowe i porównawcze dotyczące osób z mutyzmem wybiórczym wykazały, że u większości z nich współwystępowały zaburzenia lękowe [11, 12, 22].

W zależności od badania było to 74,1% ($N = 50$) badanych [12], 66% ($N = 100$) [11], a nawet 100% [22].

Tabela 1. Rozpowszechnienie objawów zaburzeń lękowych u chorych z mutyzmem wybiórczym według wybranych badań opisowych i porównawczych

Autor	Konstrukcja i uczestnicy badania	Główne wnioski
Steinhausen i Juzi 1996 [11]	Badanie opisowe, $N = 100$	<ul style="list-style-type: none"> – początek zaburzeń – wiek przedszkolny, częstsze u dziewcząt, często poprzedzone migracją lub zaburzeniami rozwoju lub płynności mowy (38% badanych) – mutyzm najczęściej obserwowany w szkole lub wobec osób nieznanym – często nieśmiałość (85% badanych), zaburzenia internalizacyjne oraz zaburzenia lękowe (66% badanych)
Dummit i wsp. 1997 [22]	Badanie opisowe, $N = 50$	<ul style="list-style-type: none"> – współwystępowanie fobii społecznej u dzieci z mutyzmem wybiórczym u 100% badanych – inne zaburzenia lękowe u 48% badanych
Yeganeh i wsp. 2003 [20]	Badanie porównawcze $N = 23$ dzieci z mutyzmem wybiórczym i fobią społeczną oraz $N = 23$ dzieci z fobią społeczną	<ul style="list-style-type: none"> – brak różnic w pomiarze poziomu lęku jako cechy oraz ogólnego poziomu lęku w obu badanych grupach – u dzieci z SM wyższa punktacja w skalach zachowań opozycyjno-buntowniczych w porównaniu z dziećmi z fobią społeczną (bez objawów SM)

Audiologiczno-neurobiologiczne teorie mutyzmu wybiórczego

Coraz częściej podkreśla się znaczenie deficytów rozwoju mowy, zaburzenia płynności języka oraz zaburzenia składni u dzieci z SM [23, 24]. Według badań oceniających rozwój funkcji językowych u dzieci z SM mimo płynnej mowy w środowisku domowym dzieci takie, w porównaniu z dziećmi z fobią społeczną oraz dziećmi zdrowymi, wykazują szereg deficytów językowych w badaniach standaryzowanymi testami oceniającymi rozwój mowy [23, 24]. Dysfunkcje z zakresu rozwoju systemu językowego u dzieci z SM prezentowały się w sposób zbliżony podczas obserwacji w domowym, jak i pozarodzinnym środowisku [24]. W badaniu przeprowadzonym przez Manassis i wsp. [23] wykazano, że starszy wiek oraz większa płynność gramatyczno-syntaktyczna łączyły się z mniejszym nasileniem objawów mutyzmu. Wyniki tego badania także sugerują silną korelację nasilenia deficytów językowych z zaawansowaniem stosowanych wzorców unikania przejawiających się brakiem kontaktu werbalnego.

Ostatnie badania naprowadzają również na zaburzenia eferentnego przetwarzania słuchowego u dzieci z mutyzmem wybiórczym [25]. Procesy słyszenia i mówienia bardzo ściśle od siebie współzależą. Taka współzależność umożliwia stałe monitorowanie jakości głosu i mowy, percepcji dźwięków oraz zapobieganie przestymulowaniu nadmierną wokalizacją [25, 26].

U ludzi występują dwa różne eferentne systemy zaangażowane w monitorowanie i regulację procesów wokalizacji:

- 1) refleks akustyczny ucha środkowego (MEAR – *Middle-Ear Acoustic Reflex*) oraz
- 2) refleks środkowej wiązki oliwkowo-ślimakowej (MOCB – *Medial Olivocochlear Bundle*).

System MEAR uczestniczy w neutralizacji głośnych dźwięków o niskiej częstotliwości, zapobiegając przestymulowaniu słuchowych dróg nerwowych. Gdy system MEAR jest aktywowany przez własną mowę, prawdopodobnie wywiera efekt antymaskujący poprzez zapobieganie potencjalnemu przestymulowaniu ślimaka. Pozwala to na zachowanie dość stałego poziomu wrażliwości słuchowej oraz zapobiega interferencji z własnym głosem mówiącego [25, 27]. Według badań przeprowadzonych przez Bar-Haima nieprawidłowości w zakresie systemu MEAR obserwowane są u większości osób introwertywnych, korelują one także ze zwiększoną wrażliwością słuchową oraz preferencją takich osób do bardziej spokojnego otoczenia [25, 28].

Nadal nie udało się jednoznacznie opisać roli systemu MOCB w procesach wokalizacji. Prawdopodobnie pełni on funkcję zapobiegającą uszkodzeniu ślimaka, wynikającemu z ekspozycji na dźwięki o umiarkowanej częstotliwości (czyli podobne do dźwięków spotykanych w różnych naturalnych środowiskach) [25, 29, 30]. Taką hipotezę potwierdza również fakt, że MOCB jest aktywowany już przy antycypacji wokalizacji. Dodatkowo MOCB prawdopodobnie odgrywa rolę antymaskującą wobec sygnałów tła podczas prawidłowej, ukierunkowanej percepcji słuchowej [25, 31].

Bar-Haim i Henkin [25] postulują, że istotny czynnik w patogenezie mutyzmu wybiórczego mogą stanowić deficyty z zakresu systemów MOCB i MEAR. W badaniu, w którym porównywali oni grupę dzieci z SM z dziećmi zdrowymi, wykazali znaczącą supresję potencjału wywołanego P50 na kolejny z dwóch bodźców słuchowych u dzieci z SM [32]. Dysfunkcje obu systemów mogą skutkować brakiem synchronizacji symultanicznego przetwarzania otrzymywanej informacji słuchowej podczas jednoczesnego głośnego mówienia. Według Bar-Haima i Henkina u dzieci z mutyzmem wybiórczym nieprawidłowe funkcjonowanie obu eferentnych systemów słuchowych MEAR i MOCB podczas wokalizacji może manifestować się nadmiernym maskowaniem zewnętrznych bodźców słuchowych. Powoduje to desensytyzację szlaków słuchowych wobec przetwarzanych i analizowanych dźwięków.

Według koncepcji Bar-Haima i Henkina u dzieci z mutyzmem wybiórczym dochodzi do zaburzeń symultanicznej percepcji dźwięków podczas jednoczesnej głośnej wokalizacji. Wedle tej hipotezy dzieci z SM adaptują się do dysfunkcji eferentnego systemu słuchowego poprzez ściszenie głosu, mówienie szeptem lub całkowitą odmowę mówienia. Obserwowane jest to zwłaszcza w sytuacjach, które wymagają od nich wysoce efektywnego przetwarzania bodźców słuchowych [25, 33]. Z tego względu trudno także jasno określić precyzyjny wzorzec, zgodnie z którym dzieci z SM dobierają środowiska, w jakich podejmują kontakt werbalny, a w jakich pozostają nieme. Autorzy tego modelu mutyzmu podkreślają jednak, że leżące u podłoża SM dysfunkcje audiologiczne i neurologiczne mogą wpływać na nieustanne wystawianie dzieci na

nieświadome dylematy dotyczące tego, czy podjąć aktywnie komunikację werbalną, narażając się na zniekształcenia percepcji słuchowej, czy też słyszeć dokładnie, bez jednoczesnej aktywnej partycypacji w rozmowie [25].

