

· 系统综述 ·

关键反应训练对孤独症谱系障碍患儿治疗效果的系统综述

尼罗帕¹, 艾力帕提·太来提², 王敏因¹, 热娜·买买提^{1*}

(1. 新疆医科大学第一附属医院, 新疆 乌鲁木齐 830054;

2. 乌鲁木齐国际医院, 新疆 乌鲁木齐 830000

*通信作者: 热娜·买买提, E-mail: krena95@aliyun.com)

【摘要】 本文目的是对关键反应训练(PRT)治疗孤独症谱系障碍(ASD)患儿的效果进行综述,以期对ASD患儿实施有效的PRT提供循证医学证据。收集关于PRT对ASD患儿干预效果的随机对照试验(RCT),并采用Cochrane协作网中RCT偏倚风险评价标准对文献进行方法学质量评价。共纳入6篇文献,从PRT实施方案、PRT在改善ASD患儿一般社会交流能力和言语沟通能力等方面的相关研究结果进行阐述,并总结其局限性和未来可能的研究方向。

【关键词】 关键反应训练;孤独症谱系障碍;儿童;系统综述

开放科学(资源服务)标识码(OSID):



微信扫描二维码

听独家语音释文

与作者在线交流

中图分类号:R749

文献标识码:A

doi:10.11886/scjsws20230315001

Effect of pivotal response training for children with autism spectrum disorder : a systematic review

Niluopa¹, Ailipati Tailaiti², Wang Minnan¹, Rena Maimaiti^{1*}

(1. The First Affiliated Hospital of Xinjiang Medical University, Urumqi 830054, China;

2. Urumqi International Hospital, Urumqi 830000, China

*Corresponding author: Rena Maimaiti, E-mail: krena95@aliyun.com)

【Abstract】 The purpose of this article is to systematically review the effectiveness of pivotal response training (PRT) for children with autism spectrum disorder (ASD), so as to provide evidence-based guidance for the implementation of effective PRT for children with ASD. Randomized controlled trials (RCTs) investigating the effectiveness of PRT for children with ASD were collected, and the methodological quality of the trails was evaluated using the Cochrane Collaboration's tool for risk of bias assessment. A total of 6 RCTs were included in this review. Then the empirical findings including the implementation of PRT and the role of PRT in improving general social skills and verbal communication skills of children with ASD were elaborated. And its limitations and possible future research directions were also summarized. [Funded by Special Project for Construction of Innovation Environment in Autonomous Region: Construction of Science and Technology Innovation Base (number, PT2306)]

【Keywords】 Pivotal response training; Autism spectrum disorder; Children; Systematic review

孤独症谱系障碍(autism spectrum disorder, ASD)是一类早发性神经发育障碍,其特征是患者的社交功能受损、存在沟通发育缺陷及受限制的、重复的、刻板的行为^[1]。近年来,ASD患儿数量有所增加,依据国际患病率估算,我国约有300万~500万ASD患儿^[2]。越来越多的ASD患儿将面临着持续性的学习和生活方面的挑战,进而难以顺利社会化并融入主流社会^[3]。现阶段,ASD的发病机制尚不明确,早

期诊断和干预可改善ASD患儿预后。

关键反应训练(pivotal response training, PRT)是自然主义发展行为干预(naturalistic developmental behavioral intervention, NDBI)的几种干预措施之一^[4]。以应用行为分析(applied behavior analysis, ABA)为基础,从关键性技能着手,通过对ASD患儿的关键性技能进行干预,促进患儿对非关键性技能的学习与掌握,从而扩大干预效果,改善患儿障碍及行为问题^[5]。既往部分研究已表明PRT对ASD患儿有效^[6-7],但关于干预效果的研究结果各异。故本文对国内外有关PRT对ASD患儿治疗效果的研究进行综

基金项目:自治区创新环境建设专项——科技创新基地建设(项目名称:以病因为导向的儿童发育障碍性疾病筛查平台构建与应用,项目编号:PT2306)

