



Universitat Autònoma de Barcelona

ADVERTIMENT. L'accés als continguts d'aquesta tesi queda condicionat a l'acceptació de les condicions d'ús establertes per la següent llicència Creative Commons:  http://cat.creativecommons.org/?page_id=184

ADVERTENCIA. El acceso a los contenidos de esta tesis queda condicionado a la aceptación de las condiciones de uso establecidas por la siguiente licencia Creative Commons:  <http://es.creativecommons.org/blog/licencias/>

WARNING. The access to the contents of this doctoral thesis it is limited to the acceptance of the use conditions set by the following Creative Commons license:  <https://creativecommons.org/licenses/?lang=en>



Universitat Autònoma de Barcelona

Departament de Psiquiatria i Medicina Legal

Doctorat en Psiquiatria

AISLAMIENTO SOCIAL

CARACTERIZACIÓN CLÍNICA, SOCIODEMOGRÁFICA,
TERAPÉUTICA Y FAMILIAR EN UNA MUESTRA DE SUJETOS
ATENDIDOS POR UN EQUIPO DE ATENCIÓN DOMICILIARIA
ESPECIALIZADO EN PSIQUIATRÍA

Tesis Doctoral presentada por

M. Ángeles Malagón Amor

para obtener el grado de Doctora en Psiquiatria

por la Universitat Autònoma de Barcelona

DIRECTOR Y TUTOR: Dr. Daniel Bergé Baquero

DIRECTOR: Dr. Luis Miguel Martín López

Barcelona, 2020



**Departament de Psiquiatria
i Medicina Legal UAB**



El Dr. Daniel Bergé Baquero (Doctor en Psiquiatría)
y el Dr. Luis Miguel Martín López (Doctor en Psiquiatría)

declaran y confirman que han supervisado la Tesis Doctoral titulada:

AISLAMIENTO SOCIAL
CARACTERIZACIÓN CLÍNICA, SOCIODEMOGRÁFICA,
TERAPÉUTICA Y FAMILIAR EN UNA MUESTRA DE SUJETOS
ATENDIDOS POR UN EQUIPO DE ATENCIÓN DOMICILIARIA
ESPECIALIZADO EN PSIQUIATRÍA

Realizada por

M. Ángeles Malagón Amor

y consideran que es apta para su lectura y defensa pública para optar al grado de Doctora en Psiquiatría por la Universitat Autònoma de Barcelona.

Firmas,

Dr. Daniel Bergé Baquero

Dr. Luis Miquel Martín López

Barcelona, 2020

A mi familia

*"It might be lonelier
Without the Loneliness—
I'm so accustomed to my Fate—
Perhaps the Other—Peace—
Would interrupt the Dark—
And crowd the little Room—..."*

Emily Dickinson, It might be lonelier

*"You may not control all the events that happen to you, but you can decide not to be reduced by them.
Try to be a rainbow in someone's cloud."*

Maya Angelou, Letter to my daughter

"Nadie dijo que fuera fácil"

Ray Loriga, Héroes

AGRADECIMIENTOS

Si la tesis es un reto y un gran esfuerzo, escribir los agradecimientos no lo es menos. Son muchas las personas gracias a las cuales he conseguido llegar hasta aquí, y no quiero olvidar a nadie.

En primer lugar, a mis dos directores de tesis. Daniel Bergé, que ha estado siempre a mi lado y sin el que, sin duda, no habría podido realizar este proyecto. Dani, gracias por toda tu ayuda y acompañamiento durante todo el proceso. Gracias Luis Miguel Martín, siempre atento y disponible, facilitando y ayudando en todo lo que está en tu mano. Mil gracias.

A mis compañeros del EMSE, sin vosotros no hubiera podido visitar ni tratar a todos los pacientes aislados en sus casas. David Córcoles, gracias por tu ayuda durante todos estos años, por crear la gran base de datos en la que se fraguó este estudio, y por tu apoyo al iniciar este trabajo. Anna y Magda, gracias por vuestra ayuda, tanto en los domicilios con los pacientes, como completando los datos y escalas. Pero, sobre todo, gracias por las risas, la complicidad, el apoyo y la amistad. Gracias a todos vosotros recordaré siempre mi estancia tan feliz en el EMSE.

Gracias al Dr. Antoni Bulbena, que me ha orientado y ayudado en todo el proceso del doctorado. Pero no sólo por eso, ya que he tenido el privilegio de conocerle desde mis inicios como residente de psiquiatría en el IMPU, y he podido aprender tanto de él y recibir su ayuda durante todos estos años. Muchas gracias.

Gracias al Dr. Víctor Pérez, que en la nueva etapa del INAD me ha ofrecido siempre su ánimo, orientación y ayuda en todo lo que he necesitado, que no ha sido poco. Muchísimas gracias.

Gracias a todos los compañeros del Parc de Salut Mar que me han acompañado desde que empecé como residente en 2004. De todos vosotros he aprendido todo lo que sé de psiquiatría. Desde los inicios en el IMPU, siendo residente, hasta el Hospital del Mar, pasando por el Fòrum, he conocido personas maravillosas que me han enseñado, acompañado y ayudado en todo el proceso. Gracias a todos.

Por supuesto, gracias a mis pacientes aislados, sin ellos este estudio no se podría haber realizado. En algunos casos, conseguí ayudarles a salir de su aislamiento. En otros, no tanto. Espero que gracias a este estudio sea un poco más fácil entenderlos y ayudarlos.

Gracias a todas mis amigas y amigos, que, en cada etapa de mi vida, me han acompañado y ayudado a llegar hasta aquí. Y muy especialmente a Betina, Delia, Mery, Claustre y Rubén.

Gracias a mi familia. A mis padres, y en especial mi madre, que desde pequeña me enseñó la importancia del esfuerzo y el trabajo, y gracias a ella, a su esfuerzo y apoyo incondicional, he

conseguido llegar hasta aquí. Gracias, mamá, esta tesis ha sido gracias a ti y te la dedico especialmente. Gracias a mi hermano, a quien siempre he admirado, y quien, desde que era pequeña, siempre me ha ayudado y ha creído en mí, me ha brindado todo su apoyo, desde ayudarme con el MIR, a acompañarme en mi primer viaje a estudiar a Barcelona. Gracias por todo.

Por supuesto, gracias a mis hijos: Gala, Otto y Maya, y a mi estrella. Todos vosotros habéis convivido conmigo durante la realización de esta tesis, que me ha robado muchos momentos de disfrutar de vosotros, y me preguntabais “¿Estás haciendo la tesis otra vez, mamá?”. Y muchos otros momentos la he redactado con vosotros a mi lado, en plena noche, dormidos junto a mí mientras intentaba concentrarme y escribirla. Gracias por la paciencia y amor incondicional. Gracias, mis niños, por hacerme mejor persona. Este trabajo está dedicado a vosotros.

Y, sobretodo, gracias a David, mi amor, mi compañero. Gracias por hacerme feliz, por tu apoyo incondicional, por tu comprensión, paciencia, ánimo y ayuda. Nadie dijo que fuera fácil, pero a tu lado, ha sido posible. Todo. Gracias.

ÍNDICE

AGRADECIMIENTOS.....	9
PRÓLOGO	13
ABREVIATURAS.....	17
1 RESUMEN	19
2 INTRODUCCIÓN.....	23
2.1 Aislamiento social.....	25
2.1.1 Definición de aislamiento social en salud mental.....	26
2.2 Hikikomori.....	28
2.2.1 Historia.....	28
2.2.2 Definición.....	29
2.2.3 Epidemiología.....	36
2.2.4 Etiología.....	37
2.3 Aislamiento social y patología comórbida.....	42
2.4 Aislamiento social en otras culturas.....	47
2.5 Aislamiento social en nuestra sociedad.....	48
2.6 Equipo de atención domiciliar especializada: EMSE.....	48
2.7 Abordaje terapéutico del aislamiento social.....	50
2.7.1 Soporte familiar.....	50
2.7.2 Equipos domiciliarios especializados.....	51
2.7.3 Evaluación específica.....	52
2.7.4 Enfoque terapéutico.....	53
2.7.5 Psicoterapia.....	54
2.7.6 Farmacoterapia.....	54
2.7.7 Tratamiento online.....	54
2.7.8 Tratamiento biológico.....	55
3 JUSTIFICACIÓN DEL ESTUDIO.....	57
4 OBJETIVOS E HIPÓTESIS.....	61
5 MATERIAL Y MÉTODO.....	65
5.1 Participantes.....	68
5.2 Procedimiento.....	69
5.3 Análisis estadístico.....	71

5.4	Declaración de Ética.....	73
6	RESULTADOS.....	75
6.1	Primer estudio.....	77
6.2	Segundo estudio.....	97
6.3	Tercer estudio.....	119
7	DISCUSIÓN.....	131
7.1	Caracterización sociodemográfica y clínica del aislamiento social.....	133
7.2	Determinación de la naturaleza sindrómica del aislamiento social.....	137
7.3	Subtipos de aislamiento social.....	140
7.3.1	Subtipos en función de la patología comórbida.....	141
7.3.2	Subtipos en función de la edad.....	142
7.3.3	Subtipos en función de la colaboración con el tratamiento.....	143
7.3.4	Subtipos en función del tiempo de aislamiento.....	144
7.4	Evolución y respuesta al tratamiento a largo plazo.....	144
7.5	Factores familiares del aislamiento social.....	146
7.5.1	Antecedentes psiquiátricos familiares.....	147
7.5.2	Dinámicas familiares disfuncionales.....	148
7.5.3	Antecedentes de maltrato en la infancia.....	149
7.5.4	Familias monoparentales.....	150
7.6	Fortalezas y limitaciones.....	151
7.7	Aportaciones y futuras líneas de investigación.....	152
8	CONCLUSIONES.....	155
8.1	Caracterización sociodemográfica y clínica del aislamiento social.....	157
8.2	Determinación de la naturaleza sindrómica del aislamiento social.....	158
8.3	Subtipos de aislamiento social.....	159
8.4	Evolución y respuesta al tratamiento a largo plazo.....	160
8.5	Factores familiares relacionados con el aislamiento social.....	161
9	BIBLIOGRAFÍA.....	163
10	ANEXO.....	183

PRÓLOGO

PRÓLOGO

Este trabajo de Tesis se presenta para obtener el título de Doctora en Psiquiatría por la Universitat Autònoma de Barcelona. Es el resultado del trabajo realizado durante los años 2008 y 2016 como médico psiquiatra adjunto en el Equipo Multidisciplinar de Soporte Especializado (EMSE) del Institut de Neuropsiquiatria i Addiccions del Parc de Salut Mar en Barcelona.

Este trabajo se presenta como compendio de publicaciones, formada por tres artículos publicados en revistas internacionales indexadas y con factor de impacto. Además, se adjunta en el anexo un artículo publicado previamente, que fue el origen del desarrollo de la investigación.

Publicaciones:

1. Malagón-Amor, Á., Córcoles-Martínez, D., Martín-López, L. M., & Pérez-Solà, V. (2015). *Hikikomori* in Spain: A descriptive study. *The International Journal of Social Psychiatry*, 61(5), 475–483.

<https://doi.org/10.1177/0020764014553003>

2. Malagón-Amor, Á., Martín-López, L. M., Córcoles, D., González, A., Bellsolà, M., Teo, A. R., Pérez, V., Bulbena, A., & Bergé, D. (2018). A 12-month study of the *hikikomori* syndrome of social withdrawal: Clinical characterization and different subtypes proposal. *Psychiatry Research*, 270(December 2018), 1039–1046.

<https://doi.org/10.1016/j.psychres.2018.03.060>

3. Malagón-Amor, Á., Martín-López, L. M., Córcoles, D., González, A., Bellsolà, M., Teo, A. R., Pérez, V., Bulbena, A., & Bergé, D. (2020). Family features of Social Withdrawal Syndrome (*Hikikomori*). *Front. Psychiatry* 11:138.

<https://doi.org/10.3389/fpsy.2020.00138>

Artículo anexo:

Malagón, A., Alvaro, P., Córcoles, D., Martín-López, L. M., & Bulbena, A. (2010). “*Hikikomori*”: a New Diagnosis or a Syndrome Associated With a Psychiatric Diagnosis? *The International Journal of Social Psychiatry*, 56(5), 558–559.

<https://doi.org/10.1177/0020764009376612>

Además de las publicaciones, los resultados del trabajo se han expuesto en diferentes congresos nacionales e internacionales en forma de pósters y comunicaciones orales.

Presentación de pósters:

1. *Hikikomori* in Spain: a descriptive study. Preliminary data. Malagón A, Córcoles D, Moreno J, Sabate A, Bergé D, Martín LM, Pérez V. XVI World Congress of Psychiatry. Madrid, 2014.
2. *Hikikomori* en Barcelona: estudio descriptivo. Malagón A, Córcoles D, León J, Chavarría V, Bergé D, González A, Bellsolá M, Martín LM, Bulbena A, Pérez V. Jornada de Cloenda del curs 2014-2015 de la Societat Catalana de Psiquiatria i Salut Mental. Barcelona, 2015.
3. *Hikikomori* y adicción a internet. Malagón A, Córcoles D, León J, Chavarría V, Bergé D, González A, Bellsolá M, Martín LM, Bulbena A, Pérez V. XIII Congreso Nacional de Psiquiatria. Santiago de Compostela, 2015.
4. Social withdrawal and suicide risk. Malagón A, Córcoles D, Pérez E, Mollà L, Bergé D, González A, Bellsolá M, Martín LM, Bulbena A, Pérez V. 24th European Congress of Psychiatry. Madrid, 2016.

Presentaciones orales:

1. *Hikikomori* en Barcelona: estudio descriptivo. Malagón A, Córcoles D, León J, Chavarría V, Bergé D, González A, Bellsolá M, Martín LM, Bulbena A, Pérez V. Ponencia en la Jornada de Cloenda del curs 2014-2015 de la Societat Catalana de Psiquiatria i Salut Mental. Barcelona, 2015.

ABREVIATURAS

AVAT	Assault and Violence Assessment Tool
CRHT	Crisis Resolution Home Treatment
DSM-IV-TR	Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders, 4ª versión Revisada
EEAG	Escala de Evaluación de Actividad Global
EMSE	Equipo Multidisciplinar de Soporte Especializado
GAF	Global Assessment of Functioning scale
GEP	Escala de Gravedad de la Enfermedad Psiquiátrica
ICG	Escala de Impresión Clínica Global
OAS	Overt Aggression Scale
SPI	Severity of Psychiatric Illness
SUMD	Scale of Unawareness of Mental Disorder
WHO/DAS	WHO Psychiatric Disability Assessment Schedule

1 RESUMEN

1 RESUMEN

El aislamiento social es un fenómeno cada vez más prevalente. A pesar de que muchos países han alertado de que nos estamos enfrentando a una epidemia, y de que existen pruebas sólidas que demuestran que es un factor de riesgo de mortalidad similar a otros bien documentados, como el tabaquismo o la hipertensión arterial, su investigación ha sido muy escasa. La descripción del fenómeno de aislamiento social *hikikomori* en Japón alertó de su existencia y necesidad de estudio en psiquiatría. Pero no ha habido consenso en su definición, criterios diagnósticos y características clínicas esenciales. Está en debate si es un nuevo trastorno mental, un síndrome ligado a la cultura japonesa o si simplemente estos casos podrían recibir un diagnóstico de trastorno mental conocido. Existen lagunas de conocimiento importantes sobre su prevalencia, curso evolutivo, patología comórbida, causas y tratamiento. La descripción de casos de aislamiento en otras culturas muestra la importancia de su investigación internacional.

Esta Tesis nace de la experiencia pionera del Equipo Multidisciplinar de Soporte Especializado (EMSE) de Barcelona en la atención domiciliar especializada en psiquiatría. Ante la elevada frecuencia de casos, dificultad de tratamiento y escasa evidencia científica, surge este trabajo, cuyo objetivo es el análisis de las características sociodemográficas, clínicas y de respuesta terapéutica del aislamiento social en nuestra sociedad, así como los posibles subtipos y factores familiares asociados.

La **primera fase**, correspondiente al análisis de las características clínicas, sociodemográficas y de manejo terapéutico de los sujetos atendidos en domicilio por el EMSE, ha supuesto el primer estudio occidental publicado sobre una amplia muestra de casos. Los resultados muestran que el aislamiento social existe en nuestra sociedad y es equiparable al *hikikomori*, aportando más evidencia para consensuar su definición y criterios diagnósticos. Coincidiendo con estudios japoneses, es más frecuente en hombres adultos jóvenes, que conviven con su familia, con una duración muy variable, elevada gravedad clínica y escasa colaboración. Mayoritariamente asociado a patología comórbida, apoya la teoría de que constituye un síndrome grave común a diferentes trastornos mentales, siendo los más frecuentes los afectivos, de ansiedad y psicóticos.