Na podstawie przedstawionego modelu można domniemywać, że środowisko domowe, gdzie dialogi bywają podejmowane najczęściej w konstelacji jeden do jednego, może spełniać dla chorych z SM rolę bezpiecznego i znanego otoczenia społecznego. Dodatkowo przysłuchiwanie się wyselekcjonowanym przez lata komunikatom werbalnym, nieświadomie „dostosowanym” przez otoczenie do potrzeb słuchowych wychowywanego dziecka z SM, mogą pozwalać na optymalną kompensację jego deficytów słuchowych. Kompensacja ta może być także wzmacniana przez znajomość konstruktów werbalnych, którymi operują osoby najbliższe oraz kameralność takich dialogów, które rzadko wprowadzają konieczność synchronizacji dźwięków pochodzących z różnych źródeł (np. jednocześnie od kilku osób, jak w czasie konwersacji w klasie, czy od osób obcych, które używają innych/nowych konstruktów językowych niż najbliższa rodzina).

Opis trzech przypadków klinicznych

W niniejszej części pracy opisano trzy przypadki zaburzeń, które na pewnych etapach obserwacji klinicznej manifestowały się objawami mutyzmu wybiórczego. Wszyscy spośród prezentowanych trzech pacjentów na wybranych etapach rozwojowych spełniali kryteria mutyzmu wybiórczego w ujęciu klasyfikacji ICD-10. Jednak w toku dalszej obserwacji diagnoza została zweryfikowana w kierunku innych zaburzeń wieku rozwojowego lub nie udało się jej ostatecznie ustalić. Doboru dokonano pod kątem uwypuklenia znacznej heterogenności zaburzeń, które mogą kryć się pod syndromologiczną diagnozą SM.

Przypadek 1

Pacjent lat 17, dotychczas nie był leczony psychiatrycznie. Kilka lat wcześniej konsultowany przez psychologa z powodu zaobserwowanych przez rodziców trudności z koncentracją i pamięcią. Z wywiadu od matki wynikało, że u chłopca wykluczono wtedy istotne zaburzenia funkcji poznawczych. Natomiast ze względu na objawy niepokoju zaproponowano mu techniki relaksacyjne, które miał stosować w razie wzmożonego napięcia lękowego. Zalecono też systematyczną psychoterapię, na którą chłopiec nie chciał uczęszczać, a rodzice nie potrafili go do tego namówić.

Wywiad okołoporodowy nieobciążony, wywiad rozwojowy prawidłowy, wszystkie etapy rozwojowe o czasie, nie obserwowano zaburzeń rozwoju mowy. Nigdy poważnie nie chorował, nie doznał urazów głowy, nie obserwowano u niego napadów drgawkowych.

Z wywiadu rodzinnego wynikało, że u krewnych pierwszego stopnia występowały zaburzenia psychiczne, które wymagały interwencji psychiatrycznej. Siostra (24 lata) zawsze była bardzo nieśmiała w sytuacjach społecznych, w środowisku domowym zaś stawała się agresywna słownie. W okresie adolescencji samookaleczała się. Z powodu

fobii społecznej i zaburzeń lękowych była leczona farmakologicznie citalopramem oraz korzystała kilkakrotnie z psychoterapii indywidualnej i grupowej. Ojciec pacjenta był raz leczony farmakologicznie citalopramem z powodu epizodu depresji.

Pierwsza konsultacja psychiatryczna pacjenta odbyła się kilka miesięcy przed ukończeniem przez niego 18 lat. Jako osoba niepełnoletnia pacjent zgłosił się na wizytę w towarzystwie matki. Powodem wizyty była odmowa powrotu do szkoły po przerwie wakacyjnej (na poziomie edukacji drugiej klasy liceum). Problemy z nauką zaczęły się w drugim semestrze pierwszej klasy. Pierwszy semestr zaliczył dobrze, natomiast w drugim semestrze jego wyniki w nauce znacznie się pogorszyły i chory z ledwością otrzymał promocję do drugiej klasy liceum.

Pacjent zawsze miał bardzo wąskie grono rówieśnicze oraz bardzo skąpe relacje koleżeńskie. W ostatnich latach jego kontakty społeczne ograniczały się do rodziców, siostry, najbliższego kuzyna i kolegi ze szkoły podstawowej. Nieliczne kontakty rówieśnicze nigdy nie były inicjowane przez pacjenta, ale zawsze przez inne osoby. W pierwszej klasie licealnej nie nawiązał relacji rówieśniczych z żadnym z kolegów ani z żadną z koleżanek.

W szkole zazwyczaj odpowiadał monosylabami, nigdy nie rozwijając wypowiedzi. W roku poprzedzającym opisywaną terapię psychiatryczną przestał odpowiadać na pytania ustne, które padały w czasie lekcji. Ze względu na pogłębiające się unikanie kontaktu werbalnego z nauczycielami i kolegami pacjent odmówił uczęszczania na zajęcia lekcyjne po przerwie wakacyjnej. W ostatnich tygodniach przed rozpoczęciem roku szkolnego jego nastrój stopniowo się pogarszał. Odmówił, gdy kolega ze szkoły podstawowej chciał go odwiedzić. Komunikował się werbalnie jedynie w sytuacji, gdy było to bezwzględnie konieczne. Zaczęły występować u niego ruminacje samobójcze, ale bez tendencji do realizacji. Kontakt werbalny z rodzicami pozostał niezaburzony nawet w okresie, kiedy pacjent całkowicie przestał komunikować się w środowisku szkolnym.

W trakcie wizyty lekarskiej, która odbyła się kilka dni po rozpoczęciu roku szkolnego, przez cały czas siedział ze spuszczoną głową, nie nawiązując kontaktu wzrokowego. Dodatkowo twarz zasłaniał opadającymi na oczy włosami. Nie inicjował rozmowy, a na zadawane pytania odpowiadał niechętnie, najczęściej monosylabami. Nie rozwijał wypowiedzi. Nie chciał opisać swojego samopoczucia ani zrelacjonować stanu psychicznego. Potwierdził lekko obniżony nastrój, niewielki lęk wolno płynący oraz przemijające myśli samobójcze, bez tendencji do realizacji. Rozpoznano epizod depresji umiarkowanej oraz podjęto obserwację w kierunku mutyzmu wybiórczego. Wprowadzono także terapię escitalopramem. Po dwóch tygodniach nieco poprawił się nastrój chorego oraz całkowicie ustąpiły myśli samobójcze. Nadal jednak uporczywie odmawiał powrotu do szkoły. Zaproponowano pacjentowi indywidualny tok nauczania (na terenie szkoły) oraz stopniową edukację włączającą do zajęć z dotychczasową klasą. Jednocześnie chory został skierowany na terapię indywidualną, grupową oraz konsultacje rodzinne do młodzieżowego ośrodka terapeutycznego. Na sesje terapii indywidualnej zgłaszał się niechętnie. Rodzicom relacjonował, że źle się na nich czuje i nie wie, co ma mówić w trakcie sesji. Spotkania przebiegały w ciszy, przerywanej pytaniami terapeuty, na które pacjent nie udzielał odpowiedzi. Podczas sprawowania

rocznej opieki nad pacjentem co trzy tygodnie kontynuowano spotkania psychoedukacyjno-wspierające dla rodziców pacjenta. W trzecim miesiącu terapii escitalopramem obserwowano poprawę nastroju oraz ustąpienie myśli samobójczych. Chory jednak nadal racjonalizował swój lęk społeczny oraz zachowania unikające, twierdząc, że nie potrzebuje szerszych kontaktów społecznych i sam je reguluje.