述,以期对 ASD 患儿采取有效的 PRT 提供参考。

1 资料与方法

1.1 资料来源与检索策略

1.1.1 资料来源

于 2023 年 2 月 4 日,计算机检索 Web of Science、PubMed、OVID、SpringerLink、SinoMed、中国知网、万方和维普数据库,收集关于对 ASD 患儿实施 PRT 的随机对照试验(Randomized controlled trial, RCT)。检索时限为建库至 2022 年 12 月 31 日。

1.1.2 检索策略

采用主题检索。中文检索词:孤独症、自闭症、孤独症谱系障碍、孤独性障碍、广泛性发育障碍、关键反应训练、关键反应培训、关键反应干预、关键反应教学、关键反应;英文检索词:autism*、autistic*、autism spectrum disorder、autistic disorder、pervasive developmental disorder、pivotal response treatment、pivotal response training、pivotal response intervention、pivotal response teaching、pivotal response。中文数据库检索策略(以中国知网为例)如下。#1:(孤独症) or (自闭症) or (孤独症谱系障碍) or (孤独性障碍) or (广泛性发育障碍);#2:(关键反应训练) or (关键反应培训) or (关键反应干预) or (关键反应教学) or (关键反应);#3:#1 and #2。英文数据库检索策略(以 PubMed 为例)如下。#1:(autism*) or (autistic* or autism spectrum disorder) or (autistic disorder) or (pervasive developmental disorder);#2:(pivotal response treatment) or (pivotal response training) or (pivotal response intervention) or (pivotal response teaching) or (pivotal response);#3:#1 and #2。

1.2 文献纳入与排除标准

纳入标准:①研究类型为 RCT;②研究对象符合《中国精神障碍分类与诊断标准(第 3 版)》(Chinese Classification and Diagnostic Criteria of Mental Disease, third edition, CCMD-3)、《国际疾病分类(第 10 版)》(International Classification of Diseases, tenth edition, ICD-10)或《精神障碍诊断与统计手册(第 5 版)》(Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders, fifth edition, DSM-5)中 ASD 诊断标准,年龄≤15 岁;③干预措施为 PRT 联合常规治疗,对照措施为常规药物治疗联合常规护理。排除标准:①非中文或英文文献;②无法获取全文的文献;③重复发表的文献;

④综述、会议摘要、个案报道、信件等。

1.3 文献筛选与资料提取

由两名研究者独立完成进行文献检索和筛选,对纳入文献的结果进行交叉复核,若出现分歧,通过讨论决定是否纳入^[8]。提取文献资料,包括第一作者、发表年份、国家、样本量、干预措施、对照措施、干预频次及干预效果。

1.4 纳入文献的偏倚风险评价

由两名研究者按照标准独立评价纳入研究的偏倚风险,并交叉核对结果。采用 Cochrane 协作网中 RCT 偏倚风险评价标准进行评估^[8],共包括“随机序列的产生”“分配隐藏”“对受试者和试验人员施盲”“对评估员施盲”“结果数据的完整性”“选择性报告”“其他偏倚来源”7 个项目。完全符合上述标准则为低偏倚,文献质量为 A 级;部分符合上述标准则为中度偏倚,文献质量为 B 级;完全不符合上述标准则为高偏倚,文献质量为 C 级。因纳入的原始研究数据不具备充分一致性,提取的数据无法合并和转换,故无法进行 Meta 分析,仅做定性分析。

2 结果

2.1 文献筛选流程及结果

通过数据库检索共获取文献 347 篇,其中 Web of Science 44 篇、PubMed 95 篇、OVID 51 篇、Springer-Link 91 篇、SinoMed 6 篇、中国知网 28 篇、万方数据库 21 篇、维普数据库 11 篇。通过删除重复文献,阅读文献标题、摘要和全文进行筛选,最终纳入 6 篇文献^[9-14]。文献筛选流程见图 1。