La **segunda fase** consiste en el análisis de la evolución clínica y terapéutica de los pacientes tratados por el EMSE tras ser vinculados a la red de salud mental, y una propuesta de división en diferentes subtipos en función de las variables comorbilidad, colaboración, tiempo de evolución y edad, que permitan personalizar el tratamiento en función de las necesidades y la evolución. Los resultados muestran una tendencia global al empeoramiento y desvinculación a 12 meses, asociándose la hospitalización con mejor evolución, incluso con características basales más desfavorables. Las variables comorbilidad y colaboración se asocian a características diferenciales basales y de evolución,

en función de las cuales puede subdividirse en subtipos el aislamiento social. Así, el subtipo con trastornos de ansiedad y/o afectivos presenta características basales más favorables, siendo derivados más frecuentemente a seguimiento ambulatorio convencional. Sin embargo, la evolución es peor, con mayor desvinculación y empeoramiento clínico al año. El subtipo con menor colaboración presenta características diferenciales desfavorables: peor red social, mayor gravedad y necesidad de hospitalización. En consecuencia, estos resultados plantean la idoneidad de desarrollar un plan terapéutico diferencial según características basales: intervención no hospitalaria y mayor esfuerzo terapéutico de moderada intensidad a largo plazo en el subgrupo de ansiedad-afectivos, y, por contra, intervención hospitalaria inicial que posibilite estrategias centradas en el vínculo terapéutico, conciencia de trastorno y necesidad de tratamiento en el subgrupo con menor colaboración.

La *tercera fase* analiza los factores familiares relacionados con el aislamiento social, evidenciando elevada frecuencia de factores familiares negativos (antecedentes psiquiátricos familiares, dinámicas familiares disfuncionales y maltrato infantil), estando todos ellos altamente interrelacionados y a su vez, relacionados con la gravedad del aislamiento. Este hecho sugiere que los programas comunitarios dirigidos al aislamiento social deberían ser diseñados para detectar y evaluar cada uno de esos factores, y las intervenciones familiares se beneficiarían de ser globales, actuando sobre todos estos factores.

El presente trabajo de Tesis Doctoral concluye que el síndrome de aislamiento social en nuestro entorno es equiparable al *hikikomori*, presentándose mayoritariamente asociado a patología comórbida. Factores como la colaboración inicial o la presencia de trastornos de ansiedad y/o afectivos influyen en su curso evolutivo, sugiriendo la necesidad de protocolos de intervención diferentes. Presenta una asociación clara con factores familiares, sobre los que poder dirigir intervenciones comunitarias preventivas y programas psicoeducativos y de soporte familiar.

2 INTRODUCCIÓN

2 INTRODUCCIÓN

2.1 Aislamiento social

El aislamiento social es un problema de salud que está cobrando importancia en los últimos años. Investigaciones previas han relacionado el aislamiento social con elevado riesgo para la salud (Cornwell & Waite, 2009; Leigh-Hunt et al., 2017; Pantell et al., 2013; Umberson & Montez, 2010), habiéndose descrito que el papel del aislamiento social como predictor de mortalidad es similar al de factores de riesgo clínicos bien documentados, como el tabaquismo o la hipertensión arterial (Pantell et al., 2013). Así, se ha relacionado el aislamiento social con mayores tasas de mortalidad y morbilidad (Brummett et al., 2001; Holt-Lunstad et al., 2010; Pantell et al., 2013; Seeman, 2000; Steptoe et al., 2013; Uchino et al., 1996), infecciones (Cohen et al., 1997; Pressman et al., 2005), enfermedades cardiovasculares (Leigh-Hunt et al., 2017; Valtorta et al., 2016) inflamación crónica (Yang et al., 2013) y deterioro cognitivo (Cacioppo & Hawkley, 2003; Ertel et al., 2008; Evans et al., 2018; Fratiglioni et al., 2000; House et al., 1988; Shankar et al., 2013). Sin embargo, en comparación con factores como el tabaquismo y la obesidad, se sabe mucho menos acerca de cómo y por qué el aislamiento social afecta a la salud (Cacioppo & Hawkley, 2003; House et al., 1988). Los pocos estudios sobre aislamiento social que existen están centrados en población anciana con patología médica comórbida (Dury, 2014; Freedman & Nicolle, 2020; Holwerda et al., 2012; Malcolm et al., 2019; Nicholson, 2009).

En el ámbito de la psiquiatría, existe un vacío en la investigación sobre el fenómeno del aislamiento social. La mayoría de los estudios combinan conceptos como sentimientos de soledad, red social, apoyo social percibido, sin delimitar ni centrarse únicamente en el aislamiento social como tal. Se ha descrito que, en los usuarios de servicios de salud mental, los sentimientos de soledad son mayores y el tamaño de la red social es menor que en la población general (Borge et al., 1999; Clinton et al., 1998; Lauder et al., 2004; Palumbo et al., 2015; Wang et al., 2017). En personas con trastornos mentales severos, el aislamiento social se ha asociado a niveles mayores de delirios (Garety et al., 2001), escasa conciencia de enfermedad (White et al., 2000), y tasas mayores de hospitalización (Mgutshini, 2010).

El estudio del aislamiento social en salud mental se ha circunscrito mayoritariamente al ámbito de la sintomatología negativa presente en la esquizofrenia (Badcock et al., 2015; Burns & Patrick, 2007; Green et al., 2018; Pelletier-Baldelli et al., 2015; Wilson & Koenig, 2014). Se ha descrito la necesidad de detectar y tratar la sintomatología negativa, que incluye aislamiento social, mediante formación en habilidades sociales, terapia cognitivo-conductual e intervención familiar, objetivándose hallazgos positivos, sobre todo, en el tratamiento centrado en el entrenamiento de las habilidades sociales (Aleman et al., 2016). Otros estudios han destacado el papel de la red social y los sentimientos de

soledad y de pertenencia en la gravedad y pronóstico de trastornos tales como depresión, trastorno bipolar y trastornos de ansiedad (van den Brink et al., 2018; Wang et al., 2018).

El aislamiento social se ha relacionado con un elevado riesgo para la salud, mayores tasas de mortalidad y morbilidad, enfermedades cardiovasculares, infecciosas y neurológicas. Es escasa la evidencia científica sobre este fenómeno, y aún más en el ámbito de la salud mental, lo que pone de relieve la necesidad de ampliar la investigación sobre el aislamiento social.

2.1.1 Definición de aislamiento social en salud mental

Existe controversia sobre la definición del aislamiento social desde las diferentes disciplinas de estudio, tales como sociología o salud mental (Cornwell & Waite, 2009; Zavaleta et al., 2014). En psiquiatría, se han utilizado numerosas definiciones con escasa uniformidad, consistencia y claridad (Nicholson, 2009; Wang et al., 2017). Por ello, recientemente se ha destacado la necesidad del desarrollo de un concepto común de aislamiento social, y la construcción de indicadores básicos, comparables internacionalmente, que midan sus aspectos específicos (Wang et al., 2017; Zavaleta et al., 2014). Una de las definiciones tradicionalmente más aceptada sería aquella que describe la conducta de aislamiento como "un estado en el cual el individuo carece de un sentido de pertenencia social, carece de compromiso con los demás, tiene un número mínimo de contactos sociales y que son deficientes en el cumplimiento y la calidad de las relaciones" (Nicholson, 2009). Una posterior investigación ha aportado una nueva definición: "una inadecuada cualidad y cantidad de relaciones sociales con otras personas a nivel individual, grupal, comunitario y del entorno social más amplio donde se produce la interacción humana" (Zavaleta et al., 2014).

Recientemente, Wang y colaboradores han realizado una revisión, en la que proponen cinco dominios conceptuales, que serían lo suficientemente completos para abarcar todos los elementos de las conceptualizaciones actuales (Wang et al., 2017):

1. **Red social - cantidad:** cantidad de contacto social (por ejemplo, número de personas en la red social, número o frecuencia de contactos durante un periodo de tiempo).
2. **Red social - estructura:** se refiere a las características de los contactos sociales, que no implican una evaluación de la calidad de la relación. Por ejemplo, densidad de la red (cuántas personas en la red social de una persona también se conocen entre sí) y las características de los contactos sociales de una persona (por ejemplo, cuántas son parientes, colegas, personal de salud mental o usuarios de servicios de salud mental).

3. **Red social - calidad:** se refiere a la calidad percibida de las relaciones. Este dominio incluye medidas de la calidad de las relaciones importantes específicas (por ejemplo, pareja y padres). También incluye medidas de información cualitativa sobre todos los contactos sociales individuales de alguien (por ejemplo, la calificación de cuántos de los contactos sociales de alguien son amigos, en cuántos se pueden confiar y cuántos se perderían).
4. **Valoración de las relaciones - emocional:** se refiere a la evaluación general de la conformidad o el impacto de las relaciones percibida. Por ejemplo, la soledad o el apoyo social y emocional, la vivencia egosintónica o egodistónica de la conducta de aislamiento (Baek, 2014). Este dominio no se relaciona directamente, ni se mide, con el número o la calidad de las relaciones individuales específicas.
5. **Valoración de las relaciones - recursos:** se refiere al acceso general percibido a los recursos de las relaciones sociales de alguien. Por ejemplo, apoyo social tangible.

Esta definición y descripción de cinco componentes es particularmente útil porque abarca todas las áreas posibles del aislamiento social, permitiendo a nivel de investigación e intervención identificar con precisión los resultados esperados de las intervenciones y elegir las medidas más adecuadas para usar en entornos de salud mental.

Es también interesante la diferenciación entre **aislamiento social egosintónico y egodistónico** (Baek, 2014). En el primer caso, la persona no tiene interés en el mundo exterior ni en interactuar con los demás, conformándose únicamente con su propio mundo interno. En el momento en que la persona aislada trata de salir del aislamiento y no se siente cómoda con la situación, se trataría de un aislamiento social egodistónico. Este tipo de aislamiento puede dividirse en dos tipos: 1) aquel aislamiento debido a circunstancias externas a la persona, como por ejemplo ante marginación o abuso y 2) aislamiento debido a circunstancias internas, tales como enfermedades mentales, que impiden un funcionamiento social adecuado y relegan al aislamiento social del que la persona quiere salir, sin conseguirlo (Baek, 2014).

No existe un consenso amplio en la definición y características esenciales del aislamiento social en salud mental. La descripción del *hikikomori* en los últimos años en Japón ha puesto en relieve la importancia del estudio del fenómeno de aislamiento social en psiquiatría, aportando más evidencia científica sobre este fenómeno, aunque aún con muchas lagunas en su conocimiento, como veremos a continuación.

2.2 Hikikomori

2.2.1 Historia

El primer estudio conocido que sugería una nueva condición psiquiátrica caracterizada por aislamiento social en Japón data de 1978, cuando Kasahara describió casos de “aislamiento neurótico” o *taikyaku shinkeishou* (Hirashima, 2001; Kasahara, 1978; Ushijima & Sato, 1997). Este concepto no fue ampliamente aceptado, cayendo en desuso, y no fue hasta finales de los años 80 e inicio de los años 90, en que un número cada vez mayor de estudios en la literatura psiquiátrica comenzó a utilizar el término *hikikomori* para describir casos de jóvenes que se aislaban en sus habitaciones. Desde entonces, ha sido traducido como “síndrome de aislamiento social” (Takahata, 2003) o simplemente “aislamiento social” (Kobayashi et al., 2003; Kuramoto, 2003). El uso de este término se extendió en Japón, utilizándose como un nombre para describir tanto la patología como el propio paciente, tal como se utiliza “esquizofrénico” o “alcohólico” en español. En 2008 se realizó una revisión sociológica del término (Furlong, 2008), pero no fue hasta 2010 en que Teo (Teo, 2010) realiza una primera revisión psiquiátrica profesional en la literatura médica inglesa. En contraste, los medios de comunicación ya habían iniciado años antes una investigación sobre el *hikikomori*. Fueron los primeros en llamar la atención en 1998, cuando un famoso psiquiatra japonés escribió un libro éxito de ventas que llevaba la palabra *hikikomori* en su título, asegurando simultáneamente su lugar en el léxico (T. Saito, 1998). A su vez, la red nacional de radiodifusión japonesa NHK llevó a cabo una campaña de tres años, entre 2002 y 2005, para llamar la atención sobre los *hikikomori* (Kaneko, 2006). El autor, internacionalmente aclamado, Ryu Murakami colocó un *hikikomori* como la figura central en una de sus novelas (Murakami, 2000). Incluso la revista New York Times publicó en 2006 un reportaje sobre estas personas dedicadas a "encerrarse" (Jones, 2006). Además, ha crecido una industria alrededor del fenómeno, en gran medida dirigida a los padres de *hikikomori*. Está compuesta por grupos de apoyo, autoproclamados especialistas (en su mayoría psicólogos y consejeros), campos de inmersión y libros que profesan estrategias exitosas para salir del aislamiento. Es un fenómeno que genera gran interés en los medios de comunicación y alerta en la opinión pública. En los últimos años, a raíz de la descripción de casos en otros países y culturas, también los medios de comunicación de dichos lugares se han hecho eco del fenómeno. Y es gracias a la descripción de este fenómeno en Japón, y posteriormente en otros países, que se ha profundizado más en el estudio del aislamiento social en salud mental en los últimos años.

2.2.2 Definición

La palabra en japonés '*bikikomori*' ha sido utilizada durante mucho tiempo en su forma verbal '*bikikomoru*' dentro de la sociedad japonesa. '*Hikikomori*' es un verbo compuesto formado por dos caracteres: 'tirar hacia atrás (*biku*)' y 'aislarse uno mismo (*komoru*)'. El “síndrome de *bikikomori*”, fue inicialmente definido por Tamaki Saito (T. Saito, 1998) como “aquellos que se aíslan completamente de la sociedad, y están en su casa durante más de seis meses, con inicio en la segunda mitad de la veintena, y en los que otros trastornos psiquiátricos no explican mejor las principales causas de esta condición”.

Desde entonces, la palabra *bikikomori* se ha utilizado ampliamente en Japón. Aunque inicialmente se describió como un fenómeno único de dicha cultura, recientemente se han descrito casos similares en muchos otros países, y han sido ampliamente divulgados en los medios internacionales (Borovoy, 2008; Chauliac et al., 2017; Domingues-Castro & Torres, 2018; Frankova, 2017; Furlong, 2008; García-Campayo et al., 2007; Gariup et al., 2008; Gondim et al., 2017; Krieg & Dickie, 2013; Nagata et al., 2013; Sakamoto et al., 2005; Tateno et al., 2012; Teo, 2013; Umeda et al., 2012; Watts, 2002; Wu et al., 2019; Zielenziger, 2006). De este modo, gracias a la descripción del *bikikomori* en Japón, y posteriormente en otros países, se ha comenzado a investigar el aislamiento social en salud mental. Pero gran parte de esta atención se ha producido sin un debate a fondo sobre su definición precisa (Kato et al., 2012; Teo, 2010; Teo & Gaw, 2010), empleando diferentes criterios diagnósticos y términos, tales como “youth social withdrawal behaviour” (Li & Wong, 2015a), “pathological social withdrawal” (Li & Wong, 2015b), “severe social withdrawal” (Hayakawa et al., 2018; P. W. C. Wong et al., 2015; P. W. C. Wong, Liu, et al., 2017), o “prolonged social withdrawal disorder” (Ovejero et al., 2014). Es importante destacar que una de las dudas planteadas en estas investigaciones es si el *bikikomori* sería equivalente a la conducta de aislamiento social observada en otras culturas.

La primera guía sobre *bikikomori* publicada por el Ministerio de Sanidad, Trabajo y Bienestar (MHLW) de Japón en 2003 (organizada por J. Ito) no definió claramente sus características (Ito, 2003). En ella se describió una variedad de causas que pueden llevar a una persona a aislarse de la sociedad, sin ser propuesto como un diagnóstico médico, y destacando que:

“en realidad, algunos individuos que cumplen los criterios de *bikikomori* pueden tener varios tipos de enfermedades y condiciones. En otras palabras, puede decirse que el motivo concreto de una persona para aislarse no es tan significativo. Más bien, lo que es importante tener en cuenta de manera realista es que: 1) una variedad de personas, como reacción al estrés, pueden presentar una “condición de *bikikomori*”; 2) a parte de la existencia o inexistencia de enfermedad mental en sentido estricto, el hecho notable es que el aislamiento es prolongado; y 3) una característica general del *bikikomori* es que a menudo es necesario

iniciar algún tipo de ayuda, incluso antes de comprender la naturaleza detallada del individuo y su estado psicológico” (Ito, 2003).

En la guía realizada por el MHLW en 2010 (organizada por K. Saito), la definición de *bikikomori* propuesta fue:

“como resultado de varios factores, el retiro de la participación social (la escolarización, incluida la educación obligatoria; el empleo, incluyendo trabajos a tiempo parcial; y otras interacciones fuera del hogar), durante un periodo de más de 6 meses (esto puede incluir situaciones de salida del hogar, pero evitando interacciones con otros). En general, se considera que el *bikikomori* es un fenómeno no psicótico que se distingue del estado de aislamiento asociado a síntomas positivos o negativos de la esquizofrenia, pero se debe tener en cuenta que no es improbable que en realidad esté relacionado con esquizofrenia prodrómica subyacente” (K. Saito, 2010a).

En 2010, el Diccionario de Oxford publicó una nueva entrada para la palabra '*bikikomori*', destacando su presencia y aceptación fuera de un contexto puramente japonés. La definición del diccionario de Oxford es: "(en Japón) la evitación anormal del contacto social, típicamente por los varones adolescentes".