Ostatecznie pacjent podjął naukę w trybie indywidualnym od 12. tygodnia roku szkolnego „z powodu odgórnego nakazu ze strony szkoły oraz zagrożenia karą pieniężną”. W czasie lekcji indywidualnych czuł się nieco bardziej komfortowo niż w trakcie nauki z całą klasą, gdyż nie był zaabsorbowany obecnością innych osób oraz wymuszonymi interakcjami społecznymi. Z drugiej strony podczas lekcji indywidualnych cała uwaga nauczyciela prowadzącego zajęcia była skupiona na nim, co powodowało dodatkowy dyskomfort. Lekcje polegały na wykładach nauczycieli oraz sprawdzaniu zadawanego materiału w formie pisemnych sprawdzianów. Podczas całego roku terapii chory kontynuował naukę, w sposób wybiórczy rozmawiał z niektórymi nauczycielami, nadal całkowicie unikał rówieśników. Otrzymał promocję do klasy maturalnej. W ciągu kilku miesięcy dwukrotnie zmieniał terapeutę indywidualnego. Wynikało to z tego, że dwóch kolejnych terapeutów zrezygnowało z prowadzenia pacjenta „z powodu braku współpracy z jego strony”. W trakcie kolejnych wizyt psychiatrycznych zalecono treningi behawioralne, zbliżone do metod stosowanych w przypadku osób z zaburzeniami ze spektrum autyzmu. W tym okresie chory zaczął konfrontować się z występującymi u siebie objawami społecznego wycofywania się, które wcześniej racjonalizował. W kolejnym roku szkolnym zdecydowano o rezygnacji z nauczania indywidualnego, chory powrócił do nauki w trybie dziennym ze swoją dotychczasową klasą. Podstawowy efekt terapii na opisywanym etapie stanowiło ustąpienie racjonalizacji odnośnie przejawów mutyzmu, co pozwoliło na podjęcie dalszych etapów leczenia oraz intensyfikację treningów umiejętności społecznych. Diagnozę mutyzmu wybiórczego zweryfikowano post factum w kierunku „obserwacji zespołu Aspergera”. Sama terapia pacjenta została przerwana z powodu urlopu macierzyńskiego psychiatry prowadzącego, co uniemożliwiło postawienie ostatecznej diagnozy.

Przypadek 2

Dziewczynka lat 8, urodzona w 37. tygodniu ciąży z obciążonym wywiadem ciążowym (nadciśnieniem indukowanym ciążą) oraz okołoporodowym (niedotlenienie). Punkcja Apgar po porodzie wynosiła 6, a po 3 minutach 9 punktów (z powodu obniżonego napięcia mięśniowego). Mimo że urodziła się w 37. tygodniu ciąży, obserwowano u niej niektóre cechy wcześniactwa. Rehabilitowana ruchowo od 6 tygodnia życia, początkowo w zakresie motoryki i wspierania rozwoju mowy, a od 2.–3. r.ż. już głównie neurologopedycznie. Obserwowano dyskretne opóźnienie rozwoju psychoruchowego – zaczęła siadać w 9. miesiącu życia, a chodzić w 15. miesiącu. Od 6. miesiąca życia pozostawała pod opieką logopedy. Od drugiego roku życia stwierdzano istotne opóźnienie rozwoju mowy (pierwsze słowa po 40. miesiącu życia, pierwsze dwuwyrzadowe zdania w 4. r.ż.). Dziecko było obserwowane pod kątem alalii, dysfazji i afazji.

Rozwój mowy u pacjentki nastąpił po wdrożeniu intensywnego programu stymulacji funkcji lewopółkulowych oraz wczesnej nauki czytania metodą prof. Jagody Cieszyńskiej. Cały system językowy rozwinął się u niej z opóźnieniem w 4.–5. r.ż. Od tego czasu dziewczynka zadowolająco komunikowała się z osobami z najbliższego otoczenia.

W badaniu psychologicznym wykonywanym w wieku 2,5 roku stwierdzono nieharmonijny rozwój psychoruchowy, ale w granicach szerszej rozumianej normy. Na stosunkowo najniższym poziomie pozostawała funkcja mowy czynnej (według skali rozwoju Brunet–Lezine). Zalecono stymulację rozwoju dziecka metodą zabawy oraz kontynuowanie terapii logopedycznej.

W kolejnym badaniu przeprowadzonym rok później stwierdzono niepełną dojrzałość emocjonalno-społeczną, niewystarczający zasób słów, ubogą formę wypowiedzi (dwuwyzrazowe zdania lub równoważniki zdań), stosunkowo słaby poziom sprawności manualnej oraz grafomotoryki. Rozwój umysłowy nieharmonijny, w sferze niewerbalnej na poziomie przeciętnym. Iloraz inteligencji oceniono według Międzynarodowej Wykonaniowej Skali Leitiera na $P = 93$. W kolejnych badaniach przeprowadzonych, gdy dziecko ukończyło 4 lata oraz 4,5 roku, stwierdzono nieco lepsze przystosowanie emocjonalno-społeczne, wzbogacenie zasobu słów oraz form wypowiedzi, ale nadal niewystarczające w stosunku do normy wiekowej. W wypowiedziach obecne było upraszczanie grup spółgłoskowych, występowała substytucja głosek szumiących na syczące oraz 'r' na 'l'. Rozwój umysłowy na poziomie przeciętnym, nieharmonijny. Iloraz inteligencji oceniany Skalą Inteligencji Termansa–Merrill I.I. = 94. Obniżony poziom grafomotoryczny. Zalecono dalszą stymulację rozwoju dziecka, wzmacnianie przejawów samodzielności i aktywności oraz tworzenie warunków sprzyjających rozwojowi emocjonalno-społecznemu z ćwiczeniem umiejętności społecznych.

Dziewczynka od 3. r.ż. uczestniczyła w edukacji przedszkolnej w przedszkolu masowym. Przez pierwsze dwa lata nauki w przedszkolu komunikowała się jedynie za pomocą gestykulacji. W kolejnych latach życia jej poziom komunikacji werbalnej z najbliższą rodziną osiągnął zadowolająco poziom, jednak w środowisku przedszkolnym nadal pozostawała mutystyczna. Dopiero w ostatnim roku pobytu nawiązała bardzo bliską relację z jedną z koleżanek z grupy, z którą komunikowała się werbalnie i bawiła się. Polecenia nauczycieli wykonywała zadowolająco, korzystała z programu edukacyjnego przygotowania przedszkolnego, jednak nigdy nie zgłaszała się do odpowiedzi ustnych. W związku z opóźnieniem rozwoju mowy w stosunku do rówieśników rozwinęła mechanizmy kompensacyjne pod postacią wycofywania się z zagrażających dla niej interakcji z osobami nieznanymi lub „ekspansywnymi rówieśnikami”. Prezentowane przez nią objawy spełniały kryteria mutyzmu wybiórczego zarówno według definicji ICD-10, jak i DSM-5 [1, 6], jednak diagnoza ta została obalona w toku dalszej obserwacji dziecka.