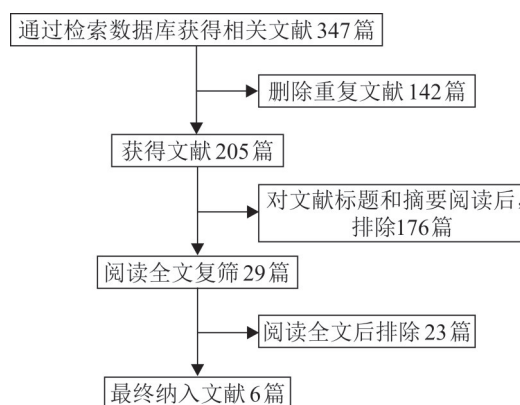


图 1 文献筛选流程图

Figure 1 Flow chart of literature screening

2.2 纳入文献的基本特征

纳入的 6 篇文献共包括研究对象 287 例,其中

干预组 148 例,对照组 139 例。纳入文献基本特征见表 1。

2.3 纳入文献偏倚风险评价

纳入文献存在潜在的偏倚风险。2 篇文献使用

了正确的随机方法,1 篇文献使用了错误的随机方法,3 篇文献未提及随机方法;6 篇文献均未提及关于分配隐藏的细节;3 篇文献未提及实施盲法。纳入文献的偏倚风险评价结果见表 2。

表 1 纳入文献的基本特征

Table 1 Basic characteristics of the included literature

纳入文献	国家	样本量 (干预组/对照组)	干预措施	对照措施	干预频次	干预效果
de Korte 等 ^[9] 2021 年	荷兰	22/22	PRT	常规治疗	共 20 周,每周 1 次,每次 45 min,	提高患儿一般社交技能,改善行为和情绪异常
Gengoux 等 ^[10] 2019 年	美国	23/20	PRT-P	DTG	前 12 周:家长每周 1 次,每次 60 min; 患儿每周 10 h 后 12 周:家长每月 1 次,每次 60 min; 患儿每周 5 h	提高患儿沟通能力
McDaniel 等 ^[11] 2020 年	美国	20/20	PRT-P	DTG	前 12 周:家长每周 1 次,家庭干预 每周 10 h 后 12 周:家长每月 1 次,家庭干预每 周 5 h	提高患儿言语沟通能力
van den Berk-Smeekens 等 ^[12] 2022 年	荷兰	25/23	PRT	常规治疗	共 20 周,每周 1 次,每次 45 min	提高患儿一般社会 交往能力
Mohammadzaheri 等 ^[13] 2022 年	伊朗	10/10	PRT	常规治疗	共 2 个月、24 次,每周 3 次,每次 1 h	提高沟通能力
陈玲芳等 ^[14] 2022 年	中国	48/44	PRT+视频反馈 法家长培训	PRT	共 8 周,每周 1 次,每次 1 h	对患儿个人与社会、听力和语言、手眼协调、视觉 领域具有积极影响

注:PRT,关键反应训练;PRT-P,关键反应训练方案,包括家长培训和临床医生提供的干预;DTG,延期治疗组

表 2 偏倚风险评价结果

Table 2 Risk of bias evaluation

纳入文献	随机序列的 产生	分配隐藏	对受试者和 试验人员施盲	对评估员 施盲	结果数据 的完整性	选择性报告 研究结果	其他偏倚 来源	质量等级
de Korte 等 ^[9] 2021 年	数字化程序	未提及	是	是	完整	否	无	A
Gengoux 等 ^[10] 2019 年	电子生成随机数	未提及	是	是	完整	否	无	A
McDaniel 等 ^[11] 2020 年	未提及	未提及	未提及	未提及	完整	否	无	B
van den Berk-Smeekens 等 ^[12] 2022 年	未提及	未提及	是	是	完整	否	无	B
Mohammadzaheri 等 ^[13] 2022 年	未提及	未提及	未提及	未提及	完整	否	无	B
陈玲芳等 ^[14] 2022 年	就诊顺序	未提及	未提及	未提及	完整	否	无	B

2.4 PRT 实施方案及干预效果概述

PRT 干预以培训和课程的形式进行,实施者主要为临床治疗师、家长和教师;干预周期 8~24 周,训练频率每周 1~3 次,每次 45~60 min^[9-14]。影响 ASD 患儿康复效果的主要因素包括干预频率、干预周期及家长的配合程度等。治疗后,ASD 患儿在社交行为、同伴交流、共同注意力、自我发起、言语、求助、提问等方面的能力有所改善^[15-20],对患儿一般社会交往能力和言语沟通能力的改善程度更明显。