Posteriormente, en 2014, Teo y colaboradores (Teo, Fetters, et al., 2015; Teo, Stufflebam, et al., 2015) propusieron los siguientes criterios diagnósticos:

- A. Aislamiento físico:** Pasar la mayor parte del día y casi todos los días en el hogar;
- B. Evitación de la participación social:** Evitar las situaciones sociales, tales como asistir a la escuela o ir a un lugar de trabajo;
- C. Evitación de las relaciones sociales:** Evitar las relaciones sociales, como amistades o contactos con miembros de la familia;
- D. Malestar o deterioro significativo** debido a aislamiento social.
- E. Duración mínima de 6 meses.**

Recientemente, Kato, Teo y colaboradores (Kato et al., 2019) han realizado una exhaustiva revisión sobre la definición y los criterios diagnósticos de *bikikomori*, proponiendo una nueva definición más completa con nuevos factores y consideraciones a tener en cuenta (Tabla 1):

- A.** En relación al primer criterio de **aislamiento físico**, destacan que, aunque los casos más severos de *bikikomori* no abandonan nunca el domicilio, otros casos leves o moderados pueden salir del hogar ocasionalmente. Incluso, algunos casos pueden no salir nunca durante

el día, pero sí que lo hacen durante la noche cuando hay poca gente por la calle. Además, destacan que, dado el fenómeno del uso de internet cada vez más global, es necesario reconsiderar en qué constituye el aislamiento social, dado que muchas personas pueden estudiar y trabajar a través de internet sin necesidad de salir de sus casas, viviendo en una condición *bikikomori-like*.

- B.** En relación al segundo criterio, relativo a la **evitación de la participación social**, señalan excepciones y situaciones a tener en cuenta, tales como el caso de las mujeres amas de casa en Japón (“*shufu*”), en las que no realizan actividad laboral remunerada, centrando su vida en el cuidado de su familia sin apenas mantener otro contacto social, presentando un fuerte sentimiento de soledad y viviendo en una situación similar al *bikikomori*.
- C.** Referente al tercer criterio de **evitación de las relaciones sociales**, destacan el papel que juega el uso de internet en las relaciones sociales de la sociedad moderna actual. Así, sujetos con *bikikomori* describen que tienen amigos pero que solo pueden reunirse con ellos a través de los juegos online. Este hecho hace que se deban reexaminar los criterios diagnósticos de *bikikomori*, sugiriendo que, aunque un sujeto esté aislado en domicilio, puede mantener relaciones sociales virtuales a través de internet. Si este tipo de interacción debería cambiar los criterios de diagnóstico para *bikikomori* o no, puede ser una cuestión que valdría la pena desarrollar. Algunos autores pueden argumentar que las relaciones virtuales no deben considerarse interacciones sociales, especialmente si implica interactuar a través de un avatar ficticio que es completamente diferente en carácter de cómo uno interactúa en persona. Otra pregunta que plantean Kato y colaboradores es: ¿deberían los criterios diagnósticos distinguir entre las relaciones virtuales con personas con las que generalmente se producen interacciones cara a cara (por ejemplo, Facebook) frente a aquellas para las que generalmente no se producen interacciones cara a cara (juegos en línea)? Los autores concluyen que se debe realizar más investigación para responder a estas preguntas.
- D.** Con respecto al **malestar o deterioro significativo** debido a aislamiento social, especialmente al inicio del aislamiento, hay muchas personas que realmente se sienten felices de haber logrado una situación de aislamiento social. En otras palabras, una sensación de alivio al poder escapar de una vida real dolorosa. Sin embargo, cuando la situación de aislamiento continúa después de unos meses o un año o dos, hay muchos casos que presentan sentimientos de soledad. Este factor es especialmente importante, dado que se podrían proporcionar diferentes enfoques terapéuticos para las personas con *bikikomori* según tengan o no malestar, especialmente sentimientos de soledad.
- E.** En relación a la **duración del aislamiento**, se considera criterio diagnóstico a partir de 6 meses, pero los autores detallan que aquellos casos de duración entre 3 y 6 meses deben

clasificarse como *pre-hikikomori*. Podría ser importante para la detección precoz de estos casos, así como su tratamiento.

Tabla 1. Criterios diagnósticos de *hikikomori* (Kato et al., 2019).

Hikikomori es una forma patológica de aislamiento social cuya principal característica es el aislamiento físico en el domicilio. La persona debe cumplir los siguientes criterios:

1. Marcado aislamiento social en el domicilio
 2. Duración del aislamiento social continuo durante al menos 6 meses.
 3. Deterioro funcional significativo o malestar asociado con el aislamiento social.
- Estos autores proponen diferentes **grados**:
 - Leve: sujetos que ocasionalmente salen del domicilio (2-3 días/semana)
 - Moderado: raramente salen del domicilio (1 día/semana o menos)
 - Grave: nunca salen de su habitación.
 - Aquellos que salen del domicilio frecuentemente (4 o más días a la semana), por definición, no cumplen criterios de *hikikomori*.
 - **Tiempo de evolución** del aislamiento social: estos autores sugieren que debe tenerse en cuenta y anotarse la duración continua del aislamiento. Aquellos casos que presentan un aislamiento social durante al menos 3 meses (pero no 6) deben clasificarse como *pre-hikikomori*.
 - **Edad de inicio** del aislamiento social: La edad de inicio suele ser durante la adolescencia o la edad adulta temprana. Sin embargo, la aparición después de la tercera década no es raro. Los casos en mujeres amas de casa y personas mayores que cumplen con los criterios anteriores también pueden ser considerados.
 - Los siguientes especificadores no son criterios obligatorios; sin embargo, pueden ser útiles para la caracterización adicional de *hikikomori*:
 - A. Con falta de participación social. El individuo ocasionalmente (2-3 días/semana) o raramente (1 día/semana o menos) participa en actividades, como asistir a la escuela, ir a un lugar de trabajo o acudir a citas médicas. Este

especificador probablemente se aplicaría a los *hikikomori* que tampoco realizan actividades relacionadas con educación o empleo (es decir, "NEET").

- B. Con falta de interacción social en persona. El individuo ocasionalmente (2–3 días/semana) o raramente (1 día/semana o menos) tiene interacciones sociales (conversaciones) en persona significativas con personas fuera del hogar. En casos severos, el individuo rara vez tiene interacción social en persona, incluso con personas que conviven, como miembros de la familia. Este especificador probablemente se aplicaría a las personas con *hikikomori* que tienen interacciones sociales que se producen principalmente a través de tecnologías de comunicación digital (por ejemplo, redes sociales, juegos en línea).
- C. Comunicación indirecta. Debido a la proliferación de Internet en la sociedad moderna, la comunicación "indirecta" a través de la web u otras tecnologías es cada vez más común. Por lo tanto, dicha comunicación indirecta debe evaluarse de acuerdo con la comunicación directa. Algunos casos tienen comunicación indirecta bidireccional diaria a través de herramientas en línea como servicios de redes sociales y/o juegos en línea.
- D. Con sentimientos de soledad. Cuando el sujeto refiere sentirse solo. La presencia de sentimientos de soledad tiende a ser más frecuente cuanto mayor es la duración del aislamiento.
- E. Con una patología comórbida. *Hikikomori* puede coexistir con numerosos trastornos psiquiátricos, como el trastorno de personalidad evitativo (p. ej., aislamiento por miedo a las críticas o el rechazo), trastorno de ansiedad social (p. ej., evitar situaciones sociales por miedo a la vergüenza), trastorno depresivo mayor (p. ej., evitar situaciones sociales como reflejo de síntomas neurovegetativos), trastorno del espectro autista (déficit en las interacciones sociales y la comunicación) o esquizofrenia (p. ej., aislamiento debido a síntomas positivos y negativos de psicosis).
- F. Edad de inicio del aislamiento social: La edad de inicio suele ser durante la adolescencia o la edad adulta temprana. Sin embargo, no es rara la aparición después de la tercera década.
- G. Patrón y dinámica familiar. El nivel socioeconómico y los estilos de crianza pueden influir en el desarrollo de *hikikomori*. Por ejemplo, se sugiere que la

paternidad sobreprotectora y/o la ausencia de participación paterna se relacionan con la ocurrencia de este fenómeno.

- H. Trasfondo cultural. El aislamiento social patológico se caracterizó y describió originalmente en Japón y más recientemente se ha identificado en otros países, especialmente en Asia oriental y Europa. La situación sociocultural puede influir en esta condición.
- I. Tratamiento. Aunque no se han establecido intervenciones basadas en la evidencia, se han sugerido intervenciones como la farmacoterapia (si existe comorbilidad con trastornos psiquiátricos), psicoterapia, trabajo social y enfoque familiar. Se recomienda un enfoque individualizado basado en las evaluaciones anteriores.

▪ Red social

Una de las características importantes a la hora de definir el aislamiento social es la red social que mantiene el individuo. La mayoría de los estudios realizados aceptan las directrices del gobierno japonés de 2003, en que acordaron que uno de los criterios era el abandono de la actividad académica o laboral (Li & Wong, 2015a). Otros estudios añaden que los jóvenes con aislamiento social evitan todas las actividades sociales (Hattori, 2006; Suwa & Suzuki, 2013). Además, existe discrepancia entre estudios sobre el tipo de relaciones personales que pueden mantener: mientras algunos estudios describen que “no mantienen relaciones personales” (Nagata et al., 2013; Teo, 2010; Teo & Gaw, 2010), otros postulan que no mantienen relaciones “con otros, además de los miembros de la familia (Hattori, 2006), ni con amigos íntimos” (Suwa & Suzuki, 2013). Sin embargo, es posible que existan casos que tienen amigos cercanos con los que mantienen contacto durante el periodo de aislamiento social, o jóvenes que no tienen amigos pero mantienen relaciones personales con otras personas, tales como amigos online (Li & Wong, 2015a). Recientemente, Kato y colaboradores (Kato et al., 2019) plantearon el papel de las relaciones a través de internet, sugiriendo que es necesaria más investigación sobre si debe tenerse en consideración las relaciones sociales virtuales, y si deben diferenciarse aquellas que se mantienen con personas con las que generalmente se producen interacciones cara a cara (por ejemplo, Facebook) frente a aquellas para las que generalmente no se producen interacciones cara a cara (juegos en línea).

▪ Lugar de aislamiento

La guía publicada por el gobierno japonés ya describía como criterio diagnóstico “estar en el hogar casi todos los días” (Ministry of Health, 2003; K. Saito, 2010a). Pese a ello, la versión japonesa del

cuestionario del World Mental Health no especifica el lugar de aislamiento (no necesariamente puede ser en el domicilio, siendo, por ejemplo, un lugar frecuente un locutorio o cafetería con internet), y permite salidas ocasionales del domicilio (Koyama et al., 2010; K. Saito, 2010a). De aquí que ya en 2014 Heinze y Thomas (Heinze & Thomas, 2014) sugirieron la distinción entre aislamiento social “severo” y “leve”: los casos severos nunca abandonan su habitación y no hablan con su familia, mientras que los casos leves salen y hablan con otros ocasionalmente. Esta distinción también ha sido planteada recientemente por Kato y colaboradores (Kato et al., 2019). Estos autores plantean la clasificación del *bikikomori* en cinco estados en función de las situaciones físicas/sociales que mantiene: convivencia con otros -mayoritariamente familia- (categoría X) o vivir solo (categoría Y).

- 3X: raramente sale de su propio domicilio y rechaza comunicarse con la familia
- 2X: raramente sale de su propio domicilio, pero mantiene cierta comunicación con la familia.
- 1X: algunas veces sale de su domicilio y/o interacciona con otros
- 2Y: vive solo y prácticamente no interacciona con nadie.
- 1Y: vive solo, pero interacciona con otras personas.

▪ Duración del aislamiento

En Japón, generalmente se ha descrito una duración mínima de 6 meses para describir el aislamiento social como patológico. En otros lugares, tales como Corea (Lee et al., 2013) y Hong Kong (Chan & Lo, 2014), los investigadores han propuesto una duración menor (tres meses). Wong y colaboradores (P. W. C. Wong et al., 2015) compararon el número de eventos vitales negativos y el estado de salud mental de jóvenes que habían estado aislados más de 6 meses y menos de 6 meses, y encontraron que eran muy similares. En otras palabras, parece que no existe mucha diferencia entre jóvenes que han estado aislados durante 3 meses que aquellos que lo han estado 6 meses o más. Recientemente, Kato y colaboradores (Kato et al., 2019) han propuesto el término *pre-bikikomori* para aquellos casos de duración entre 3 y 6 meses. De modo que parece que sería interesante proponer un periodo de aislamiento menor, con el objetivo de detectar de forma más precoz y evitar las potenciales consecuencias negativas del aislamiento social prolongado. Sin embargo, independientemente de la definición formal de la duración del aislamiento, es difícil determinar la duración exacta debido a las diferentes interpretaciones del propio sujeto y su familia, que a menudo pueden entenderlo como algo normal, como “tomar un descanso” (Hattori, 2006).

Desde la primera descripción en Japón del síndrome de *bikikomori*, no ha habido un debate ni consenso en su definición, sus criterios diagnósticos y características esenciales, suponiendo un problema en la investigación homogénea e internacional, y destacando la necesidad de investigación que aporte más datos sobre el fenómeno de aislamiento social global y su equivalencia con el *bikikomori* en Japón.

2.2.3 Epidemiología

Existen escasos datos sobre la prevalencia o incidencia de *bikikomori*. El estudio más completo realizado en Japón, a través de una encuesta cara a cara entre los años 2002 y 2006, mostró una prevalencia elevada, del 1.2% entre los 20 y 49 años, siendo hasta del 2% en sujetos entre 20 y 29 años (Koyama et al., 2010). Una estimación realizada en 2008, basada en la extrapolación de una encuesta poblacional de más de 1.600 familias en 2002, fue de 410.000 casos (Furlong, 2008; Lee et al., 2013). En cuanto a la incidencia, un estudio gubernamental realizado en todos los centros de salud mental de todo Japón, mostró que hubo más de 14.000 consultas sobre *bikikomori* durante un período de un año (Ministry of Health, 2003). Sin embargo, estos números están probablemente subestimados, por al menos dos razones:

- 1) Sólo incluye el sujeto con *bikikomori* o sus padres, que consultaron en los centros de salud y bienestar social (pero no, por ejemplo, en clínicas u hospitales).
- 2) Por cada caso de *bikikomori*, hay probablemente otros no detectados, dado que los *bikikomori*, por definición, permanecen aislados de la sociedad, sin acudir a los centros de salud.

Una revisión de tres estudios poblacionales realizados en Japón, con un total de 12 ciudades y 3.951 personas, mostró que entre el 0.9% y el 3.8% de los sujetos tenían antecedentes de *bikikomori* (Kiyota et al., 2008). Más recientemente, una encuesta de la Oficina del Gabinete de Japón en 2016 reveló que las "personas con aislamiento social durante más de seis meses", con edades comprendidas entre los 15 y 39 años, eran 540.000 en Japón.

Además, debido a los períodos prolongados de aislamiento social que pueden producirse, a veces durante años e incluso décadas, existe una nueva preocupación sobre la población *bikikomori* que envejece. De hecho, al incluir individuos mayores de 40 años, aumentaría aún más el número de pacientes con *bikikomori* (Kato et al., 2019).

Cabe señalar que las encuestas epidemiológicas que existen hasta la fecha se basan en cuestionarios simples (sólo una o dos preguntas) y se requieren investigaciones adicionales basadas en definiciones

más exactas (como hemos visto en el apartado 2.2.2 sobre la definición de *hikikomori*) para comprender mejor la situación actual.

En lo que respecta a otros países, los datos son aún más escasos. Un estudio realizado en Hong Kong mostró que el 1.9% de los jóvenes presentaban aislamiento social (P. W. C. Wong et al., 2015). Otro estudio realizado en Corea sugirió que el 2.3% de los estudiantes de bachillerato presentaban aislamiento social (Lee et al., 2013). Recientemente, un estudio en China sobre 137 personas, de edades comprendidas entre 13 y 39 años, mostró que un 6.6% de ellos podía clasificarse como *hikikomori* (Liu et al., 2018). Debe tenerse en cuenta que los estudios interculturales son difíciles de llevar a cabo, y los datos fiables para comprender el fenómeno de aislamiento social y su impacto en las sociedades son escasos (Furlong, 2008; Lee et al., 2013; V. Wong, 2009). Además, una de las principales barreras para estudiar este fenómeno es su heterogeneidad, ya que las personas pueden aislarse de diferentes maneras, por diferentes razones, y, como hemos visto, no hay consenso sobre la definición o los criterios diagnósticos del aislamiento social en este campo (Furlong, 2008; Lee et al., 2013; V. Wong, 2009).

Respecto a las características habituales de estos casos, el paciente típico es un hombre adulto joven, frecuentemente el hijo mayor de una familia de nivel socioeconómico alto (Kawanishi, 2004). Múltiples estudios han descrito la predominancia en hombres, con una ratio de alrededor de 4 sobre 1 (Itou, 2003; Kondo, 1997; Kondo et al., 2007; T. Saito, 1998). La edad de presentación varía entre los 20 y los 27 años (Itou, 2003; Kondo, 1997; T. Saito, 1998). En estudios realizados en otros países, algunas características demográficas (proporciones de género) y características del aislamiento (edad de inicio) son similares a las reportadas en estudios previos realizados en Japón y otros países asiáticos (Wu et al., 2019).