Objawy wycofywania się z relacji rówieśniczych skutkujące powstrzymaniem się od inicjowania kontaktu werbalnego zaostryły się po rozpoczęciu edukacji szkolnej. Prawdopodobnie było to wywołane koniecznością adaptacji do nowej szkoły oraz całkowitą zmianą grupy rówieśniczej. Edukację szkolną dziecko rozpoczęło od oddziały zeroowego szkoły integracyjnej. W związku z wdrożeniem intensywnego

programu terapeutycznego realizowanego przez szkołę, polegającego na wsparciu psychologa, logopedy, pedagoga specjalnego oraz terapeuty integracji sensorycznej, dziewczynka stawała się coraz bardziej otwarta na kontakty z rówieśnikami, ale nadal rzadko je inicjowała. Na poziomie klasy pierwszej dziewczynka funkcjonowała już zadowalająco, uczestniczyła aktywnie w prowadzonych zajęciach, zgłaszała się do odpowiedzi ustnych. Nadal jednak sama nie inicjowała kontaktów z rówieśnikami z klasy. Gdy zabawę inicjowały inne dzieci, wycofywała się, spędzając czas z nauczycielami lub opiekunem świetlicy szkolnej. Reagowała brakiem kontaktu werbalnego także we wszystkich nowych sytuacjach społecznych (np. przy spotkaniach towarzyskich inicjowanych przez rodziców).

W kilku pierwszych latach życia dziewczynka była kilkakrotnie diagnozowana przez laryngologa – foniatrę, który nie potwierdził żadnej istotnej patologii narządu słuchu. W wykonanym w 9. r.ż. dziecka teście uwagi i lateralizacji słuchowej ujawniono obniżenie zewnętrznej uwagi prawousznej oraz niestabilność wewnętrznej uwagi prawousznej, a także obuuszne nieprawidłowości dyskryminacji dźwięków w paśmie od 125 Hz do 8000 Hz oraz lokalizacji źródła dźwięków dla częstotliwości 500–1000 Hz.

Z informacji pozyskanych od rodziców wynika, że w toku dalszej obserwacji diagnoza mutyzmu wybiórczego została zweryfikowana w kierunku zespołu Aspergera. Poprawę behawioralną polegającą na spontanicznym inicjowaniu kontaktów z osobami spoza kręgu rodzinnego (w tym z rówieśnikami) uzyskano po intensywnym treningu umiejętności społecznych dla dzieci z zaburzeniami ze spektrum autyzmu.

Przypadek 3

Czternastoletni chłopiec, uczeń pierwszej klasy gimnazjum. Z wywiadu wynika, że we wczesnym dzieciństwie rozwijał się prawidłowo. Chodził przed ukończeniem 1. r.ż., zaczął mówić w 18. miesiącu życia. Od okresu wczesnodziecięcego nieśmiały, nigdy nie nawiązywał kontaktu werbalnego z obcymi osobami. Z członkami rodziny rozmawiał swobodnie. W czwartym roku życia poszedł do przedszkola, ale nie adaptował się i po miesiącu rodzice zrezygnowali z tej formy opieki. Pozostawał w domu z babcią. Z powodu niechęci do nawiązywania kontaktów z obcymi osobami od 5. r.ż. pod opieką poradni psychologiczno-pedagogicznej, a następnie psychiatry. Postawiono rozpoznanie mutyzmu wybiórczego, zalecono leki z grupy SSRI, jednak w dalszej obserwacji zrezygnowano z farmakoterapii. Rozpoczęto terapię indywidualną, lecz chłopiec nadal komunikował się werbalnie tylko z członkami rodziny, jednocześnie stosunkowo dobrze funkcjonując w szkolnej grupie rówieśniczej (chodził do klasy integracyjnej). Dopiero po wieloletniej terapii zaobserwowano niewielką poprawę – np. odzywał się „na ucho”, gdy był z rodzicami w sklepie lub zamawiał lody w obecności terapeuty; przestał ściszać głos, gdy dom odwiedzały nieznanne mu wcześniej osoby. Ponadto do 9. r.ż. u chłopca utrzymywało się zanieczyszczanie kałem, które według wywiadu ustąpiło po jednorazowej interwencji matki (zagroziła, że nie wyprawi chłopcu imprezy urodzinowej). Do dziesiątego roku życia chłopiec nie chciał się sam ubierać (był ubierany przez matkę). Jadł jedynie wybrane produkty żywieniowe (bez owoców i warzyw).

Pacjent pochodził z rodziny pełnej, miał dwie starsze siostry. Rodzice pozostawali w związku formalnym, ojciec był uzależniony od alkoholu, nie podjął leczenia. W wywiadzie obciążenia chorobami psychicznymi: brat matki chorował na schizofrenię paranoidalną, popełnił samobójstwo; siostra matki – upośledzenie umysłowe w stopniu głębokim; babka ze strony ojca – zaburzenia lękowe o typie fobii specyficznych.

W badaniach EEG oraz CT mózgu nie stwierdzono nieprawidłowości. Pacjent został skierowany do oddziału psychiatrycznego w celu przeprowadzenia diagnostyki oraz modyfikacji terapii. W badaniu fizykalnym oraz wyniki badań laboratoryjnych (również próby tarczycowe i gospodarka lipidowa) w normie.

Podczas hospitalizacji chłopiec początkowo odmawiał komunikacji werbalnej, a następnie porozumiewał się z lekarzem prowadzącym w formie pisemnej. Udzielał krótkich i precyzyjnych odpowiedzi na wszystkie pytania. W trakcie badania przez zespół terapeutyczny (kilkuosobowa grupa) nie nawiązywał również kontaktu pisemnego. Dopiero po kilku dniach adaptacji, przy okazji kolejnego badania przez zespół terapeutyczny, na zadawane pytania zamknięte zaczął udzielać odpowiedzi za pomocą ruchów głowy. Na wiele pytań (zwłaszcza dotyczących oceny swojego funkcjonowania) nie odpowiadał wcale. Przejawiane przez chłopca zaburzenia zachowania związane z odmową mówienia różnicowano z zaburzeniami opozycyjno-buntowniczymi oraz fobią społeczną. Jednak ostatecznie postawiono wniosek, że zachowanie chłopca może odpowiadać cechom zachowań opozycyjno-buntowniczych, często obserwowanych u dzieci z mutyzmem wybiórczym.

W kontaktach rówieśniczych na oddziale dość szybko zaczął funkcjonować stosunkowo dobrze. Uczestniczył zarówno w zajęciach zorganizowanych, jak i w aktywnościach spontanicznych (gry planszowe, zajęcia sportowe), jednak bez inicjowania komunikacji werbalnej. Był pogodny, nie przejawiał zachowań agresywnych czy autoagresywnych, ale obserwowano słabą modulację reakcji emocjonalnych. Przez cały 23-dniowy okres hospitalizacji z nikim nie nawiązał kontaktu werbalnego, również z rodzicami, z którymi korespondował jedynie przez SMS-y. Chłopiec rozpoczął spotkania terapeutyczne oparte na metodzie genogramu z częstotnością dwa razy w tygodniu, jednak rodzice wypisali go na własne żądanie. Twierdzili, że syn sygnalizował im, że „i tak się nie odezwie”. Został wypisany z zaleceniem kontynuacji psychoterapii indywidualnej oraz rodzinnej. Nie są znane dalsze losy chłopca.