2.5 PRT 在 ASD 患儿康复中的作用

2.5.1 改善一般社会交往能力

PRT 是基于 ABA、针对 ASD 患儿的一种干预方法^[21-22]。一般社会交往能力低下是 ASD 患儿的核
心症状之一,PRT 有助于改善这一核心症状^[23]。de Korte 等^[9]研究表明,与对照组相比,PRT 对改善 ASD 患儿一般社会交往能力的效果更好。陈玲芳等^[14]认为,PRT 联合视频反馈法家长培训更注重理论与实践的结合,视频案例讲解能更直观、快速地

帮助家长运用PRT策略,从而改善ASD患儿社交缺陷的核心症状。在另一项研究^[12]中,临床治疗师通过与ASD患儿互动并示范PRT方法,指导家长在亲子互动中练习PRT技术,并根据家长和患儿的特点制定针对性的PRT干预方案。干预后,采用儿童版社会反应量表(social responsiveness scale, SRS)对ASD患儿在自然环境中的一般社会交往能力进行评定,家长评分显示,患儿社会交往能力提高,但教师评分未显示出患儿社会交往能力提高,可能是因为教师评分的敏感性有限,且在学校实施的PRT课程较少^[12]。

2.5.2 改善言语沟通能力

Gengoux等^[10]将关键反应训练方案(pivotal response treatment package, PRT-P)应用于ASD患儿家长培训,并与临床治疗师提供的家庭治疗相结合,以改善低龄ASD患儿和存在严重语言障碍的ASD患儿的功能性沟通能力。陈玲芳等^[14]研究表明,接受PRT干预后,ASD患儿在语言领域的进步优于对照组,在该项研究中,干预组患儿的家长接受了PRT联合视频反馈法的培训,有助于提升ASD患儿的沟通能力。除了在家庭环境中应用PRT之外,在学校环境中实施PRT也同样重要,在教学活动中,通过“提问”的方式进行训练,对ASD患儿沟通能力的提高至关重要^[13]。“提问”的形式可提高ASD患儿的注意力^[25],并创造良好的语言交流环境,从而改善沟通能力^[26]。

2.6 PRT在ASD患儿康复中的必要性

ASD的高发病率揭示了选择有效治疗方法的必要性^[10]。PRT对ASD患儿康复治疗的效果主要表现在改善患儿一般社会交往能力和言语沟通能力^[27]。PRT具体措施包括多重线索的提示、共同注意力、轮流与示范、立即强化、穿插新旧技能、提供选择、自然强化以及强化尝试共八个方面^[28],强调动机的激发和家庭的参与,包括动机、对多重线索的反应、自我发起与自我管理四大关键领域^[29]。PRT通过结合操作性学习条件、激励性教学策略和患儿驱动的方法^[30],促进ASD患儿的康复,提高其在自然融合环境中的生活质量^[23]。Rezaei等^[31]研究表明,单用药物治疗可能对减少ASD患儿的言语交流障碍和社会问题的效果欠佳,但结合PRT则有助于改善ASD患儿的言语沟通能力,提高社交技能。

3 小结与展望

综上所述,PRT技术有助于改善ASD患儿言语沟通能力和一般社会交往缺陷的核心症状。本研究局限性:①纳入的文献较少,原始研究样本量较小,且无法提供足够的证据,影响检验效能;②纳入的文献存在潜在的偏倚风险,可能影响结果的可靠性;③纳入文献中,PRT干预时间为8~24周,干预频率和干预时间存在差异。受上述局限性的影响,未来需要开展更多大样本多中心的高质量研究,进一步验证PRT的实际效果。