El síndrome de *hikikomori* tiene una prevalencia elevada en Japón y otros países asiáticos como Corea. En la actualidad, no existen datos epidemiológicos sobre el aislamiento social en nuestra sociedad, habiéndose publicado únicamente algún caso aislado en la literatura científica.

2.2.4 Etiología

2.2.4.1 Factores sociales

La descripción inicial en Japón, y su alta prevalencia en dicha población, dio origen a la teoría de que es un síndrome específicamente ligado a la cultura japonesa (Teo & Gaw, 2010). Según esta teoría, el síndrome de *hikikomori* se explicaría como un problema social y conductual resultante de la interacción entre factores individuales, familiares y de dicha sociedad (Koyama et al., 2010; Teo, 2013; Teo & Gaw, 2010). Aunque la mayoría de estudios acerca de los factores socioculturales están

realizados en Japón, la progresiva descripción de casos de aislamiento social en otros países hace inferir que estos factores socioculturales también pueden estar presentes en otras culturas, y/o que no son tan determinantes en la etiología del aislamiento social (Tan et al., 2020).

▪ FAMILIA

Los factores familiares que se han relacionado con la aparición del *hikikomori* incluyen: apego inseguro (Krieg & Dickie, 2013), familia nuclear sin apoyo familiar extendido (Borovoy, 2008; Lee et al., 2013), familia fragmentada (Chong & Chan, 2012), muerte de un familiar (Kondo et al., 2013), dinámicas disfuncionales familiares y de crianza (Chan & Lo, 2014; Heinze & Thomas, 2014; Suwa et al., 2003) así como negligencia emocional y abuso infantil (Hattori, 2006). Se ha observado mayor riesgo en familias con nivel económico elevado, así como con nivel educacional parental elevado (Umeda et al., 2012). Algunos padres, que no saben cómo iniciar una conversación o preocuparse por sus hijos (Suwa et al., 2003), pueden no enseñar a sus hijos cómo empatizar, cómo establecer relaciones de confianza con los demás y cómo involucrarse en comunicaciones saludables (Todd, 2011). Otros factores, tales como experiencias traumáticas en la infancia e historia de maltrato familiar, también han sido descritos como factores de riesgo para el desarrollo de aislamiento social (Borovoy, 2008; Hattori, 2006; Teo, 2010; Umeda et al., 2012). Todos estos datos sobre factores familiares proceden de estudios realizados en Japón y países asiáticos (Corea y China), no existiendo ninguno en países occidentales.

En relación a las dinámicas familiares disfuncionales, se ha relacionado con el concepto de “*amae*” (Doi, 1973), que describe el comportamiento dependiente japonés en el cual la persona implora ayuda, o alternativamente actúa con egoísmo e indulgencia, sabiendo que el cuidador le perdonará y querrá hacerse cargo de él y ayudarlo. Tradicionalmente, en las sociedades asiáticas, éste es un fenómeno frecuente que comienza en la infancia, generando una dinámica familiar en la que el niño manipula a los padres para ser cuidado, y los progenitores se sienten cómodos en su papel de cuidador sobreprotector, cronificando la situación en el tiempo y generando jóvenes dependientes económicamente de sus padres (Furlong, 2008; Heinze & Thomas, 2014; Kato et al., 2016). De este modo, el aislamiento sería promovido indirectamente por el *amae*, haciendo que los padres acepten que su hijo se quede en casa y sea dependiente de ellos. Además, con la disminución de la tasa de fecundidad total en las últimas décadas, los niños han tendido a ser hijos únicos, con su propio dormitorio, proporcionando una capa adicional de distancia del mundo exterior (Nakamura & Shioji, 1997). En la cultura occidental no existe una palabra equivalente a *amae*, y esta carencia puede estar relacionada por su menor prevalencia. Pero aunque el *amae* es considerado originalmente como japonés, recientes estudios sugieren que en realidad es más universal y existe en otras culturas (Kato et al., 2012; Niiya et al., 2006; J.C. Wong et al., 2019).

A este fenómeno, se le añade que la generación actual japonesa de adultos jóvenes tiene una ambición y motivación laboral decrecientes (Teo, 2010); además, la comodidad económica de las familias japonesas ha llevado a infravalorar el esfuerzo y el trabajo; por último, se ha señalado que los padres son menos estrictos en la crianza de los hijos (Ogino, 2004).

En relación a la posible influencia de psicopatología parental como factor de riesgo, son muy escasos los estudios. Únicamente se ha descrito el papel del trastorno de pánico maternal como un factor de riesgo (Umeda et al., 2012), sugiriendo que esta asociación podría ser atribuida a conductas parentales que refuerzan estrategias de afrontamiento evitativo e incrementan la ansiedad del paciente.

▪ ESCUELA

Muchos países asiáticos imponen un plan de estudios muy exigente, aprobado por el gobierno nacional, y un sistema educativo rígido (Suwa & Suzuki, 2013; Todd, 2011). En él, siempre es necesario aprender, en lugar de desarrollar un pensamiento crítico o creativo (Borovoy, 2008). Si los estudiantes pierden varias clases, puede ser difícil volver a coger el ritmo escolar, dando como resultado una sensación de fracaso de la vida escolar y derivando en absentismo y abandono escolar (Uchida, 2010). Además, en muchos estudios, es común la descripción de la asociación del aislamiento social con el bullying, las burlas y el rechazo de los compañeros (Borovoy, 2008; Furlong, 2008; Hattori, 2006; Kondo et al., 2013; Krieg & Dickie, 2013; Lee et al., 2013; Sakamoto et al., 2005; Teo, 2010; Todd, 2011; V. Wong, 2012). En Japón, se ha comprobado que los profesores o los padres son, de hecho, tolerantes con la intimidación, porque creen que es una "modificación de la conducta" positiva para hacer que los estudiantes se adapten al resto de compañeros (Todd, 2011). Sin embargo, se ha observado que la experiencia de intimidación hace que los estudiantes sientan un intenso resentimiento y desconfianza hacia sus compañeros (Hattori, 2006).

▪ FAMILIA-ESCUELA

Muchos jóvenes aislados son los hijos mayores dentro de su familia (Teo, 2010). Sin importar su origen familiar, clase media (Furlong, 2008) o clase trabajadora (V. Wong, 2009), los padres tienen grandes expectativas en su hijo mayor. Aquellos padres con recursos financieros, alto nivel de educación y empleos de prestigio, están más preocupados por el éxito y obsesionados con la educación de sus hijos (Hattori, 2006). Sin embargo, las altas expectativas académicas y la fuerte competencia pueden llevar a que los niños experimenten una grave crisis de confianza si fracasan (Lee et al., 2013). También, pueden ser despreciados e incomprendidos por sus padres y profesores si no sobresalen en su trabajo académico (Chong & Chan, 2012). Además, algunos niños se ven obligados a asistir a clases de tutoría extraescolares después de la escuela. Esto no sólo les priva de su tiempo de ocio, sino que también les crea una tensión extra (Hattori, 2006). De este modo, se ha

asociado el aislamiento social en jóvenes con una elevada presión académica, y fracaso académico de alto nivel (Furlong, 2008).

▪ SOCIEDAD

En general, en la sociedad japonesa, en situaciones donde uno es avergonzado, la idea de “hacerse desaparecer” ha sido tradicionalmente considerada una especie de virtud. Este tipo de mentalidad puede estar relacionado no solo con la alta prevalencia de suicidio, sino también con el aislamiento social (Kato et al., 2017). Pero este comportamiento relacionado con la vergüenza y el aislamiento no está limitado a la sociedad japonesa. Así, por ejemplo, en “La Bella y la Bestia”, un monstruo se separa del contacto con el mundo exterior debido a su aparente fealdad, en una historia con la que quizás todos podamos empatizar y comprender en todas las sociedades. Así, en la sociedad moderna occidental actual, quizás la vergüenza se ha convertido en una patología relacionada con el aislamiento.

Cabe destacar también que, en el pasado, la mayoría de la gente podía conseguir un trabajo si se esforzaba en sus estudios y tenía buenas calificaciones en la escuela secundaria y en la universidad (Furlong, 2008), y muchas personas podían trabajar en su mismo puesto de trabajo hasta la jubilación. Sin embargo, con la disminución de las oportunidades laborales tradicionales, el éxito académico ya no garantiza en la actualidad buenas perspectivas de carrera, ni siquiera el empleo (Suwa & Suzuki, 2013). Las alternativas a la autonomía económica y la seguridad social siguen siendo extremadamente limitadas (Toivonen et al., 2011). Por lo tanto, las variables de carrera laboral incierta e, incluso, el empleo inestable, llevan a un estatus social peor (Furlong, 2008) y a una valoración cada vez menor del esfuerzo en el trabajo (Teo, 2010). Cada vez más, las personas que experimentan dificultades para encontrar un trabajo consideran que no tienen un estatus social legítimo para relacionarse en determinados entornos sociales (Lee et al., 2013; Ogino, 2004). Por lo tanto, pueden aislarse socialmente debido a la dificultad para encontrar un lugar en la sociedad (Furlong, 2008). Este fenómeno, aunque quizás más prevalente en la sociedad japonesa, es cada vez más frecuente en la sociedad occidental actual.

De hecho, muchos de estos factores socioculturales no son exclusivos de la sociedad japonesa, y están presentes también en otras culturas como la occidental, aunque quizás con menos intensidad o prevalencia. La forma en que estos factores culturales japoneses se relacionan con el entorno sociocultural de otros países, y con qué precisión conducen al resultado final de aislamiento social, no se conoce ni comprende bien. Se necesita más investigación para estudiar estos factores, que pueden ser significativos en el desarrollo de *hikikomori* en todas las culturas (Tan et al., 2020).

2.2.4.2 Factores hereditarios

Existe consenso casi universal en que la patogénesis de la enfermedad mental no puede explicarse únicamente por el DNA recibido de los padres. Factores biológicos, psicológicos y sociales causan una variedad de cambios cerebrales, incluidos epigenéticos y de correlación nervio-glial, que dan lugar a la expresión de un fenotipo característico.

Las bases biológicas del fenómeno de aislamiento social no se han clarificado en absoluto. El primer y único estudio realizado sobre los posibles biomarcadores sanguíneos del *hikikomori* describió que los sujetos con aislamiento social tienen puntuaciones elevadas en personalidad evitativa en ambos sexos, con niveles menores de ácido úrico (AU) en hombres y niveles mayores de colesterol de alta densidad (HDL-C) en mujeres, comparado con controles sanos (Hayakawa et al., 2018). Dicho estudio sugiere la hipótesis de que la personalidad evitativa puede estar formada por relaciones interactivas entre el estrés oxidativo y la inflamación, y afecta las características conductuales y psicológicas, lo que llevaría al fenómeno del aislamiento. Dado que es el único estudio realizado hasta la fecha, debe ser replicado y ampliado en futuras investigaciones en este campo.

2.2.4.3 Factores psicológicos

La timidez y la ansiedad social son relativamente comunes en la cultura japonesa, y el trastorno de personalidad evitativo es el trastorno del Eje II según DSM-IV-TR más común en Japón (Kondo, 1997). En otras sociedades, como por ejemplo en EE. UU., el trastorno de personalidad obsesivo-compulsivo y el trastorno de personalidad paranoide son los más prevalentes (Grant et al., 2004). Este hecho ha llevado a algunos autores a la hipótesis de que, en dicha sociedad japonesa, el fenómeno de aislamiento es tan frecuente debido a su asociación con los trastornos de ansiedad y de personalidad evitativo (Teo, 2010). Pero este debate no ha podido ser aclarado hasta la fecha.

Aunque inicialmente se propuso que el síndrome de *hikikomori* estaba ligado únicamente a la cultura japonesa, relacionándolo con factores sociales, culturales y familiares propios de dicha sociedad, la progresiva aparición de estudios en otras culturas puso en cuestión esta afirmación, resaltando la necesidad de su estudio en otras sociedades. Los escasos estudios previos sugieren que podría ser un fenómeno más global, en el que estos factores etiológicos culturales podrían no ser tan determinantes y/o estar también presentes en la sociedad occidental.

Como en la mayoría de los trastornos mentales, la etiología del *hikikomori* no está clara. Los escasos estudios previos muestran su relación con diferentes factores biológicos, sociales y psicológicos que aún necesitan estudiarse en mayor profundidad.

2.3 Aislamiento social y patología comórbida

Existe un debate sobre los trastornos psiquiátricos subyacentes al aislamiento social. Uno de los principales problemas en su estudio, como hemos visto, es la falta de una definición y unos criterios de inclusión bien establecidos. Así, en los primeros estudios sobre aislamiento social realizados en Japón se planteó el debate sobre si debían o no incluirse casos de aislamiento social con patología comórbida asociada, y en el caso de incluirla, definir qué trastornos debían serlo. A raíz de este debate, surgieron tres diferentes teorías:

- A. La mayor parte de los casos de *hikikomori* podrían diagnosticarse utilizando criterios diagnósticos ICD (Whitfield, 1993) o DSM (Lewis, 1996);
- B. *Hikikomori* representaría una nueva categoría diagnóstica (Kondo et al., 2007; Teo & Gaw, 2010) que requiere mayor estudio y consideración, y
- C. *Hikikomori* no sería un trastorno psiquiátrico.

A. En favor del primer punto, algunos estudios previos observan que un porcentaje importante de los casos de *hikikomori* (entre 54.5% y 80%) presentan comorbilidad con otros trastornos psiquiátricos tales como depresión, ansiedad, personalidad, trastornos del espectro autista y otras enfermedades, así como trastornos psicóticos (Campbell et al., 2006; Frankova, 2019; Kato et al., 2011, 2012; Kondo et al., 2013; Koyama et al., 2010; Lee et al., 2013; Li & Wong, 2015; Nagata et al., 2013; Stip et al., 2016; Suwa & Hara, 2003; Tateno et al., 2012; Teo et al., 2013; Teo, Fetters, et al., 2015; Teo, Stufflebam, et al., 2015). Se ha objetivado que estos sujetos presentan un riesgo 6.1 veces mayor de comorbilidad a lo largo de la vida de trastornos afectivos (Koyama et al., 2010).

Sin embargo, otros estudios observan un porcentaje no despreciable de sujetos (45.5%) en los que el aislamiento social no puede explicarse como un síntoma dentro de un trastorno psiquiátrico (Koyama et al., 2010), postulándose en estos casos como “*hikikomori* **primario**”, diferente del “*hikikomori* **secundario**” en el que el aislamiento social sí estaría relacionado con un trastorno mental establecido (Hirashima, 2001; Kato et al., 2012; Li & Wong, 2015a; Suwa et al., 2003). Así, se plantea que el *hikikomori* **primario** no está asociado a ningún trastorno psiquiátrico, mientras el *hikikomori* **secundario** está causado por un trastorno mental establecido. Sin embargo, no existe consenso sobre qué trastorno psiquiátrico debe ser considerado para excluir un diagnóstico de *hikikomori* **primario**. Así, el concepto de *hikikomori* **primario** sigue estando mal definido y no estandarizado en todos los estudios y países (J. C. Wong et al., 2019), lo que dificulta su estudio homogéneo y alcanzar conclusiones firmes. Por ejemplo, todos los jóvenes socialmente retraídos en Corea del Sur se consideran *hikikomori* **primarios**, mientras que Japón diferencia a aquellos con o sin comorbilidades psiquiátricas. Esto alude

a la incertidumbre direccional sobre si el aislamiento social prolongado es causado, correlacionado o causa de trastornos psiquiátricos. Los nuevos criterios diagnósticos propuestos por Kato y colaboradores (Kato et al., 2020) han eliminado la presencia de otros trastornos psiquiátricos como criterio de exclusión, y se espera que las investigaciones futuras se sumen al conocimiento existente sobre *hikikomori* y su posible relación con la psicopatología existente (Tan et al., 2020).

B. El segundo planteamiento que propone el *hikikomori* como un nuevo diagnóstico surge de la detección de casos en los que presentan un aislamiento persistente e incapacitante, sin otra psicopatología destacable y sin cumplir criterios para ningún trastorno mental existente. En estos casos frecuentemente el aislamiento es egosintónico (Teo & Gaw, 2010). Un estudio realizado por Teo y colaboradores (Teo & Gaw, 2010) propuso su inclusión en DSM-V con unos criterios diagnósticos específicos, concluyendo que es necesaria y prioritaria la investigación de este fenómeno. Finalmente, no se aceptó en la edición final del DSM-V.

C. En relación al tercer punto, se ha generado la hipótesis de que sería un síndrome específicamente ligado a la cultura japonesa, explicándolo como un problema social y conductual resultante de la interacción entre factores individuales, familiares y de dicha sociedad (Koyama et al., 2010; Teo, 2013; Teo & Gaw, 2010). Esta propuesta surge de la existencia inicial de estudios únicamente en Japón, en los que se había descrito una prevalencia elevada, del 1.2% entre los 20 y 49 años, siendo hasta del 2% en sujetos entre 20 y 29 años (Koyama et al., 2010).

En el estudio del *hikikomori* no existe consenso sobre si es un nuevo trastorno mental, un síndrome ligado únicamente a la cultura japonesa, o si estos sujetos simplemente podrían recibir un diagnóstico de trastorno mental ya conocido. De ahí, la importancia de investigar en este fenómeno, con el objetivo de aportar más evidencia científica que clarifique estas cuestiones.