Omówienie

Wielu autorów podkreśla, że zarówno diagnoza, jak i terapia mutyzmu wybiórczego powinny składać się z kompleksowego oraz multimodalnego podejścia. W ujęciu proponowanym przez pediatrów każda diagnoza mutyzmu wybiórczego powinna zawierać wywiad od pacjenta, wywiad od rodziców oraz dane dotyczące funkcjonowania dziecka w środowisku szkolnym. W ostatecznej diagnozie natomiast powinni uczestniczyć lekarz pediatra, psychiatra, psycholog, audiolog/foniatra oraz logopeda [15].

W związku z tym, że SM zaliczane jest do zaburzeń psychicznych, a nie zaburzeń z pogranicza neuropsychiatrii i audiologii, pierwotne podejście terapeutyczne do objawów SM warunkuje perspektywa psychiatrii klinicznej. Z drugiej strony wśród

współczesnych koncepcji na temat zjawiska mutyzmu wybiórczego zaczął przeważać pogląd związany ze ściśle lękową patogenezą SM, co podkreślono umieszczeniem zespołu objawów psychopatologicznych wybiórczego mutyzmu w rozdziale zaburzeń lękowych DSM-5 [1]. W ostatnich latach doprowadziło to do przyjęcia dominującej perspektywy terapeutycznej dotyczącej niwelowania skutków rozwoju zachowań fobicznych u dzieci z SM.

W postępowaniu terapeutycznym wyłoniły się dwie główne tendencje, które opierają się na: (1) terapii poznawczo-behawioralnej oraz (2) preparatach farmakologicznych używanych w leczeniu zaburzeń lękowych, tj. z grupy SSRI [34–36]. Jednak dane na temat rzeczywistej skuteczności obu tych form terapii pozostają niezwykle skąpe. Jak podaje Manassis [34], dotychczas w anglojęzycznej literaturze medycznej opisano zaledwie około 100 przypadków terapii osób z mutyzmem wybiórczym za pomocą preparatów z grupy SSRI. Na podstawie zmian tendencji w zakresie diagnozowania SM zapoczątkowanych przez piątą edycję DSM można także przypuszczać, że powyższe trendy terapeutyczne ulegną utrwaleniu i rozszerzeniu.

Jednak już autorzy klasyfikacji ICD-10 we wstępie do rozdziału „Zaburzenia funkcjonowania społecznego rozpoczynające się zwykle w dzieciństwie lub w wieku młodzieńczym” podkreślają, jak bardzo heterogenna pozostaje właśnie ta grupa zaburzeń [8]. W opisie samej kategorii diagnostycznej „mutyzm wybiórczy” uwypuklono, że „u wyraźnej mniejszości dzieci wywiad wskazuje na opóźnienia rozwoju mowy, albo na trudności w artykulacji” [8]. W żadnej z klasyfikacji nie podkreśla się natomiast znaczenia np. deficytów neurorozwojowych czy deficytów przetwarzania słuchowego dla diagnozy SM. Warto w tym miejscu zauważyć, że występowanie subtelnych lub poważniejszych deficytów neurorozwojowych ujawniających się w pierwszych latach nauki w szkole podstawowej często może prowadzić do późniejszej diagnozy zaburzeń ze spektrum autyzmu. Specyficzne trudności językowe u osób z zespołem Aspergera Tony Attwood opisał jako „znaczącą różnicę pomiędzy znajomością języka a praktyką językową” [37]. Według niego dzieci z zespołem Aspergera mogą wykazywać sprawność lingwistyczną w warunkach formalnego badania przez terapeutę mowy, ale przejawiać znaczne trudności wtedy, gdy konieczne jest szybkie przetwarzanie języka w realnej sytuacji, jak na przykład zabawy z rówieśnikami. Inny problem może stanowić słuchanie i rozumienie wypowiedzi, której towarzyszą zakłócenia i hałasy w tle [37]. Powyższe obserwacje Attwooda wydają się bardzo zbliżone do wyników badań dotyczących przetwarzania słuchowego zaprezentowanych przez Henkina i Bar-Haima oraz Henkina i wsp. [25, 32]. Występowanie takich deficytów może też mieć znaczenie dla dalszej terapii farmakologicznej, modyfikacji stosowanych technik behawioralnych czy nawet samych metod sprawowania opieki nad dzieckiem.

Przedstawione przez nas przypadki ilustrują trudności łączące się z syndromologiczną diagnozą SM. W przypadku 2. obserwowano znaczne opóźnienia rozwoju systemu językowego, natomiast w pozostałych dwóch przypadkach trudności z rozwojem mowy nie występowały. W przypadku 1. objawom mutyzmu wybiórczego towarzyszyły zaburzenia lękowe, a w przypadku 3. – wyraźne zaburzenia rozwojowe, dysfunkcje behawioralne (nieorganiczne zanieczyszczanie się kałem) oraz obciążony wywiad rodzinny.

Mimo że we wszystkich przypadkach początkowo postawiono syndromologiczną diagnozę SM, to w przypadku 1. oraz 3. można było także różnicować ten zespół ze skrajną postacią fobii społecznej, dużą depresją, zespołem Aspergera, zaburzeniami opozycyjno-buntowniczymi czy pierwszym epizodem psychozy. W przypadku 2. u dziecka we wcześniejszym okresie rozwoju występowały zaburzenia ekspresji mowy. Objawy mutyzmu wybiórczego obserwowane w późniejszym okresie jego rozwoju można było różnicować z zaburzeniami ze spektrum autyzmu, upośledzeniem umysłowym oraz zaburzeniami opozycyjno-buntowniczymi.

Dane epidemiologiczne wskazują, że dzieci z objawami mutyzmu wybiórczego często spełniają także kryteria innych zaburzeń psychicznych, takich jak: depresja, zespół lęku panicznego, zaburzenie obsesyjno-kompulsyjne, zaburzenia dysocjacyjne czy zespół Aspergera (który współwystępuje nawet u 7,4% dzieci z SM) [10, 38].

We wszystkich trzech opisywanych przypadkach osób z SM uzyskane efekty terapii nie były zadowalające. Przedstawiony materiał kliniczny nie pozwala jednak na jednoznaczne uogólnienia dotyczące przebiegu objawów SM oraz efektywności różnych metod stosowanych w terapii objawów mutyzmu wybiórczego.

Wielu autorów podkreśla brak wypracowanych metod terapeutycznych oraz standardów leczenia farmakologicznego w SM. Na podstawie dotychczasowych badań osób z mutyzmem wybiórczym prowadzonych z perspektywy psychiatrii klinicznej najwięcej danych (choć nadal jednak w bardzo ograniczonym zakresie) zgromadzono dla metod farmakologicznych. Zatem farmakoterapia stanowi zazwyczaj jedną z opcji w planowaniu kompleksowego postępowania terapeutycznego w SM. Warto ją rozważyć, jeśli objawy SM są bardzo nasilone lub gdy wcześniejsze interwencje psychospołeczne nie przyniosły istotnej poprawy. W ostatnio opisanym przez Manassis przypadku skutecznej terapii fluoksetyną 8-letniej dziewczynki z SM zwrócono uwagę na korzyści płynące z farmakoterapii w postępowaniu wobec pacjentów z tym zaburzeniem [34]. Aspekty farmakologiczne terapii SM zostały uwzględnione także w dwóch systematycznych przeglądach literatury autorstwa Carlsona i wsp. [35] oraz Kaakeh i Stumpf [36]. Z kolei w badaniu porównującym efekty stosowania fluoksetyny i placebo ($n = 6$ vs $n = 9$) w terapii SM wykazano, że interwencja za pomocą SSRI redukowała nasilenie objawów u większości dzieci, lecz nie spowodowała całkowitego ustąpienia objawów zaburzenia [39].