参考文献

- [1] Lord C, Elsabbagh M, Baird G, et al. Autism spectrum disorder [J]. *Lancet*, 2018, 392(10146): 508-520.
- [2] 周荣易, 马丙祥, 周正, 等. 儿童孤独症谱系障碍180例中医证型分布及规律探讨[J]. *中国中医基础医学杂志*, 2021, 27(3): 476-479.
Zhou RY, Ma BX, Zhou Z, et al. Distribution and regularity of TCM syndrome types in 180 children with autism spectrum disorder [J]. *Journal of Basic Chinese Medicine*, 2021, 27(3): 476-479.
- [3] Varghese M, Keshav N, Jacot-Descombes S, et al. Autism spectrum disorder: neuropathology and animal models [J]. *Acta Neuropathol*, 2017, 134(4): 537-566.
- [4] Schreibman L, Dawson G, Stahmer AC, et al. Naturalistic developmental behavioral interventions: empirically validated treatments for autism spectrum disorder [J]. *J Autism Dev Disord*, 2015, 45(8): 2411-2428.
- [5] 汤新晶. 回合式教学联合关键反应训练在自闭症谱系障碍患儿中的应用效果[J]. *现代诊断与治疗*, 2020, 31(3): 491-493.
Tang XJ. The effect of reverberative teaching combined with critical response training in children with autism spectrum disorders [J]. *Modern Diagnosis and Treatment*, 2020, 31(3): 491-493.
- [6] Cadogan S, McCrimmon AW. Pivotal response treatment for children with autism spectrum disorder: a systematic review of research quality [J]. *Dev Neurorehabil*, 2015, 18(2): 137-144.
- [7] Suhrheinrich J. A sustainable model for training teachers to use pivotal response training [J]. *Autism*, 2015, 19(6): 713-723.
- [8] Higgins J, Thomas J, Chandler J, et al. *Cochrane handbook for systematic review of interventions* [M/OL]. <https://training.cochrane.org/handbook/current>, 2022-08-04.
- [9] de Korte MWP, van den Berk-Smeekens I, Buitelaar JK, et al. Pivotal response treatment for school-aged children and adolescents with autism spectrum disorder: a randomized controlled trial [J]. *J Autism Dev Disord*, 2021, 51(12): 4506-4519.
- [10] Gengoux GW, Abrams DA, Schuck R, et al. A pivotal response treatment package for children with autism spectrum disorder: an