Los diferentes trastornos psiquiátricos que se han asociado al aislamiento social en estudios previos son los siguientes:

1. Trastorno depresivo

La pérdida del interés o capacidad de disfrutar de actividades que normalmente eran placenteras, la apatía, abulia y anergia son síntomas depresivos que pueden dar lugar a un cuadro de aislamiento social. En estos casos, el sujeto puede ser consciente de su aislamiento social, pero justificarlo por los síntomas depresivos, tales como sentimientos de tristeza, minusvalía y/o culpa. Este fenómeno puede suceder tanto en trastornos depresivos como en fases depresivas del trastorno bipolar. A su vez, se ha relacionado el síndrome de *hikikomori* con un nuevo síndrome ligado a la cultura japonesa denominado “modern-type depression (MTD)” o “depresión de tipo moderno”, en el que sujetos

jóvenes presentan ánimo depresivo tras un suceso estresante, acompañado de una tendencia a evitar y evadir situaciones sociales en ambientes laborales o académicos. Estas dificultades sociales prolongadas, junto con dichos síntomas depresivos, pueden inducir un aislamiento social, motivo por el que se ha propuesto la relación del MTD con el síndrome de *bikikomori* (Kato et al., 2018; Kato & Kanba, 2017).

2. Trastornos de ansiedad

El aislamiento social es común en el trastorno de ansiedad social, debido a su característica principal de temor exagerado a ser objeto de juicios negativos por parte de otros (Nagata et al., 2013; Teo, Lerrigo, et al., 2013). Otros trastornos, como agorafobia o trastorno de pánico, pueden ir acompañados de aislamiento social por las conductas de evitación que lleva asociado el miedo a sufrir una crisis de ansiedad (Kondo et al., 2013). En estos casos, el aislamiento inicialmente puede ser egodistónico y el sujeto puede intentar no aislarse, pero si se cronifica el trastorno de ansiedad, puede generar dificultades graves en las relaciones sociales y dar lugar a un cuadro de aislamiento social prolongado. En Japón, “*taijin kyofusho*” es un síndrome de ansiedad relacionado con la cultura japonesa incluido en el DSM-IV-TR, en el que los sujetos experimentan miedo de las relaciones interpersonales, especialmente cara a cara (American Psychiatric Association, 2000; Kato et al., 2019; Nakagami et al., 2017). Este síndrome es, igual que ocurre con el *bikikomori*, más frecuente en hombres jóvenes (Kato et al., 2016). Sin embargo, la característica principal de *taijin kyofusho* es el miedo a ofender o lastimar a otros a través de una interacción social incómoda o debido a un defecto físico percibido como el olor corporal, el rubor y el contacto visual (Kirmayer, 1991). Esta característica no es típica del síndrome de *bikikomori*.

3. Esquizofrenia y trastornos psicóticos

Inicialmente, la guía del gobierno japonés indicó como criterio de exclusión para el *bikikomori* la presencia de trastornos mentales tales como esquizofrenia (Ministry of Health, 2003). Sin embargo, en investigaciones posteriores se ha observado la comorbilidad frecuente del aislamiento social con los trastornos psicóticos. Así, en los pacientes con esquizofrenia es frecuente la presencia de aislamiento social debido a síntomas positivos o negativos. En relación a los síntomas positivos, los delirios o alucinaciones pueden llevar al sujeto a aislarse en su domicilio por miedo (sentirse perseguido, espiado, etc.). Respecto a sintomatología negativa, el aislamiento social es un síntoma típico en la esquizofrenia que se ha relacionado con alteraciones en el pensamiento formal y en procesos y mecanismos cognitivos sociales (de Sousa et al., 2015). Es especialmente difícil distinguir el aislamiento social en la esquizofrenia simple, en la que no se observan alucinaciones ni delirios (Fanous et al. 2001; Kato et al. 2012). Además, se ha sugerido también que los sujetos con fases prodrómicas de enfermedad psicótica deben ser incluidos (antes de un diagnóstico definitivo de psicosis), debido a que frecuentemente tienden a presentar aislamiento social, siendo, en estos casos,

de gran importancia su detección y tratamiento precoz (Kondo et al., 2013; Stip et al., 2016). En estos sujetos destacaría la escasa conciencia de enfermedad propia de los trastornos psicóticos.

4. Trastornos de personalidad

Los trastornos de personalidad pueden presentar dificultades en la interacción social e ir acompañados de conducta de aislamiento social.

Así, en el trastorno de personalidad evitativo, la principal característica es un patrón generalizado de inhibición social, sentimientos de inadecuación, hipersensibilidad a la evaluación negativa, rechazo o desaprobación y evitación de la interacción social, que comienza en la adolescencia o al comienzo de la edad adulta. Las relaciones se centran únicamente con aquellos en quienes confían y no les rechazarán nunca. Todo ello puede llevar un aislamiento social egodistónico. En el caso del trastorno de personalidad por dependencia, debido a su necesidad general y excesiva de que se ocupen de ellos (comportamiento de sumisión o adhesión), y de un gran temor de separación, pueden generarse relaciones sociales disfuncionales que desemboquen en ruptura y consecuente soledad y aislamiento.

En el caso del trastorno esquizoide de la personalidad, los individuos que lo padecen se caracterizan por la falta de interés en relacionarse socialmente y por una restricción de la expresión emocional, presentando frecuentemente aislamiento social. De igual modo ocurre en el trastorno esquizotípico de la personalidad, en los que, acompañado de distorsiones cognoscitivas o perceptivas y excentricidades del comportamiento, los sujetos presentan un patrón de déficit social o interpersonal con una gran disminución de la capacidad para las relaciones personales, que frecuentemente conlleva aislamiento social egosintónico. En el caso del trastorno de personalidad paranoide, la desconfianza que lo caracteriza puede ir acompañada de déficit en relaciones y aislamiento social.

El trastorno de personalidad histriónico puede en ocasiones ir acompañado de aislamiento social debido a las dificultades de relación social consecuencia de los patrones de comportamiento disfuncionales que lo caracterizan, tales como la excesiva búsqueda de atención y una excesiva necesidad de aprobación. Respecto al trastorno límite de personalidad, algo similar puede ocurrir debido a la inestabilidad emocional, pensamiento extremadamente polarizado y dicotómico, impulsividad y relaciones interpersonales caóticas. El trastorno antisocial de la personalidad, en el contexto del patrón general de desprecio y violación de los derechos de los demás que presenta, también puede ir acompañado de aislamiento social.

Como vemos, las dificultades que se dan en las dimensiones emocionales, afectivas, motivacionales y de relación social de los individuos con trastorno de personalidad, pueden ir acompañadas de aislamiento social. En un estudio realizado sobre psicopatología asociada a *hikikomori* basado en la entrevista SCID-II (Teo, Stufflebam, et al., 2015), se observa que los trastornos de personalidad por

evitación, paranoide, dependiente, esquizoide, antisocial, límite, narcisista y esquizotípico son comórbidos con el *hikikomori*.

5. Trastorno por estrés post-traumático

El trastorno por estrés postraumático puede ir acompañado de aislamiento social debido al malestar psicológico intenso y prolongado, las reacciones fisiológicas y las conductas evitativas de estímulos asociados a los sucesos traumáticos. Este aislamiento sería involuntario y egodistónico. En Japón, se ha relacionado los antecedentes de bullying con el *hikikomori* (Borovoy, 2008; Furlong, 2008; Hattori, 2006; Krieg & Dickie, 2013). Así, tanto la violencia física directa de sus compañeros o la violencia indirecta (como ser ignorado o excluido), es en muchos casos de adolescentes, un desencadenante de *hikikomori* (Teo, 2010).

6. Trastorno del espectro autista

Se ha sugerido la comorbilidad de los trastornos del espectro autista con el aislamiento social (Kondo et al., 2013; Tatenos et al., 2012), en relación a las deficiencias persistentes en la comunicación social y en la interacción social en diversos contextos, unidas a los patrones restrictivos y repetitivos de comportamiento, intereses o actividades que presentan estos sujetos (Kato et al., 2019).

7. Otros trastornos mentales

Otros trastornos, tales como trastorno por uso de sustancias o trastornos adaptativos, pueden presentar, en el curso de la enfermedad, periodos de aislamiento social.

8. Conducta suicida

No existen datos epidemiológicos sobre la conducta suicida y el aislamiento social (Kato et al., 2019). Se ha sugerido que el síndrome de *hikikomori* pueda ser una alternativa al suicidio en la cultura japonesa, como una forma de escape del mundo real, o bien como una conducta precursora del suicidio. Así, en un estudio internacional sobre *hikikomori*, se observó que los psiquiatras japoneses tienden a considerar que el riesgo de suicidio es bajo y eligen intervenciones relativamente pasivas para el *hikikomori*, mientras que en otros países, como Corea, los profesionales consideran un riesgo elevado de autolisis en los casos de aislamiento (Kato et al., 2012). Por ello, es de suma importancia el estudio de este fenómeno.

Los estudios previos no han podido aclarar el debate sobre la patología comórbida asociada al aislamiento social debido a que se han visto limitados por falta de entrevistas diagnósticas validadas, definición poco clara de *bikikomori*, y recogida de datos únicamente en Japón (Teo, Stufflebam, et al., 2015). Además, cabe destacar, tal como lo hacen Kato y colaboradores (Kato et al., 2012), que aunque muchos de los casos de aislamiento presenten asociado un trastorno mental, es valioso y necesario continuar estudiando el fenómeno debido a su morbilidad asociada, de igual manera que se investiga el suicidio en diferentes campos de la psiquiatría (Kato et al., 2012; Mann et al., 2005), con el objetivo de poder prevenirlo, detectarlo precozmente y/o desarrollar programas de tratamiento específicos.

2.4 Aislamiento social en otras culturas

La investigación iniciada en Japón sobre el *bikikomori* ha alertado sobre la existencia del aislamiento social en otros países, y la importancia de su detección y tratamiento. El único estudio internacional realizado para explorar la opinión de los clínicos sobre la existencia de *bikikomori* en otros países, apuntó a su existencia no sólo en Japón, sino en otras partes de Asia, Australia y USA (Kato et al., 2012). Posteriormente se han descrito casos clínicos aislados de *bikikomori* en otros países, como Omán, Italia, India, Estados Unidos, Canadá, Francia, Brasil, Ucrania y Corea (Bommersbach & Millard, 2019; Borovoy, 2008; Chauliac et al., 2017; Chong & Chan, 2012; De Michele et al., 2013; Domingues-Castro & Torres, 2018; Frankova, 2017; Furlong, 2008; Kondo et al., 2013; Krieg & Dickie, 2013; Lee et al., 2013; Nagata et al., 2013; Roza et al., 2020; Sakamoto et al., 2005; Tateno et al., 2012; Teo, 2013; Teo, Fetters, et al., 2015; Umeda et al., 2012; Watts, 2002; Wu et al., 2019; Zielenziger, 2006). Cabe destacar en estos estudios la heterogeneidad en los criterios de inclusión, definición y diagnósticos asociados, destacando la necesidad, como hemos visto, de unificar y consensuar criterios, y establecer la equivalencia con el *bikikomori* para un mejor estudio y entendimiento del fenómeno.

Además, la descripción de casos en otros países y culturas contradice las teorías que asocian el aislamiento social con factores inherentes a la cultura japonesa (De Michele et al., 2013; Krysinska, 2007; Li & Wong, 2015b; Teo & Gaw, 2010; Tsuda, 2012), sugiriendo que no es un síndrome relacionado sólo con dicha cultura, y dando lugar a nuevas teorías sobre su origen, así como nuevos datos sobre su relación con otros trastornos psiquiátricos (Bommersbach & Millard, 2019; Campbell et al., 2006; Kato et al., 2017; Kato, Shinfuku, Fujisawa, et al., 2011; Kato, Shinfuku, Sartorius, et al., 2011; Koyama et al., 2010; Lee et al., 2013; Li & Wong, 2015; Nagata et al., 2013; Stip et al., 2016; M. Suwa & Suzuki, 2013; Teo, Choi, et al., 2013; Teo, Lerrigo, et al., 2013; Teo, Stufflebam, et al., 2015; Wu et al., 2019). Se ha descrito también que existen diferencias en cuanto a la orientación diagnóstica y tratamiento propuesto entre psiquiatras japoneses y psiquiatras de otros países, en base a diferencias

en la interpretación de la patología y características de los casos de aislamiento social (Kato et al., 2012; Tateno et al., 2012). Por ejemplo, mientras los médicos psiquiatras japoneses sugieren que el tratamiento para estos casos debe realizarse a nivel ambulatorio o incluso que no es necesario realizar ningún tratamiento, psiquiatras de otros países (como Estados Unidos, India, Irán, Corea o Australia) consideran necesario un tratamiento hospitalario, incluso involuntario si fuese necesario (Kato et al., 2012).

En España, Ovejero y colaboradores (Ovejero et al., 2014) propusieron la diferenciación entre los casos de *hikikomori* ligados a la cultura japonesa y los casos observados fuera de Japón, definiendo estos últimos como “trastorno por aislamiento social prolongado”. Estos autores sugirieron que el *hikikomori*, entendido como un trastorno no ligado a la cultura japonesa, puede existir bajo una explicación etiopatogénica compleja. Y por ello, plantearon la distinción entre: 1. Trastorno de aislamiento social prolongado y 2. trastorno por aislamiento social prolongado asociado a la cultura o *hikikomori*. Además, propusieron que debería excluirse el trastorno de aislamiento social prolongado asociado a una enfermedad médica o a otro trastorno mental (como esquizofrenia, agorafobia y trastornos de personalidad) que directamente justificase la presentación clínica. Esta diferenciación y criterio de exclusión no se ha replicado en posteriores estudios sobre aislamiento social.

La progresiva publicación de casos de aislamiento social en diferentes países occidentales ha subrayado la importancia de aclarar las incógnitas sobre el fenómeno de aislamiento social en nuestra sociedad y establecer su equivalencia con *hikikomori*, siendo necesario e importante su estudio a nivel internacional.

2.5 Aislamiento social en nuestra sociedad

En España, nuestro grupo y otros habían descrito hasta la fecha cuatro casos aislados (García-Campayo et al., 2007; Gariup et al., 2008; Malagón et al., 2010; Ovejero et al., 2014). Pero su estudio en profundidad en nuestro ámbito, igual que en otros países, es aún muy escaso y necesario. Además, es probable que los datos relativos a la prevalencia del aislamiento social en nuestro país sean infravalorados debido a la escasez de servicios de atención domiciliaria específicos de salud mental capaces de acceder a estos sujetos (Lee et al., 2013).

2.6 Equipo de atención domiciliaria especializada: EMSE

La década de los años 70 supuso un cambio en el enfoque de la atención psiquiátrica. El cierre de los antiguos psiquiátricos llevó a la necesidad de desarrollar programas de atención del paciente psiquiátrico en la comunidad, tales como los equipos de atención en crisis y unidades móviles, con el objetivo principal de realizar intervenciones y valoraciones en el propio entorno del paciente. Todo

ello con el interés, no sólo del sistema de salud, sino también de organizaciones familiares y otros agentes comunitarios, que defienden y solicitan intervenciones especializadas extrahospitalarias. Este fenómeno se produjo no sólo en nuestro país, sino que existen experiencias diversas desde hace más de 25 años en otros países tales como Francia, Inglaterra, Bélgica, Suiza, Dinamarca, USA, Australia y Nueva Zelanda, con variaciones en función de la escuela psiquiátrica, los recursos humanos, la disponibilidad, la población y las situaciones diana (Alexander & Zealberg, 1999; Chiu & Primeau, 1991; De Clercq & Dubois, 2001; Wheeler et al., 2015). Estas variaciones entre países suponen diferencias notables en su instauración y desarrollo, siendo por ejemplo en Reino Unido un recurso muy extendido y completo, mientras que en España apenas existen programas de atención psiquiátrica especializada domiciliaria, siendo el equipo EMSE de Barcelona pionero en este ámbito.

En el año 2003 se diseña el Equipo Multidisciplinar de Soporte Especializado (EMSE), un programa de colaboración entre el servicio de atención de emergencias y urgencias extrahospitalarias de la ciudad de Barcelona (061), el Instituto de Atención Psiquiátrica: Salud Mental y Toxicomanías (IAPS) - actual Instituto de Neuropsiquiatría y Adicciones (INAD) - y el Instituto Municipal Asistencia Sanitaria de Barcelona (Hospital del Mar. IMAS), - actual Parc de Salut Mar -. El objetivo del EMSE es, por un lado, la atención, tratamiento domiciliario y vinculación de pacientes afectados de trastorno mental severo (TMS) desvinculados o en riesgo de desvinculación de la red de salud mental, y por otro lado valorar conductas sugestivas de enfermedad mental que no han sido evaluadas (tales como conducta de acumulación y conducta de aislamiento social). La finalidad última del programa constituye la vinculación de los pacientes a la red asistencial de salud mental.