W literaturze przedmiotu brak jest długoterminowych obserwacji przebiegu zaburzenia u osób cierpiących z powodu mutyzmu selektywnego w okresie dzieciństwa lub adolescencji. W badaniu Blacka i wsp. [39] wykazano, że objawy mutyzmu utrzymują się mimo stosowania farmakoterapii. Z kolei w naturalistycznym badaniu z 6–8-miesięczną obserwacją przebiegu SM u dzieci ze współistniejącą fobią społeczną ujawniono, że jego objawy utrzymywały się w całym okresie obserwacji mimo stosowania zróżnicowanych interwencji terapeutycznych [40]. W badaniu polegającym na rocznej obserwacji po zakończonym cyklu terapii behawioralnej dzieci z mutyzmem (złożonej z 24 sesji) stwierdzono, że połowa z 24 obserwowanych dzieci po 12 miesiącach okresu *follow-up* nie spełniała już kryteriów rozpoznania tego zaburzenia [41].

Dodatkowo rozszerzenie kategorii diagnostycznej SM o populację osób dorosłych może jeszcze bardziej skomplikować obserwacje kliniczne dotyczące przebiegu tego

zaburzenia. W opisanym przez nas przypadku 1. chłopiec był diagnozowany psychiatrycznie krótko przed osiągnięciem pełnoletności. Przytoczone w niniejszej pracy obserwacje również należą do ograniczonych czasowo. Może to stanowić dość istotny czynnik zawężający możliwość pełniejszej analizy długoterminowych uwarunkowań klinicznych SM.

W przywołanych powyżej przypadkach klinicznych SM obserwacje przerywano ze względu na zróżnicowane czynniki:

- 1) okoliczności zewnętrzne (brak możliwości dalszego prowadzenia terapii przez lekarza prowadzącego) w przypadku 1.;
- 2) czynniki wewnętrzne (wypis dziecka z oddziału psychiatrii dziecięcej na żądanie rodziców) w przypadku 3.;
- 3) uzyskanie pewnego (choć nadal nie w pełni satysfakcjonującego) efektu terapeutycznego w przebiegu zastosowanych metod socjoterapeutycznych oraz logopedycznych w przypadku 2.

Spośród opisywanych przez nas przypadków osób z objawami mutyzmu wybiórczego najlepsze efekty leczenia dotyczyły przypadku 2., w którym wdrożono multimodalne podejście rehabilitacyjne i terapeutyczne u dziecka z obserwowanymi w wieku przedszkolnym problemami neurologopedycznymi. Zastosowano program rehabilitacji przetwarzania słuchowego oparty na ćwiczeniach poprawy rozumienia wypowiedzi językowych oraz treningu uwagi słuchowej (z serii *Słucham i uczę się mówić* w opracowaniu Wianeckiej) [42]. Program rehabilitacyjny polegał na ćwiczeniach słuchu fonemowego, czyli prezentowaniu głosek, których czas trwania został wydłużony. Taka forma rehabilitacji została zaproponowana w okresie wspomagania rozwoju systemu językowego u dziewczynki (od 2. do 4. r.ż.). W kolejnych latach w rehabilitacji neurologopedycznej nie skupiano się już tak intensywnie na treningu uwagi słuchowej. Jednak w okresie kiedy dziecko podjęło naukę szkolną, rodzice zauważali u niego zachowania odzwierciedlające brak koncentracji na komunikatach słuchowych (dziecko sprawiało wrażenie, jakby ich nie słyszało lub nie rozumiało). W związku z tym, że foniatra audiolog wielokrotnie potwierdził diagnozę wykluczającą nieprawidłowości słuchu, rodzice uznali, że tego rodzaju sytuacje wynikały z chwilowego braku zainteresowania ze strony dziecka lub były objawem negatywizmu. U dziewczynki nigdy nie analizowano zdolności przetwarzania słuchowego podczas jednoczesnej wokalizacji. Wykonywano jedynie kilkakrotnie badanie EEG, które nie wykazało żadnej patologii. Wiadomo było natomiast, że wszystkie sytuacje społeczne, podczas których w otoczeniu dziecka pojawiało się więcej osób niż jedna lub dwie, stanowiły znaczący problem behawioralny, warunkujący często wycofywanie się dziecka z kontaktu werbalnego. W trakcie dalszej obserwacji dziecka wybiórczość kontaktu werbalnego została przypisana szczególnym deficytom neuropsychologicznym charakterystycznym dla objawów zespołu Aspergera.

U chłopca opisywanego w przypadku 3. nie obserwowano problemów audiologicznych, foniatrycznych lub logopedycznych. Rozwój jego mowy przebiegał prawidłowo. Mimo że chłopiec został skierowany na oddział psychiatrii dziecięcej w celu pogłębienia i/lub weryfikacji diagnozy, to weryfikacja ta nie obejmowała

diagnostyki audiologiczno-logopedycznej. Podczas pobytu chłopca na oddziale nie rozszerzono jego procesu diagnostycznego w kierunku obserwacji zaburzeń ze spektrum autyzmu.

Natomiast w przypadku 1. objawy mutyzmu wybiórczego rozwijały się u chłopca stopniowo. Początkowo obserwowano u niego objawy fobii społecznej, które obecne były od początku edukacji. Problemy z nawiązywaniem kontaktów z rówieśnikami pogłębiały się w kolejnych latach szkoły podstawowej, apogeum zaś osiągnęły na etapie nauki w liceum ogólnokształcącym, gdy wymagania społeczne znacznie wzrosły (reakcją była odmowa uczęszczania do szkoły). W tym przypadku objawy SM mogły stanowić zarówno krańcową postać fobii społecznej, jak i przejaw wycofania społecznego w przebiegu zespołu Aspergera. Brak wczesnej interwencji terapeutycznej nakierowanej na problemy społeczne i psychologiczne dziecka mógł przyczynić się do rozwoju objawów mutyzmu wybiórczego oraz pogłębić trudności dotyczące kontrolowania nastroju w późniejszym okresie.

Według koncepcji rozwojowej *life span* większość zaburzeń psychicznych rozwija się według pewnej struktury liniowej lub trajektorii, ze stopniowym narastaniem częstotliwości oraz głębokości objawów. Zazwyczaj nie udaje się uchwycić ścisłych punktów odcięcia, kiedy objawów danego zaburzenia jeszcze nie udaje się zidentyfikować, w porównaniu z punktem czasowym, gdy jest ono już obecne (wedle obowiązujących współcześnie kryteriów diagnostycznych) [43]. Biorąc zatem pod uwagę koncepcję *life span*, można podejrzewać, że jednoznaczna kategoryzacja objawów mutyzmu wybiórczego wśród zaburzeń lękowych bez uwzględnienia problemów neurorozwojowych, audiologicznych oraz ewentualnego współwystępowania deficytów przetwarzania sensorycznego, może stanowić znaczne uproszczenie.