- RCT[J]. *Pediatrics*, 2019, 144(3): e20190178.
- [11] McDaniel J, Yoder P, Crandall M, et al. Effects of pivotal response treatment on reciprocal vocal contingency in a randomized controlled trial of children with autism spectrum disorder[J]. *Autism*, 2020, 24(6): 1566-1571.
- [12] van den Berk-Smeekens I, de Korte MWP, van Dongen-Boomsma M, et al. Pivotal response treatment with and without robot-assistance for children with autism: a randomized controlled trial [J]. *Eur Child Adolesc Psychiatry*, 2022, 31(12): 1871-1883.
- [13] Mohammadzaheri F, Koegel LK, Bakhshi E, et al. The effect of teaching initiations on the communication of children with autism spectrum disorder: a randomized clinical trial[J]. *J Autism Dev Disord*, 2022, 52(6): 2598-2609.
- [14] 陈玲芳, 王慧, 李海峰, 等. 关键反应训练联合视频反馈法家长培训对孤独症谱系障碍儿童的疗效研究[J]. *中国康复医学杂志*, 2022, 37(8): 1073-1078.
- Chen LF, Wang H, Li HF, et al. A study on the efficacy of pivotal response treatment combined with video-feedback intervention of parent training on children with autism spectrum disorders[J]. *Chinese Journal of Rehabilitation Medicine*, 2022, 37(8): 1073-1078.
- [15] Duifhuis EA, den Boer JC, Doornbos A, et al. The effect of pivotal response treatment in children with autism spectrum disorders: a non-randomized study with a blinded outcome measure[J]. *J Autism Dev Disord*, 2017, 47(2): 231-242.
- [16] 连翔. 自闭症儿童语言障碍个案干预效果之比较分析: 基于关键反应训练(PRT)[J]. *陕西学前师范学院学报*, 2017, 33(4): 69-74.
- Lian X. Intervention effects comparison of language disorder in individual cases of children with autism: based on pivotal response training (PRT)[J]. *Journal of Shaanxi Xueqian Normal University*, 2017, 33(4): 69-74.
- [17] 王智, 田婧, 朱紫桥, 等. 关键反应训练对学龄前自闭症儿童社交领域的个案研究[J]. *河北能源职业技术学院学报*, 2019, 19(2): 21-25.
- Wang Z, Tian J, Zhu ZQ, et al. A case study of pivotal response treatment for the social field of pre-school autism children [J]. *Journal of Hebei Energy Institute of Vocation and Technology*, 2019, 19(2): 21-25.
- [18] 程志军. 关键反应训练对自闭症儿童社交技能的干预研究[D]. 杭州: 杭州师范大学, 2017.
- Cheng ZJ. Pivotal response treatment intervention study on social skills of children with autism [D]. Hangzhou: Hangzhou Normal University, 2017.
- [19] Verschuur R, Huskens B, Verhoeven L, et al. Increasing opportunities for question-asking in school-aged children with autism spectrum disorder: effectiveness of staff training in pivotal response treatment [J]. *J Autism Dev Disord*, 2017, 47(2): 490-505.
- [20] Brock ME, Dueker SA, Barczak MA. Brief report: improving social outcomes for students with autism at recess through peer-mediated pivotal response training [J]. *J Autism Dev Disord*, 2018, 48(6): 2224-2230.
- [21] Cadogan S, McCrimmon AW. Pivotal response treatment for children with autism spectrum disorder: a systematic review of research quality[J]. *Dev Neurorehabil*, 2015, 18(2): 137-144.
- [22] Lei J, Ventola P. Pivotal response treatment for autism spectrum disorder: current perspectives [J]. *Neuropsychiatr Dis Treat*, 2017, 13: 1613-1626.
- [23] 杜向阳, 赵慧, 肖慧, 等. 关键反应治疗干预孤独症谱系障碍的有效领域与途径[J]. *中国儿童保健杂志*, 2018, 26(3): 282-285.
- Du XY, Zhao H, Xiao H, et al. Effective domains and intervention routes of pivotal response treatment for autism spectrum disorder [J]. *Chinese Journal of Child Health Care*, 2018, 26(3): 282-285.
- [24] Bishop DV, Maybery M, Wong D, et al. Characteristics of the broader phenotype in autism: a study of siblings using the children's communication checklist-2 [J]. *Am J Med Genet B Neuropsychiatr Genet*, 2006, 141B(2): 117-122.
- [25] Ronfard S, Zambrana IM, Hermansen TK, et al. Question-asking in childhood: a review of the literature and a framework for understanding its development [J]. *Dev Rev*, 2018, 49(1): 101-120.
- [26] Mason RA, Gregori E, Wills HP, et al. Covert audio coaching to increase question asking by female college students with autism: proof of concept [J]. *J Dev Phys Disabil*, 2020, 32(1): 75-91.
- [27] Uljarević M, Billingham W, Cooper MN, et al. Examining effectiveness and predictors of treatment response of pivotal response treatment in autism: an umbrella review and a meta-analysis [J]. *Front Psychiatry*, 2022, 12: 766150.
- [28] Koegel L, Koegel R, Shoshan Y, et al. Pivotal response intervention II: preliminary long-term outcome data [J]. *The Journal of the Association for Persons with Severe Handicaps*, 1999, 24(3): 186-198.
- [29] 郝怡娜, 王树林. 关键反应训练法干预自闭症儿童主动提问技能的个案研究[J]. *保定学院学报*, 2020, 33(1): 103-110.
- Hao YN, Wang SL. Case study on pivotal response treatment intervention for the children with autism's asking questions initiatively [J]. *Journal of Baoding University*, 2020, 33(1): 103-110.
- [30] Vernon TW, Holden AN, Barrett AC, et al. A pilot randomized clinical trial of an enhanced pivotal response treatment approach for young children with autism: the PRISM model [J]. *J Autism Dev Disord*, 2019, 49(6): 2358-2373.
- [31] Rezaei M, Moradi A, Tehrani-Doost M, et al. Effects of combining medication and pivotal response treatment on aberrant behavior in children with autism spectrum disorder [J]. *Children (Basel)*, 2018, 5(2): 19.

(收稿日期: 2023-03-15)

(本文编辑: 陈霞)