Desde la creación del EMSE en 2004, nuestro equipo ha podido evidenciar que el aislamiento social es un motivo de alerta frecuente, mucho más que en otros dispositivos de la red de salud mental. Estos casos de aislamiento social suponen un especial reto para el equipo en diferentes ámbitos. En primer lugar, en la fase inicial de atención domiciliaria, debido a:

- La complejidad del diagnóstico diferencial.
- La dificultad para alcanzar y mantener el vínculo terapéutico, frecuentemente poco colaboradores.
- La dificultad de abordaje y tratamiento domiciliario, con ausencia de tratamientos específicos establecidos, tanto farmacológicos como psicoterapéuticos centrados en la conducta de aislamiento social.

En segundo lugar, en la fase de vinculación, una vez estabilizado y alcanzada una mejoría clínica, encontramos dificultad en facilitar su vinculación a la red de salud mental, con escasos dispositivos específicos para su tratamiento y rehabilitación psicosocial. Esto supone frecuentemente recaídas y abandono del seguimiento ambulatorio.

En esta línea, hemos publicado previamente un caso de aislamiento social muy grave atendido por el EMSE (Malagón et al., 2010), que fue el origen del inicio del presente trabajo de investigación (ver anexo).

A raíz de la experiencia del EMSE en la atención domiciliar especializada en salud mental, y de la necesidad de profundizar en el estudio de la conducta de aislamiento social para poder atender y tratar los casos existentes en el EMSE, surge el origen e interés del presente trabajo de investigación. El equipo EMSE supone una herramienta única en la red de salud mental de nuestro país para poder detectar y tratar estos casos.

2.7 Abordaje terapéutico del aislamiento social

Es un desafío dar soporte y ayudar a las personas que se han aislado de la sociedad durante un largo periodo de tiempo. La guía del Ministerio de Sanidad Japonés de 2010 para el abordaje del *bikikomori* (K. Saito, 2010a) recomendó una intervención de 4 pasos:

- Paso 1: Apoyo familiar, primer contacto con el individuo y su evaluación;
- Paso 2: Inicio del apoyo individual;
- Paso 3: Entrenamiento en situación grupal (como terapia de grupo);
- Paso 4: Prueba de participación social.

Las escasas investigaciones previas sobre el tratamiento del aislamiento social y el síndrome de *bikikomori* han destacado la importancia de la colaboración de la persona y su familia en el plan terapéutico (Kondo et al., 2013), la necesidad de equipos de atención domiciliar especializada (Kondo et al., 2008; Lee et al., 2013) que realicen una intervención temprana y multidisciplinar, una evaluación exhaustiva y un tratamiento individualizado centrado en las dificultades de estos sujetos (Stip et al., 2016; Tateno et al., 2012).

2.7.1 Soporte familiar

Estudios previos destacan la importancia de la colaboración y búsqueda de ayuda y tratamiento por parte de los sujetos (Kondo et al., 2013), demostrando que el éxito en los resultados depende en gran medida de este factor. Sin embargo, es frecuente que la búsqueda de ayuda se demore en el tiempo (de la Calle Real & Muñoz Algar, 2018). Esto es debido, por un lado, a la negativa del propio paciente a buscar y aceptar ayuda, en el contexto de escasa conciencia de enfermedad y de la gravedad de su

situación, considerando a menudo el aislamiento como un estilo de vida. Por otro lado, la familia también presenta resistencia a buscar ayuda, debido a una mezcla de falta de conocimientos (sobre enfermedad mental en general y aislamiento social en particular), y prejuicios sobre la enfermedad mental (Kato et al., 2019; Malagón et al., 2010). A ello se añaden sentimientos de culpa, vergüenza, estigma social, sentimiento de engaño y miedo a interferir en la vida de sus hijos. En algunos casos, los sujetos con aislamiento social pueden presentar conductas violentas, que generan en los padres miedo a las represalias si intervienen y buscan ayuda. Esta dificultad en pedir ayuda por parte de la familia puede cronificar la situación de aislamiento, generar periodos de aislamiento mayores y, por tanto, detectar casos de aislamiento con edades cada vez más avanzadas. Por ello, es importante que los miembros de la familia reciban un adecuado soporte y adquieran el conocimiento y las técnicas adecuadas para tratar con individuos con aislamiento social para una intervención temprana (Kato et al., 2019). En esta dirección, se está desarrollando un programa educacional para padres de sujetos con aislamiento social en Japón (Kato et al., 2019), basado en el Mental Health First Aid (MHFA). El MHFA fue originalmente desarrollado como un curso de 12 horas que explica a los participantes cómo identificar, entender y responder a signos de enfermedad mental y crisis, incluyendo conducta suicida y violenta (Kitchener & Jorm, 2002, 2006). Los cinco pasos son: 1) Acercarse a la persona, evaluar y asistir ante cualquier crisis; 2) Escuchar sin juzgar; 3) Dar soporte e información; 4) Animar a la persona a obtener la ayuda profesional adecuada; y 5) Fomentar otro soporte. Este equipo japonés (Kato et al., 2019) está desarrollando un modelo de apoyo educativo, basado en la evidencia, que permita a los familiares (especialmente a los padres) de personas con aislamiento social obtener habilidades y conocimientos específicos para tratar con ellos, basándose en el MHFA. También, es de interés el refuerzo comunitario y la capacitación familiar (CRAFT) que fue desarrollado originalmente para familiares de individuos con trastornos por uso de sustancias, como un programa de intervención familiar basado en terapia cognitivo-conductual (TCC) (Meyers et al., 1998, 2002). El CRAFT se ha destacado como otra herramienta de intervención poderosa para familiares que tratan con individuos aislados. Estos autores postulan que la combinación de MHFA y CRAFT, junto con otros materiales de intervención, puede proporcionar un enfoque dinámico para la intervención familiar en casos de aislamiento social. Así, recientemente han publicado una intervención familiar de 5 días combinando MHFA y CRAFT, con efectos positivos en la familia para el manejo y soporte de sus familiares aislados (Kubo et al., 2020).

2.7.2 Equipos domiciliarios especializados

Estudios previos han destacado la necesidad de equipos domiciliarios multidisciplinares (que incluyen médicos, enfermeras, psicólogos y trabajadores sociales), con protocolos específicos de atención y tratamiento (Kondo et al., 2008; Lee et al., 2013), con una continuidad con el resto de dispositivos de la red de salud mental bien establecida, así como intervención familiar. En Japón, existen unidades

especializadas en atención al *hikikomori*, tanto en el sistema de salud público como en el privado. Estos equipos utilizan diversas formas de apoyo, tales como consultas telefónicas, 'espacios de reunión' para personas con *hikikomori* y servicios de orientación laboral. Pero, aunque en algunas situaciones se realizan visitas en el domicilio tras la consulta de los padres, aún no es muy frecuente (Kato et al., 2019). En Corea del Sur, existe un programa de visitas domiciliarias para personas aisladas en domicilio, y el único estudio existente sobre un programa piloto ha demostrado su utilidad en la realización de una evaluación psicológica apropiada, así en el acceso más eficiente a los siguientes pasos del tratamiento, incluida la psicoterapia directa. Sin embargo, no existe un método unificado basado en evidencia para estas intervenciones. Por ello, el desarrollo de un enfoque efectivo de visitas domiciliarias puede ser importante en el apoyo de los enfermos de *hikikomori* (Kato et al., 2019).

El desarrollo de un programa de atención domiciliaria ha demostrado su utilidad en el acceso y tratamiento del *hikikomori*. En nuestro entorno no existían, hasta el inicio del presente trabajo de investigación, estudios sobre tratamiento domiciliario de casos de aislamiento social.

2.7.3 Evaluación específica

La evaluación del sujeto con aislamiento social desde un modelo biopsicosocial debe incluir una gran variedad de aspectos, tales como la edad de inicio del aislamiento, eventos vitales desencadenantes, severidad del aislamiento (duración, frecuencia de salida de la habitación o casa, el tipo de contacto con familia o amigos, etc.). En este sentido, con el objetivo de definir, unificar criterios y facilitar el estudio del aislamiento social, se ha desarrollado un cuestionario auto-registrado de 25 ítems (Teo et al., 2018) que facilita la evaluación.

Para evaluar la posible patología comórbida existente se deben realizar entrevistas diagnósticas psiquiátricas basadas en el DSM-5/ICD-11. Se recomienda llevar a cabo una evaluación psicométrica que evalúe la personalidad, el apego y la tendencia a la adicción a Internet (Tateno et al., 2016, 2018).

Para evaluar las características de comportamiento, los juegos económicos, especialmente los juegos de confianza, pueden evaluar la toma de decisiones inconscientes y, en consecuencia, estimar las relaciones interpersonales (Watabe et al., 2015).

Para entender las bases biológicas del aislamiento social pueden realizarse evaluaciones biológicas tales como análisis de sangre y análisis funcional cerebral (Kato et al., 2019).

2.7.4 Enfoque terapéutico

En función de los resultados de la evaluación familiar y personal, se decidirá el abordaje terapéutico más oportuno. Así, si existe un trastorno mental comórbido, se deberá seguir la guía de práctica clínica para dicho trastorno, utilizando intervenciones farmacológicas, psicoterapéuticas y psicosociales adecuadas, incluyendo la hospitalización si existe un deterioro funcional importante en la persona (Stip et al., 2016). En la mayoría de los casos de aislamiento, está indicado realizar no sólo farmacoterapia, sino su combinación con soporte psicosocial.

Tateno y colaboradores sugieren la diferenciación del *bikikomori* en tres grupos en función de la patología comórbida y las opciones terapéuticas, basado en un estudio realizado con encuestas a psiquiatras de diferentes países (Tateno et al., 2012):

- 1) Pacientes con diagnósticos tales como esquizofrenia, trastornos afectivos o de ansiedad, que responderían bien a tratamientos biológicos (como psicofarmacoterapia);
- 2) Pacientes con trastornos del neurodesarrollo como TEA o retraso mental, que necesitarían un abordaje psicológico incluyendo entrenamiento en habilidades sociales;
- 3) Pacientes con trastornos de personalidad, rasgos de personalidad desadaptativos o problemas de identidad, que pueden tener trastornos psiquiátricos comórbidos, como trastornos del estado de ánimo o ansiedad, que necesitarían recibir psicoterapia, apoyo social y vocacional. Este último grupo puede no responder bien a la psicofarmacología a pesar de presentar un trastorno primario de ansiedad o del estado de ánimo.

Li y Wong (Li & Wong, 2015a) proponen que las actuales terapias, intervenciones y programas para jóvenes que se aíslan socialmente comprendan:

- Enfoques terapéuticos: Mediante una intervención temprana, hospitalización, farmacoterapia, antidepresivos y medicina tradicional china. Los terapeutas les ayudan a entender sus propias situaciones psicológicas y los traumas relacionados con el apego en el pasado. Algunos servicios proveen counselling, psicoterapia y psicoanálisis. También se han utilizado la terapia familiar, la nidoterapia y la terapia narrativa.
- Enfoques sociales: A través de actividades grupales y de apoyo, las cuales ofrecen oportunidades a estos jóvenes para socializar con otras personas. Gradualmente irán formando parte de actividades sociales. Se organizan grupos en sintonía con otros chicos, vigilando los mensajes y el riesgo de etiquetas estigmatizantes.
- Enfoques educativos: Los educadores y trabajadores sociales proporcionan entrenamiento en habilidades sociales, manejo de emociones, habilidades interpersonales, entrenamiento laboral y

ayuda para la búsqueda de empleo. En este sentido, se buscan oportunidades laborales con horarios de trabajo flexible dentro de una organización con apoyos (de la Calle Real & Muñoz Algar, 2018).

En relación al tratamiento a largo plazo y el pronóstico del *hikikomori*, existe escasa información. Kondo y colaboradores (Kondo et al., 2013) observaron que sólo el 15.3% de los sujetos conseguía participar socialmente después de 21.7 meses de tratamiento.

2.7.5 Psicoterapia

La psicoterapia (Teo, Fetters, et al., 2015), bien individual, grupal o familiar (Kato et al., 2012; Kondo et al., 2007), orientada al ejercicio (jogging) (Nishida et al., 2016) así como asistida por animales (P. W. C. Wong et al., 2019), se han propuesto como opciones terapéuticas. Estudios previos han observado que, pese a un largo periodo de aislamiento, los sujetos prefieren el tratamiento en persona a la forma telemática (Teo, Fetters, et al., 2015). Algunos autores (Kato et al., 2019; Ranieri, 2018) proponen que los enfoques psicodinámicos individuales/grupales son especialmente efectivos para las personas con *hikikomori* para resolver sus dificultades en las relaciones interpersonales con los miembros de la familia y los futuros colegas de la escuela/lugar de trabajo en el mundo exterior.

2.7.6 Farmacoterapia

En relación al tratamiento farmacológico, apenas existen estudios. En función de la existencia de psicopatología comórbida, se debe realizar el tratamiento farmacológico adecuado. Se ha descrito un caso de tratamiento exitoso con paroxetina en un paciente con TOC que estuvo recluido durante 10 años en su habitación; sin embargo, no está claro si era un *hikikomori* primario (Teo, 2010). Nuestro equipo publicó un caso de aislamiento social durante 25 años afecto de TOC que fue hospitalizado y tratado con fluvoxamina y risperidona, con buena evolución clínica (Malagón et al., 2010).

2.7.7 Tratamiento online

La dificultad de estos sujetos para salir del domicilio ha motivado el planteamiento de la idoneidad de un abordaje on-line como primer paso para iniciar un tratamiento. En 2016, Tateno y colaboradores publicaron (Tateno, Skokauskas, et al., 2016) la posible utilidad de un juego online, Pokemon Go, consistente en salir a la calle a buscar Pokemons. Se publicó un caso que era casi incapaz de salir del domicilio y, a través de este juego, comenzó a salir (Kato et al., 2017), pero tras unos meses, abandonó el juego por aburrimiento y por tanto, el efecto de mejora en la salida del domicilio fue breve. A pesar de ello, algunos autores (Kato et al., 2019) consideran que el enfoque del tratamiento del *hikikomori* basado en esta tecnología tendría la posibilidad de ser efectivo durante

las primeras etapas del aislamiento. Plantean que sería particularmente útil el desarrollo de herramientas a través de la colaboración industria-investigación. De todos modos, es importante destacar que estudios previos (Teo, Fetters, et al., 2015) han observado que los sujetos afectados de *bikikomori* muestran preferencia por el tratamiento directo en persona en lugar del tratamiento con cámaras web o tecnologías similares, por lo que debería ser individualizado y en función de las preferencias del sujeto.

Se ha planteado también la utilidad de robots similares a mascotas, tales como robot-perros. Estos robots se han utilizado para el tratamiento de dificultades sociales en diferentes trastornos mentales, tales como autismo y demencia (Kumazaki, Warren, et al., 2018; Kumazaki, Yoshikawa, et al., 2018; Tamura et al., 2004). Kato y colaboradores proponen que estos robots podrían ser de utilidad en el tratamiento de la soledad, especialmente en personas que viven solas aisladas (Kato et al., 2019), como un primer paso para incrementar sus interacciones sociales y sociabilidad.

2.7.8 Tratamiento biológico

No existe ninguna investigación sobre el tratamiento biológico del *bikikomori*, siendo necesarios ensayos clínicos que clarifiquen la efectividad de diferentes agentes terapéuticos. Se han postulado como factores contribuyentes del aislamiento social la inflamación y el estrés oxidativo (Hayakawa et al., 2018), por lo que agentes antiinflamatorios y/o antioxidantes podrían ser útiles, pero no existe evidencia científica en la actualidad. La minociclina, un antibiótico que tiene un efecto supresor de la microglía, tiene también un efecto en la toma de decisiones sociales en momentos de fuerte estrés social (Kato, Watabe, et al., 2012; Watabe et al., 2012, 2013), por lo que se postula que estos agentes dirigidos a la activación microglial también pueden funcionar para resolver la conducta de aislamiento social (Kato et al., 2019). Como vemos, es necesario realizar más investigación sobre los posibles tratamientos biológicos del aislamiento social.

En la actualidad son muchos los interrogantes en el tratamiento del aislamiento social, desde cómo detectar y apoyar a la familia, cómo conseguir la colaboración de los sujetos aislados, qué dispositivos terapéuticos deben intervenir -incluyendo el papel de los equipos de atención domiciliaria-, así como qué terapias -farmacológicas, psicoterapéuticas y otras más novedosas- son las más adecuadas para poder ayudar a estas personas.

3 JUSTIFICACIÓN DEL ESTUDIO

3 JUSTIFICACIÓN DEL ESTUDIO

El interés en el estudio del aislamiento social y la realización de la presente Tesis Doctoral surge de la experiencia profesional en el equipo EMSE, durante los años 2008 y 2016. En dicho equipo de atención domiciliaria, de forma muy frecuente existían casos cuyo principal motivo de consulta era la conducta de aislamiento social. Habitualmente, la familia alertaba de la situación: su familiar estaba aislado en el domicilio desde hacía tiempo, sin comunicarse con nadie, y muchas veces sin un diagnóstico previo de enfermedad mental. Y nos encontrábamos ante el reto de acudir a su domicilio para romper ese aislamiento y ayudar a la persona a salir de él. Este objetivo suponía una gran complejidad y dificultad, por diferentes motivos. En primer lugar, la familia frecuentemente sentía ambivalencia y se negaba a que acudiésemos a su casa, por miedo a las represalias o a “fallar” y “engañar” a su familiar, cronificando aún más la situación. Segundo, una vez llegados al domicilio, existía una gran dificultad para comunicarnos con el paciente (incluso a través de la puerta de su habitación) y poder ayudarle, ya que no era consciente de la gravedad de su situación y/o no colaboraba con el plan terapéutico propuesto. En tercer lugar, la inexistencia de bibliografía previa ni guías de práctica clínica sobre el abordaje domiciliario de los casos de aislamiento social suponía un reto e improvisación en muchas ocasiones sobre cuál y cómo era la mejor forma de tratar y ayudar a estas personas a romper la dinámica de aislamiento y reanudar la vida social. Cuarto, cuando tras muchas visitas al domicilio conseguíamos la confianza del paciente y familia, establecíamos un vínculo terapéutico, realizábamos una valoración diagnóstica y un tratamiento, y el paciente comenzaba a mejorar, nos encontrábamos con la dificultad en la vinculación a los dispositivos de la red de salud mental existentes. Frecuentemente, los sujetos eran reticentes a acudir a un seguimiento ambulatorio, y, además, estos dispositivos no disponían de programas específicos centrados en el aislamiento social, su rehabilitación y reintegración social, observando recaídas frecuentes y aislándose de nuevo al poco tiempo.