Badanie Kristensen z 2000 roku ujawniło, że zaburzenia lękowe nie stanowią dominującej współwystępującej patologii obserwowanej u osób z mutyzmem wybiórczym [44]. W badaniu tym wykazano natomiast, że zaburzenia lękowe u dzieci z SM obserwowane są z podobną częstością jak różne deficyty rozwojowe (74,1% vs 68,5%). Według autorki unikanie kontaktu werbalnego może stanowić mechanizm służący „maskowaniu” trudności wynikających ze zróżnicowanych deficytów rozwojowych oraz neuropoznawczych. W takim ujęciu ograniczone efekty terapii mutyzmu wybiórczego mogą być skutkiem tego, że najczęściej stosowane metody terapii (farmakologicznej oraz behawioralnej) działają jedynie wobec lękowej składowej zaburzenia, nie obejmują zaś np. składowych związanych z deficytami przetwarzania słuchowego, innych deficytów neuropoznawczych oraz deficytów z zakresu poznania społecznego, które mogą współwystępować u pokaźnej liczby dzieci z SM.

Jeśli etiopatogeneza mutyzmu wybiórczego może łączyć się zarówno z deficytami rozwojowymi, jak i przynależnością do spektrum zaburzeń lękowych, to niezwykle utrudnione (lub wręcz niemożliwe) staje się stworzenie jednolitego podejścia terapeutycznego w przypadku objawów SM. Zamiast tego powinny być stosowane kompleksowe metody uwzględniające heterogenność objawów.

Według Henkina i Bar-Haima [25] w diagnozie i terapii SM warto uwzględnić występowanie deficytów przetwarzania słuchowego. Autorzy proponują treningi wzmacniające symultaniczne przetwarzanie słuchowe z jednoczesnym głośnym mówieniem.

Treningi rozpoczynają się od odsłuchiwania przez słuchawki nagrań z utrwalonym własnym głosem. Następnie utrwalony głos pacjenta wzbogacany jest przez dźwięki tła. Sekwencja treningów ma kończyć się symulacjami mówienia w różnych sytuacjach społecznych, które wcześniej łączyły się z odmową kontaktu werbalnego. Według badaczy opisane techniki mogą wspomagać procesy symultanicznego przetwarzania słuchowego podczas wokalizacji.

Henkin i Bar-Heim zasugerowali także możliwą przydatność magnetycznej stymulacji przezczaszkowej (rTMS) lub bezpośredniej stymulacji przezczaszkowej (*transcranial Direct Current Stimulation* – tDCS), które w połączeniu z technikami behawioralnymi mogą wzmacniać efekty terapii SM, podobnie jak to wykazano dla neurorehabilitacji afazji poudarowej [25, 45].

Wnioski

1. Na obecnym etapie badań nad patogenezą oraz psychopatologią mutyzmu wybiórczego na pierwszy plan wysunięta została koncepcja przynależności mutyzmu wybiórczego do spektrum zaburzeń lękowych o charakterze fobii społecznej. W piątej edycji klasyfikacji DSM zinterpretowano objawy mutyzmu wybiórczego jako skrajną postać fobii społecznej.
2. Zespół objawów mutyzmu wybiórczego stanowi niehomogenną grupę zaburzeń o zróżnicowanej etiologii oraz przebiegu. Wśród aspektów psychiatrycznych zaburzenia na pierwszy plan wysunięto „składową lękową” SM.
3. U osób z mutyzmem wybiórczym często obserwuje się współwystępujące deficyty rozwojowe oraz/lub dysfunkcje z zakresu przetwarzania słuchowego.
4. W odniesieniu do koncepcji *life span* SM może stanowić zespół objawów ujawniających się w przełomowych okresach rozwojowych u dzieci z deficytami neurokognitywnymi oraz/lub z zakresu poznania społecznego.
5. Na przebieg oraz rokowanie mutyzmu wybiórczego rzutuje obecność objawów współwystępujących deficytów rozwojowych oraz innych zaburzeń psychicznych.

Piśmiennictwo

1. *Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders*, 5th ed. American Psychiatric Association.
2. Viana AG, Beidel DC, Rabian B. *Selective mutism: A review and integration of the last 15 years*. Clin. Psychol. Rev. 2009; 29(1): 57–67.
3. Wittchen HU. *Critical issues in the evaluation of comorbidity of psychiatric disorders*. Br. J. Psychiatry Suppl. 1996; 30: 9–16.
4. Jacobi F, Wittchen HU, Holting C, Höfler M, Pfister H, Müller N i wsp. *Prevalence, co-morbidity and correlates of mental disorders in the general population: Results from the German Health Interview and Examination Survey*. Psychol. Med. 2004; 34(4): 1–15.
5. Kopp S, Gillberg C. *Selective mutism: A population based study*. J. Child Psychol. Psychiatry 1997; 38(2): 257–262.

6. Newman S. *The Selective Mutism Foundation's Influence over "Selective Mutism" in the Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders (DSM). View SM in the DSM.* 2004; www.Selectivemutismfoundation.org (dostęp: 19.09.2014).
7. Kołakowski A, Liwska M, Wolańczyk T. *Elective mutism in children: Literature review.* Psychiatr. Pol. 1996; 30(2): 233–246.
8. *Klasyfikacja zaburzeń psychicznych i zaburzeń zachowania w ICD-10. Opisy kliniczne i wskaźniki diagnostyczne.* Kraków–Warszawa: Uniwersyteckie Wydawnictwo Medyczne „Vesalius”, Instytut Psychiatrii i Neurologii; 2000.
9. Krysanski VL. *A brief review of selective mutism literature.* J. Psychol. 2003; 137(1): 29–40.
10. Sharp WG, Sherman C, Gross AM. *Selective mutism and anxiety: A review of the current conceptualisation of the disorder.* J. Anxiety Disord. 2007; 21(4): 568–579.
11. Steinhausen HC, Juzi C. *Elective mutism: An analysis of 100 cases.* J. Am. Acad. Child Adolesc. Psychiatry 1996; 35: 265–288.
12. Kristensen H. *Multiple informants' report of emotional and behavioural problems in a nationwide sample of selective mute children and controls.* European Child & Adolescent Psychiatry 2000; 10(2): 135–142.
13. McInnes A, Manassis K. *When silence is not golden: An integrated approach to selective mutism.* Semin. Speech. Lang. 2005; 26(3): 201–210.
14. Leonard HL, Dow SP. *Elective mutism.* Child Adolesc. Psychiatr. Clin. N. Am. 1993; 2: 695–707.
15. Wong P. *Selective mutism: A review of etiology, comorbidities, and treatment.* Psychiatry (Edgemont) 2010; 7(3): 23–31.
16. Giddan JJ, Milling L. *Comorbidity of psychiatric and communication disorders in children.* Child Adolesc. Psychiatr. Clin. N. Am. 1999; 8(1): 19–36.
17. Melfsen S, Walitza S, Warnke A. *The extent of social anxiety in combination with mental disorders.* Eur. Child Adolesc. Psychiatry 2006; 15(2): 111–117.
18. Black B, Uhde TW. *Treatment of elective mutism with fluoxetine: A double-blind, placebo-controlled study.* J. Am. Acad. Child Adolesc. Psychiatry 1994; 33(7): 1000–1006.
19. Cunningham CE, McHolm A, Boyle MH, Patel S. *Behavioral and emotional adjustment, family functioning, academic performance and social relationships in children with selective mutism.* J. Child Psychol. Psychiatry 2004; 45(8): 1363–1372.
20. Yeganeh R, Beidel DC, Turner SM. *Selective mutism: More than social anxiety?* Depress. Anxiety 2006; 23(3): 117–123.
21. Manassis K, Fung D, Tannock R, Sloman L, Fiksenbaum L, McInnes A. *Characterizing selective mutism: Is it more than social anxiety?* Depress. Anxiety 2003; 18(3): 153–161.
22. Dummit ES 3rd, Klein R, Tancer NK, Ashe B, Martin J, Fairbanks JA. *Systematic assessment of 50 children with selective mutism.* J. Am. Acad. Child Adolesc. Psychiatry 1997; 36(5): 653–660.
23. Manassis K, Tannock R, Garland EJ, Minde K, McInnes A, Clark S. *The sounds of silence: Language, cognition and anxiety in selective mutism.* J. Am. Acad. Child Adolesc. Psychiatry 2007; 46(9): 1187–1195.
24. McInnes A, Fung D, Manassis K, Fiksenbaum L, Tannock R. *Narrative skills in selective mutism: An exploratory study.* Am. J. Speech Lang. Pathol. 2004; 13(4): 304–315.
25. Henkin Y, Bar-Haim Y. *An auditory-neuroscience perspective on the development of selective mutism.* Dev. Cogn. Neurosci. 2015; 12: 86–93.
26. Hoy R. *Tuning in by tuning off.* Nature 2002; 418: 831–833.
27. Curio G, Neuloh G, Numminen J, Jousmäki V, Hari R. *Speaking modifies voice-evoked activity in the human auditory cortex.* Hum. Brain Mapp. 2000; 9(4): 183–191.