Los casos de aislamiento social que consultaban en el EMSE eran frecuentes y suponían un difícil reto profesional. Ante todas estas dificultades, iniciamos una búsqueda bibliográfica sobre la conducta de aislamiento en salud mental, observando la escasa evidencia científica existente, centrándose la mayoría de las investigaciones en el síndrome de *hikikomori* en Japón. Existían lagunas de conocimiento muy importantes en su prevalencia, curso evolutivo, causas y tratamiento. Por todo ello, surgió el interés y la necesidad de la presente Tesis Doctoral, con el objetivo de profundizar en el estudio de la conducta de aislamiento social, y poder ayudar a estas personas a salir de su encierro.

4 OBJETIVOS E HIPÓTESIS

4 OBJETIVOS E HIPÓTESIS

Objetivos

1. El **objetivo principal** de la presente Tesis es la caracterización clínica y sociodemográfica del fenómeno de aislamiento social en nuestro entorno y determinar su equivalencia con el síndrome de *hikikomori*.

Objetivos específicos:

2. Determinar la naturaleza sindrómica versus diagnóstica del aislamiento social, también llamado *hikikomori*, y determinar los síntomas y características necesarias para establecer la presencia del síndrome o diagnóstico.
3. Determinar los posibles diferentes subtipos del aislamiento social y su posible correspondencia con entidades diagnósticas ya descritas.
4. Describir la evolución a largo plazo tras diferentes abordajes terapéuticos en el aislamiento social.
5. Determinar los factores familiares relacionados con la presencia del aislamiento social.

Hipótesis

1. La hipótesis principal del presente proyecto es que la conducta de aislamiento social es equiparable al llamado *hikikomori*, y que existe no sólo ligado a la cultura japonesa, sino también en nuestra sociedad.
2. La conducta de aislamiento social constituye un síndrome grave, comórbido a diferentes trastornos mentales. No representa una nueva categoría diagnóstica.
3. El aislamiento social se puede dividir en varios subtipos: en función de la patología comórbida, la edad, el tiempo de aislamiento y en función de la colaboración con el tratamiento. Además, estas variables basales tienen relevancia en la respuesta a la intervención y el pronóstico, obteniendo peores resultados en aquellos casos con escasa colaboración, mayor tiempo de aislamiento y mayor edad.
4. El aislamiento social tiene una mejor evolución a largo plazo tras un tratamiento intensivo. Los sujetos que reciben un tratamiento convencional breve presentarán una peor evolución.
5. Existe una asociación entre el aislamiento social y factores familiares. El aislamiento no está únicamente relacionado con factores culturales ligados a la sociedad japonesa.

5 MATERIAL Y MÉTODO

5 MATERIAL Y MÉTODO

El proyecto de trabajo de esta Tesis Doctoral consta de tres fases a las que corresponde cada uno de los tres artículos de investigación de los que está formada. Dichos artículos están publicados en revistas internacionales indexadas en las principales bases de datos bibliográficas científicas.

- A. En la primera fase se realizó un estudio descriptivo transversal de las características clínicas, sociodemográficas y de manejo terapéutico de los pacientes atendidos por aislamiento social por el EMSE entre los años 2008 y 2013, dando lugar a la publicación del artículo *“Hikikomori in Spain: a descriptive study”*, en la revista *International Journal of Social Psychiatry* (Impact Factor 1.613) (Malagón-Amor et al., 2015).
- B. En una segunda fase, se realizó un estudio prospectivo observacional, a lo largo de doce meses, de la evolución clínica y terapéutica de los pacientes con aislamiento social atendidos por el EMSE desde el 2008 hasta 2014, tras ser vinculados a la red de salud mental, siendo publicado el artículo *“A 12-month study of the hikikomori syndrome of social withdrawal: Clinical characterization and different subtypes proposal”* en la revista *Psychiatry Research* (Impact Factor 2.682) (Malagón-Amor et al., 2018).
- C. En la tercera fase, se realizó un análisis prospectivo observacional de los factores familiares relacionados con el aislamiento social en 190 casos atendidos por el EMSE desde el 2008 hasta el 2014. Estos resultados han sido publicados en el artículo *“Family Features of Social Withdrawal Syndrome (Hikikomori)”* en la revista *Frontiers in Psychiatry* (Impact Factor 3.161) (Malagón-Amor et al. 2020).

En concreto, el método utilizado para llevar a cabo los diferentes objetivos del estudio fue el siguiente:

1. En base al objetivo principal del proyecto de caracterización clínica y sociodemográfica del fenómeno de aislamiento social en nuestro entorno y determinación de su equivalencia con el síndrome de *hikikomori*, se realizó un estudio descriptivo transversal de las características clínicas y sociodemográficas, así como de manejo terapéutico, de los pacientes atendidos por aislamiento social por el EMSE entre los años 2008 y 2013 (Malagón-Amor et al., 2015).
2. Para poder alcanzar el segundo objetivo del proyecto se investigó la existencia y características de la patología comórbida psiquiátrica en estos sujetos (Malagón-Amor et al., 2015, 2018). A su vez, se analizaron sus características clínicas y síntomas esenciales, con el propósito de analizar su naturaleza sindrómica versus diagnóstica, y aportar datos objetivos que ayuden a alcanzar un consenso internacional en su definición y criterios diagnósticos.

3. En función de los hallazgos obtenidos sobre existencia de comorbilidad, de la gravedad clínica evaluada mediante escalas clínicas, de las opciones terapéuticas realizadas y la evolución a 12 meses, se evaluó el tercer objetivo del estudio, planteando la posibilidad de realizar una propuesta teórica de clasificación del aislamiento social por subtipos. Se analizaron los posibles subtipos en función de las variables patología comórbida, edad, tiempo de aislamiento y colaboración con el tratamiento. A su vez, se analizó la asociación de dichas variables con la gravedad del aislamiento y la evolución a lo largo de 12 meses (Malagón-Amor et al., 2018).
4. Para realizar el cuarto objetivo del estudio, se llevó a cabo un análisis prospectivo observacional durante 12 meses de la situación clínica, grado de aislamiento y vinculación al dispositivo de salud mental responsable de los pacientes tras ser vinculados a los diferentes dispositivos de la red de salud mental tras la intervención en domicilio del EMSE (Malagón-Amor et al., 2018).
5. En relación al quinto objetivo, se analizó la asociación entre el aislamiento social y diferentes variables familiares tales como antecedentes psiquiátricos familiares, dinámicas familiares disfuncionales, familia monoparental y maltrato en la infancia, así como la colaboración de la familia en la detección y tratamiento de los pacientes. Se evaluó la asociación de los factores familiares con la gravedad del aislamiento y con la evolución a 12 meses (Malagón-Amor et al., 2020).

Las características de la muestra, el diseño y los procedimientos estadísticos están exhaustivamente descritos en cada uno de los artículos originales. En este apartado se exponen los aspectos más relevantes.

5.1 Participantes

Los participantes fueron 1733 personas atendidas en el domicilio por el EMSE durante los años 2008 y 2014. De ellas, se seleccionaron aquellos sujetos cuyo motivo de consulta principal era la conducta de aislamiento social. En la primera fase del estudio, entre los años 2008 y 2013, se evaluaron 164 casos en el domicilio (Malagón-Amor et al., 2015). En la segunda fase, centrada en los casos detectados entre 2008 y 2014, se evaluaron 190 pacientes en el domicilio (Malagón-Amor et al., 2018). Debido a la negativa de la familia a que acudiésemos a una primera visita del paciente en el domicilio, 34 casos no pudieron ser evaluados.

Los criterios de inclusión fueron (Tateno et al., 2012; Teo, Fetters, et al., 2015; Teo & Gaw, 2010; Teo, Stufflebam, et al., 2015):

1. Pasar la mayor parte del día y casi todos los días en el hogar;
2. Evitar las situaciones sociales, tales como asistir a la escuela o ir a un lugar de trabajo;

3. Evitar las relaciones sociales, como amistades o contactos con miembros de la familia;
4. Malestar o deterioro significativo debido al aislamiento social.
5. Duración mínima de 6 meses.

Es importante destacar que éstos criterios debían ser los primarios y más predominantes sobre otros síntomas, en caso de que existiesen.

*Criterios de inclusión adicionales: mayores de 12 años y ausencia de enfermedad neurológica grave.

5.2 Procedimiento

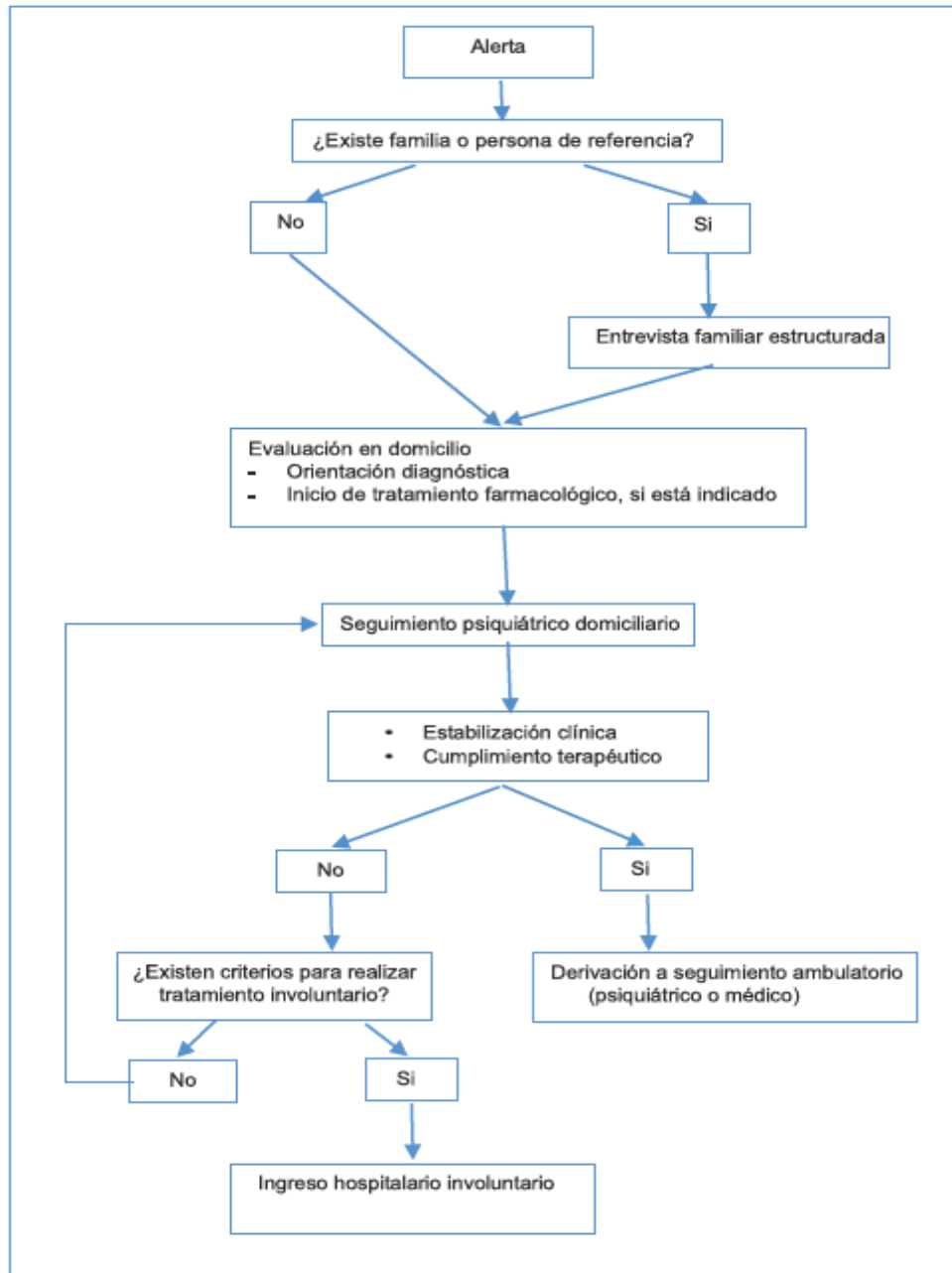
Se recogieron de forma protocolizada los datos sociodemográficos y clínicos. Los datos sociodemográficos incluyeron: edad, sexo, datos académicos y laborales, situación familiar y red social. Los datos clínicos incluyeron el dispositivo que deriva al EMSE (Centros de Atención Primaria, Centros de Salud Mental, Servicios Sociales, Servicios de Urgencias Médicas y Psiquiátricas), antecedentes personales psiquiátricos, de consumo de tóxicos y de hospitalización. También se evaluó el período de aislamiento social y la edad en que se inicia. Se analizó la presencia de antecedentes de conducta suicida, heteroagresividad, así como la existencia de conducta de adicción a internet. Se evaluaron variables familiares tales como: antecedentes familiares psiquiátricos -distinguiendo y especificando los diagnósticos de la madre y el padre-, familia monoparental, antecedentes de maltrato familiar en la infancia y existencia de dinámicas familiares disfuncionales. Familia disfuncional se definió como aquella en la cual las interrelaciones distorsionan la salud emocional y física y el bienestar de sus miembros, con continuos conflictos e inestabilidad, con rasgos tales como comunicación escasa, excesivo control, perfeccionismo, escasa empatía y excesiva crítica. La red social se evaluó de acuerdo con los criterios desarrollados por nuestro equipo basados en nuestra experiencia clínica: 1) relación nula, 2) relación con la familia con la que convive, 3) relación con algún amigo fuera del hogar y 4) relación social normalizada.

Se realizó una orientación diagnóstica de cada caso por parte de los dos psiquiatras del EMSE, recibiendo un diagnóstico de acuerdo con el DSM-IV-TR. Se agruparon los principales trastornos mentales en seis categorías: trastornos psicóticos, afectivos, ansiedad, abuso de drogas, personalidad y otros diagnósticos del Eje I. Se registró el tratamiento pautado, número de visitas domiciliarias realizadas y dispositivo de salud al que se derivó tras la finalización del tratamiento domiciliario. Se evaluó la gravedad clínica psiquiátrica mediante: la Escala de Gravedad de la Enfermedad Psiquiátrica (GEP), Escala de Evaluación de Actividad Global (EEAG), Escala de Impresión Clínica Global (ICG), Escala de Evaluación de Agresividad y Violencia (AVAT), Escala de Agresividad Manifiesta (OAS) y Escala de Discapacidad de la Organización Mundial de la Salud (WHO/DAS).

El proceso de reclutamiento está mostrado en la figura 1 del artículo "*Hikikomori in Spain: a descriptive study*". Cuando un caso era derivado el EMSE, se realizaba una primera entrevista en el hospital con la familia o cuidador, si existía, para recoger la historia médica y psiquiátrica, los datos sociodemográficos, determinar cuál era la situación clínica y coordinar la visita domiciliaria. Una vez en el domicilio, se realizaba una orientación diagnóstica y se pautaba un tratamiento farmacológico si era necesario. Posteriormente se realizaban varias visitas domiciliarias, habitualmente con periodicidad semanal, hasta la estabilización clínica, siendo la media de visitas 4, con un amplio rango de 1 a 21 visitas. Posteriormente, una vez que se alcanzaba una mejoría clínica adecuada, existía un cumplimiento terapéutico, y el paciente aceptaba continuar con tratamiento en régimen no domiciliario, se coordinaba su derivación con el dispositivo más adecuado (centro de salud mental, hospital de día, centro de atención primaria, etc.), confirmando que el paciente se vinculaba de forma adecuada. Si no se alcanzaba una mejoría clínica y/o no era posible continuar el tratamiento domiciliario, y existían criterios para un tratamiento involuntario (riesgo autolítico, de agresión o fuga, nula colaboración con el tratamiento, juicio de realidad alterado), se coordinaba un traslado involuntario al hospital de referencia para ingreso involuntario y tratamiento. En los casos en que no se alcanzaba una mejoría clínica con el abordaje domiciliario y se consideraba indicado un tratamiento hospitalario, y el paciente lo aceptaba voluntariamente, se coordinaba dicho ingreso en el hospital de referencia.