28. Bar-Haim Y. *Introversion and individual differences in acoustic reflex function*. Int. J. Psychophysiol. 2002; 46(1): 1–11.
29. Robertson D. *Centrifugal control in mammalian hearing*. Clin. Exp. Pharmacol. Physiol. 2009; 36(7): 603–611.
30. Maison SF, Usubuchi H, Liberman MC. *Efferent feedback mini-mizes cochlear neuropathy from moderate noise exposure*. J. Neurosci. 2013; 33(13): 5542–5552.
31. Xie DH, Henson OW Jr. *Tonic efferent-induced cochlear damping in roosting and echolocating mustached bats*. Hear. Res. 1998; 124: 60–68.
32. Henkin Y, Feinholz M, Arie M, Bar-Haim Y. *P50 suppression in children with selective mutism: A preliminary report*. J. Abnorm. Child Psychol. 2010; 38(1): 43–48.
33. Bar-Haim Y, Henkin Y, Ari-Even-Roth D, Tatin-Schneider S, Hildesheimer M, Muchnik C. *Reduced auditory efferent activity in childhood selective mutism*. Biol. Psychiatry 2004; 55: 1061–1068.
34. Manassis K. *SSRI in case of selective mutism*. J. Psychiatry Neurosci. 2013; 38(1): E1–2.
35. Carlson JS, Mitchell AD, Segool N. *The current state of empirical support for the pharmacological treatment of selective mutism*. Sch. Psychol. Q. 2008; 23(3): 354–372.
36. Kaakeh Y, Stumpf JL. *Treatment of selective mutism: Focus on selective serotonin reuptake inhibitors*. Pharmacotherapy 2008; 28(2): 214–224.
37. Attwood T. *Zespół Aspergera. Kompletny przewodnik*. Gdańsk: Harmonia Universalis; 2012.
38. Kopp S, Gillberg C. *Selective mutism: A population-based study: A research note*. J. Child Psychol. Psychiatry 1997; 38(2): 257–262.
39. Black B, Uhde TW. *Treatment of elective mutism with fluoxetine: A double-blind, placebo-controlled study*. J. Am. Acad. Child Adolesc. Psychiatry 1994; 33(7): 1000–1006.
40. Manassis K, Tannock R. *Comparing interventions for selective mutism: A pilot study*. Can. J. Psychiatry 2008; 53(10): 700–703.
41. Oerbeck B, Stein MB, Pripp AH, Kristensen H. *Selective mutism: Follow-up study 1 year after end of treatment*. European Child & Adolescent Psychiatry 2015; 24(7): 757–766.
42. Wianicka E. *Ślucham i uczyć się mówić*. Kraków: Wydawnictwo „Arson”; 2008.
43. Woo SM, Keatinge C. *Diagnosis and treatment of mental disorders across the lifespan*. Hoboken, New Jersey: Wiley and Sons, Inc.; 2008.
44. Kristensen H. *Selective mutism and comorbidity with developmental disorder/delay, anxiety disorder, and elimination disorder*. J. Am. Acad. Child Adolesc. Psychiatry 2000; 39(2): 249–256.
45. Shah PP, Szafarski JP, Allendorfer J, Hamilton RH. *Induction of neuroplasticity and recovery in post-stroke aphasia by non-invasive brain stimulation*. Front. Hum. Neurosci. 2013; 7: 1–17.

Adres: Justyna Holka-Pokorska
Instytut Psychiatrii i Neurologii
III Klinika Psychiatrii
02-957 Warszawa, ul. Sobieskiego 9
e-mail: pokorska@ipin.edu.pl

Otrzymano: 20.11.2015

Zrecenzowano: 22.01.2016

Otrzymano po poprawie: 17.07.2017

Przyjęto do druku: 26.07.2017

Tabela 2. **Rozwój kategorii diagnostycznej mutyzmu wybiórczego w kolejnych edycjach klasyfikacji DSM (cyt. za [6] z modyfikacją)**

Edycja DSM	Nazwa kategorii diagnostycznej	Grupa klasyfikacyjna	Kryteria diagnostyczne
DSM-I (1952)	-	-	-
DSM-II (1968)	-	-	-
DSM-III (1980)	Elective mutism		Przewlekła odmowa mówienia w większości sytuacji społecznych U niektórych dzieci – obecność opóźnienia rozwoju mowy oraz zaburzenia artykulacji
DSM-III-R (1987)	Elective mutism	Inne zaburzenia okresu niemowlęctwa, dzieciństwa czy adolescencji	Uporczywa odmowa mówienia w jednej lub większej liczbie sytuacji społecznych Odmowa mówienia nie wynika z objawów fobii społecznej U niektórych dzieci – opóźnienia rozwoju mowy oraz zaburzenia artykulacji
DSM-IV (1994)	Selective mutism	Zaburzenia po raz pierwszy ujawniające się w okresie niemowlęctwa, dzieciństwa lub adolescencji	Utwalona odmowa mówienia w jednej lub wielu sytuacjach społecznych (takich jak szkoła) u dzieci, które posiadają zdolność mówienia Zaburzenie wpływa na osiągnięcia szkolne i zawodowe czy na komunikację społeczną Okres trwania ponad jeden miesiąc (wyłączając pierwszy miesiąc w szkole) Mutyzm nie jest wywołany brakiem fluencji językowej wymaganej w niektórych społecznych sytuacjach (np. u dzieci niedawnych emigrantów, które nie odzwyczajają się w szkole do momentu opanowania nowego języka) Nie łączy się z zaburzeniami mowy (np. jękaniami), zaburzeniami rozwojowymi, schizofrenią czy innymi psychozami
DSM-IV-R (2000)	Selective mutism		
DSM-5 (2013)	Selective mutism	Zaburzenia lękowe	