En la revisión de la vinculación a los 4, 8 y 12 meses se realizó de manera protocolizada una evaluación del grado de aislamiento en dichos momentos, el número de visitas con profesional médico, psicólogo, enfermero y de trabajo social realizado. Se evaluó su estado clínico mediante las escalas EEAG y WHO/DAS. En los casos de abandono del seguimiento, se evaluó el motivo, así como la posibilidad de reactivar el caso en domicilio por el equipo EMSE.

Figura 1. Procedimiento de reclutamiento y atención domiciliar del EMSE.



5.3 Análisis estadístico

En la primera fase del proyecto, para la caracterización clínica y sociodemográfica del fenómeno de aislamiento social (**primer objetivo**), se realizó un análisis descriptivo de los datos sociodemográficos y clínicos de la muestra. Se utilizó un análisis unidireccional Kruskal-Wallis de la varianza para examinar la asociación entre el grupo diagnóstico y el periodo de aislamiento. Para examinar la asociación entre las escalas administradas y el periodo de aislamiento, se realizó un análisis univariante mediante correlación de Pearson y posteriormente un análisis de regresión controlando por variables

sociodemográficas como edad y sexo. Para más detalles, ver artículo *“Hikikomori in Spain: a descriptive study”*, en la revista *International Journal of Social Psychiatry* (Malagón-Amor et al., 2015).

En la segunda fase, para determinar la naturaleza sindrómica versus diagnóstica del aislamiento social (**segundo objetivo**), se realizó un análisis descriptivo de la comorbilidad psiquiátrica de la muestra. En segundo lugar, para determinar los posibles diferentes subtipos del aislamiento social en función de la evolución y su posible correspondencia con entidades diagnósticas ya descritas (**tercer objetivo**): Primero: se seleccionaron las características clínicas y sociodemográficas a nivel basal que correlacionaron significativamente, en análisis univariado mediante el coeficiente de correlación de Pearson, con medidas de funcionamiento a lo largo del seguimiento. A tal fin, las medidas de funcionamiento durante el seguimiento fueron: persistencia del aislamiento social, la mejora de la condición de aislamiento social, la red social, el seguimiento en servicios médicos responsables y las puntuaciones de EEAG y WHODAS. Segundo: se realizaron diferentes modelos de regresión utilizando las variables de funcionamiento durante el seguimiento como variables dependientes, y las variables clínicas y sociodemográficas previamente seleccionadas en el análisis univariante, como variables independientes. Además, los diagnósticos se dividieron en un grupo de trastorno de ansiedad-afectivo vs el resto de diagnósticos debido a las similitudes en las variables de referencia dentro de estos grupos. La evolución en el tiempo de las variables de funcionamiento durante el seguimiento se analizó mediante ecuaciones de estimación generalizadas con una estructura de correlación de trabajo intercambiable. Se evaluó el efecto en la evolución a 12 meses de la presencia/ausencia de diagnóstico ansiedad-afectivo introduciendo un término de interacción (tiempo por visita). Para describir la evolución a largo plazo tras diferentes abordajes terapéuticos en el aislamiento social (**cuarto objetivo**), se compararon mediante chi-cuadrado para variables cualitativas y t-student para variables cuantitativas, los casos que requirieron hospitalización versus derivación a dispositivo ambulatorio en términos de funcionamiento a lo largo del seguimiento. Los análisis se realizaron utilizando Stata (versión 14) y SPSS 24 (SPSS, Chicago, IL, EE. UU.). Más detalles en el artículo *“A 12-month study of the hikikomori syndrome of social withdrawal: Clinical characterization and different subtypes proposal”* publicado en la revista *Psychiatry Research* (Malagón-Amor et al., 2018).

En la tercera fase, para determinar los factores familiares relacionados con la presencia del aislamiento social (**quinto objetivo**), primero se realizó un análisis descriptivo de la muestra basal. Se realizó un análisis específico sobre los antecedentes familiares separando por progenitor (padre vs madre). Segundo, se realizó un análisis univariado entre las características familiares y las medidas de severidad del aislamiento utilizando coeficiente de correlación de Pearson. Tercero, para evaluar la interacción entre las variables familiares que predicen severidad, las variables seleccionadas se ensayaron para determinar las correlaciones entre ellas. Finalmente, para determinar el nivel de agrupamiento dentro de este conjunto de variables familiares, las variables seleccionadas se introdujeron en dos análisis de

agrupamiento jerárquico separados: primero, el conjunto de datos de los sujetos para las variables seleccionadas se convirtió en una matriz de distancias euclidianas. Esta matriz se ingresó en un modelo de agrupación usando promedios como criterios de agrupación. Se repitió el mismo procedimiento para las variables seleccionadas, excepto que la matriz de distancia se creó restando el cuadrado de la matriz de correlación a uno. Los dos dendrogramas resultantes se representaron entre sí para visualizar la correspondencia de la agrupación de sujetos y variables. El dendrograma de los sujetos se cortó en tantos grupos como la visualización subjetiva del dendrograma sugirió. Los análisis se realizaron utilizando SPSS 24 (SPSS, Chicago, IL, EE. UU.), excepto el análisis de grupo que se realizó en R (RStudio, v. 1.1.423 - © 2009-2018 RStudio, Inc.). Ver más detalles en el artículo “*Family Features of Social withdrawal syndrome (Hikikomori)*” en la revista *Frontiers in Psychiatry* (Malagón-Amor et al., 2020).

5.4 Declaración de Ética

El estudio se realizó de acuerdo con las recomendaciones del Comité Ético de Investigación Clínica (CEIC) del Parc de Salut Mar Barcelona, de conformidad con el Código de Ética de la Asociación Médica Mundial (Declaración de Helsinki). Los datos registrados y analizados fueron extraídos, de forma anónima, del seguimiento clínico rutinario realizado en el equipo EMSE, no habiéndose utilizado exploraciones complementarias adicionales ni habiendo ensayado ninguna intervención o tratamiento para este estudio. Se siguieron los principales principios descritos en la Declaración de Helsinki y el protocolo final fue aprobado por el CEIC del Parc de Salut Mar.

6 RESULTADOS

6 RESULTADOS

6.1 Primer estudio

Malagón-Amor, Á., Córcoles-Martínez, D., Martín-López, L. M., & Pérez-Solà, V. (2015). *Hikikomori* in Spain: A descriptive study. *International Journal of Social Psychiatry*, 61(5), 475–483.

<https://doi.org/10.1177/0020764014553003>

OBJETIVOS E HIPÓTESIS DEL ESTUDIO:

Objetivo 1: Caracterización clínica y sociodemográfica del fenómeno de aislamiento social en nuestro entorno y determinar su equivalencia con el síndrome de *hikikomori*.

Hipótesis 1: La conducta de aislamiento social es equiparable al llamado *hikikomori*, y existe no sólo ligado a la cultura japonesa, sino también en nuestra sociedad.

Objetivo 2: Determinar la naturaleza sindrómica versus diagnóstica del aislamiento social, también llamado *hikikomori*, y determinar los síntomas y características necesarias para establecer la presencia del síndrome o diagnóstico.

Hipótesis 2: La conducta de aislamiento social constituye un síndrome grave, comórbido a diferentes trastornos mentales. No representa una nueva categoría diagnóstica.

La publicación de este artículo ha supuesto el primer estudio europeo que describe las características sociodemográficas y clínicas de un grupo amplio de casos afectados de aislamiento social en nuestra sociedad, alcanzando el primer objetivo del proyecto de Tesis Doctoral.

En relación al **primer objetivo**, los sujetos evaluados presentaron los mismos criterios y características que el síndrome de *hikikomori*. Los casos de aislamiento social en nuestro medio fueron más frecuentes en hombres adultos jóvenes (edad media: 36.6 años), con antecedentes psiquiátricos, que convivían con su familia -quien es la que alertó del problema-, con una red social nula y con una duración muy variable (de 6 meses a 30 años, con una media de 40 meses). La puntuación en las escalas administradas mostró una elevada gravedad clínica y discapacidad, siendo mayoritaria la escasa conciencia de trastorno y poca colaboración con el tratamiento.

Respecto al **segundo objetivo** del proyecto, destacó la alta frecuencia de comorbilidad asociada (98% casos), siendo los trastornos de ansiedad, psicóticos y afectivos los más frecuentes.

Los criterios diagnósticos fueron similares a los más ampliamente aceptados para el *hikikomori*:

- A. Aislamiento físico: Pasar la mayor parte del día y casi todos los días en el hogar;
- B. Evitación de la participación social: Evitar las situaciones sociales, tales como asistir a la escuela o ir a un lugar de trabajo;
- C. Evitación de las relaciones sociales: Evitar las relaciones sociales, como amistades o contactos con miembros de la familia;
- D. Malestar o deterioro significativo debido a aislamiento social.
- E. Duración mínima de 6 meses.

*NOTA. Según normativa y debido a que la publicación no se encuentra disponible en Open Access, se adjunta la última versión previa a la concesión de los derechos de autor a la revista *International Journal of Social Psychiatry*. Reproducido con permiso de SAGE Publications.

<https://doi.org/10.1177/0020764014553003>

Original article

***Hikikomori* in Spain: A descriptive study**

Ángeles Malagón-Amor^{1,2}, David Córcoles-Martínez¹, Luis M Martín-López¹ and Víctor Pérez-Solà^{1,3}

¹ Institute of Neuropsychiatry and Addictions (INAD), Parc de Salut Mar, Barcelona, Spain

² Department of Psychiatry and Forensic Medicine, Universitat Autònoma de Barcelona, Barcelona, Spain

³ Centro de Investigación Biomédica En Red de Salud Mental (CIBERSAM), Barcelona, Spain

Corresponding author:

Ángeles Malagón Amor, Institute of Neuropsychiatry and Addictions (INAD), Parc de Salut Mar, Passeig Marítim 25, 08003 Barcelona, Spain. Email: 95451@parcdesalutmar.cat

Abstract

Background: Social withdrawal behaviour is a major health problem that is becoming increasingly important, being necessary studies that investigate its psychopathology and existence in different cultures.

Aims: To describe the clinical and socio-demographic characteristics of *hikikomori* individuals in Spain.

Method: Participants were 200 subjects referred to the Crisis Resolution Home Treatment (CRHT) because of social isolation. The definition of *hikikomori* was the state of avoiding social engagement with generally persistent withdrawal into one's residence for at least 6 months. Socio-demographic and clinical data were analysed, including Severity of Psychiatric Illness (SPI), Global Assessment of Functioning (GAF), Clinical Global Impression (CGI) and World Health Organization Disability Assessment (WHODAS) scales.

Results: A total of 164 cases were evaluated. *Hikikomori* were predominantly young male, with the mean age at onset of *hikikomori* of 40 years old and a mean socially withdrawn period of 3 years. Only three people had no symptoms suggestive of mental disorder. Psychotic and anxiety were the most common comorbid disorders. The scales administered describe the presence of serious symptoms and impairment in social functioning, with a high prevalence of poor collaboration with treatment.

Conclusion: This study shows the existence of *hikikomori* in Spain. Its difficult detection and treatment highlights the need for specialized domiciliary teams. The high comorbidity leads us to conclude that it may not be a new diagnosis, but rather a severe syndrome associated with

multiple mental illnesses. Primary *hikikomori* also exist, but less commonly. Future cross-national studies are needed in order to describe its definition and psychopathology.

Keywords

Hikikomori, social withdrawal, social isolation, home visitation programme, diagnosis

Introduction

Social withdrawal behaviour is a major health problem that is becoming increasingly important in the last years. First described in Japan as ‘*Hikikomori Syndrome*’, it is described as a psychopathological and sociological phenomenon in which people, especially youth, become completely withdrawn from society for at least 6 months, with a lifestyle centred at home, with no interest or willingness to attend school or work (Kaneko, 2006; Kato et al., 2012; Saito, 1998; Tateno, Park, Kato, Umene-Nakano, & Saito, 2012; Teo, 2010; Watts, 2002). Previous studies describe a high prevalence in Japan, of 1.2% in people of 20–49 years old, and 2% between 20 and 29 years old (Koyama et al., 2010). In those studies, it has been suggested that *hikikomori* is a psychopathology highly comorbid with psychiatric disorders (33%–54.5%), such as depression, anxiety, personality and psychotic disorders (Koyama et al., 2010; Teo, 2010). These subjects had 6.1 times higher risk of lifetime comorbidity of a mood disorder. However, Koyama et al. (2010) described in a community population in Japan that about a half of cases with *hikikomori* were free from a psychiatric disorder, defined as ‘primary *hikikomori*’, different from those ‘secondary *hikikomori*’, where it is secondary to other psychopathology. This suggests that a certain proportion of *hikikomori* cases may be a social and behavioural problem resulting from an interaction between individuals, family and society, not a symptom of psychiatric disorder (Koyama et al., 2010; Teo, 2013).

Although *hikikomori* has been first described in Japan, there is debate whether it exists in other cultures. It has been proposed as if it is a Japanese culture-bound phenomenon, as if it is a syndrome that can be classified using International Classification of Diseases, 10th Edition (ICD-10) or *Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders* (4th ed., text rev.; DSM-IV-TR; Borovoy, 2008; Teo, 2010; Teo & Gaw, 2010), or as if it is a new independent mental disorder (Teo & Gaw, 2010). Cases of *hikikomori* have been reported in other countries, such as Omán, Italy, Spain, India, the United States and Korea (Aguglia, Signorelli, Pollicino, Arcidiacono, & Petralia, 2010; Garcia-Campayo, Alda, Sobradiel, & Sanz, 2007; Gariup, Parellada, Garcia, & Bernardo, 2008; Kondo et al., 2013; Lee, Lee, Choi, & Choi, 2013; Malagón Amor, Alvaro, Corcoles, Martin-Lopez, & Bulbena, 2010; Ovejero, Caro-Canizares, de Leon-Martinez, & Baca-Garcia, 2014; Sakamoto, Martin, Kumano, Kuboki, & Al-Adawi, 2005; Teo, 2013; Teo et al., 2014). Kato et al. (2012) carried out the only international study to explore the opinions of clinicians about the *hikikomori syndrome* in Japan and other countries, revealing that typical

hikikomori case seem to exist also in other parts of Asia, Australia and the United States. Recently, Teo et al. (2014) have demonstrated its existence cross-nationally, describing cases in India, Korea, Japan and the United States.

Probably, the prevalence and magnitude of social isolation have been underestimated due to the lack of specific community mental health care services capable of detecting and treating these people at home (Lee et al., 2013). Usually, these subjects are at home without seeking medical attention and have no other behavioural disorders that may be detected by routine medical services such as emergency medical services and outpatient teams. The Crisis Resolution Home Treatment (CRHT) created in Barcelona offers psychiatry home care to people with severe mental disorder that are dissociated from outpatient monitoring. The aim of the CRHT is to assess, diagnose and treat at home and, once stabilized, refer to outpatient treatment service. Social isolation behaviour is a frequent reason for consultation in people attended by the CRHT. The aim of this study is to describe the clinical and socio-demographic characteristics of socially isolated people in Spain.

Methods

Participants

Participants were 1297 people attended at home by the CRHT from years 2008 to 2013. In 200 participants, the reason of referral was social withdrawal. A total of 164 cases were evaluated and treated because of social isolation. Due to family home visit refusal, 36 cases were not included. For the purpose of the study, we used the latest and more accurate definition and inclusion criteria for the *hikikomori* cases (Tateno et al., 2012): ‘the state of avoiding social engagement (e.g. education, employment and friendships) with generally persistent withdrawal into one’s residence for at least 6 months as a result of various factors’.

Procedures

Home visitation programme. The CRHT team consists of two psychiatrists and two nurses, who attend almost 2 million people in Barcelona, Spain. Cases were referred to the CRHT by primary and psychiatry outpatient teams, psychiatric emergency services and/or social workers. The target population treated by the CRHT was patients with severe mental disorder that were dissociated from outpatient monitoring. People without previous psychiatric diagnosis who presented behavioural disorders suggestive of mental disorder (such as delusions, mania, aggressive behaviour) were also evaluated and treated. Exclusion criteria were subjects with cognitive disorders diagnosed such as dementia, drug dependence without other comorbid psychiatric disorders, age under 12 years old and patients in whom the only treatment option was involuntary inpatient therapy.

When a case was referred to the CRHT (Figure 1), a first interview was performed with the family or caregiver, if it existed, to collect the medical and psychiatric history, socio-demographic data, determine which was the clinical situation, and coordinate the home visit. Once at home, the diagnostic approach was made and pharmacological treatment was prescribed if necessary. Several home visits were performed until clinical stabilization. The mean number of visits was 4, with a wide range, from 1 to 21 visits. Subsequently, the person was referred to the appropriate outpatient service (medical or psychiatric outpatient treatment). If stabilization was not reached, and there were criteria for involuntary treatment (suicide risk, aggression, risk of escape, outpatient treatment resistant disease, no collaboration with treatment), an involuntary transfer was made at the referral hospital for hospitalization.

Measurement instruments. All cases were prospectively studied according to a routine computerized protocol including demographic and clinical information. Socio-demographic data included age, gender, employment status, academic level and living situation. Clinical characteristics included referral source (primary and psychiatry outpatient treatment teams, psychiatric emergency services, social services), psychiatric family history, personal psychiatric history, previous contact with any outpatient-type Mental Health System, substance abuse or dependence, dual disorder and hospitalization. The socially withdrawn period and the age at onset of *hikikomori* were also recorded.

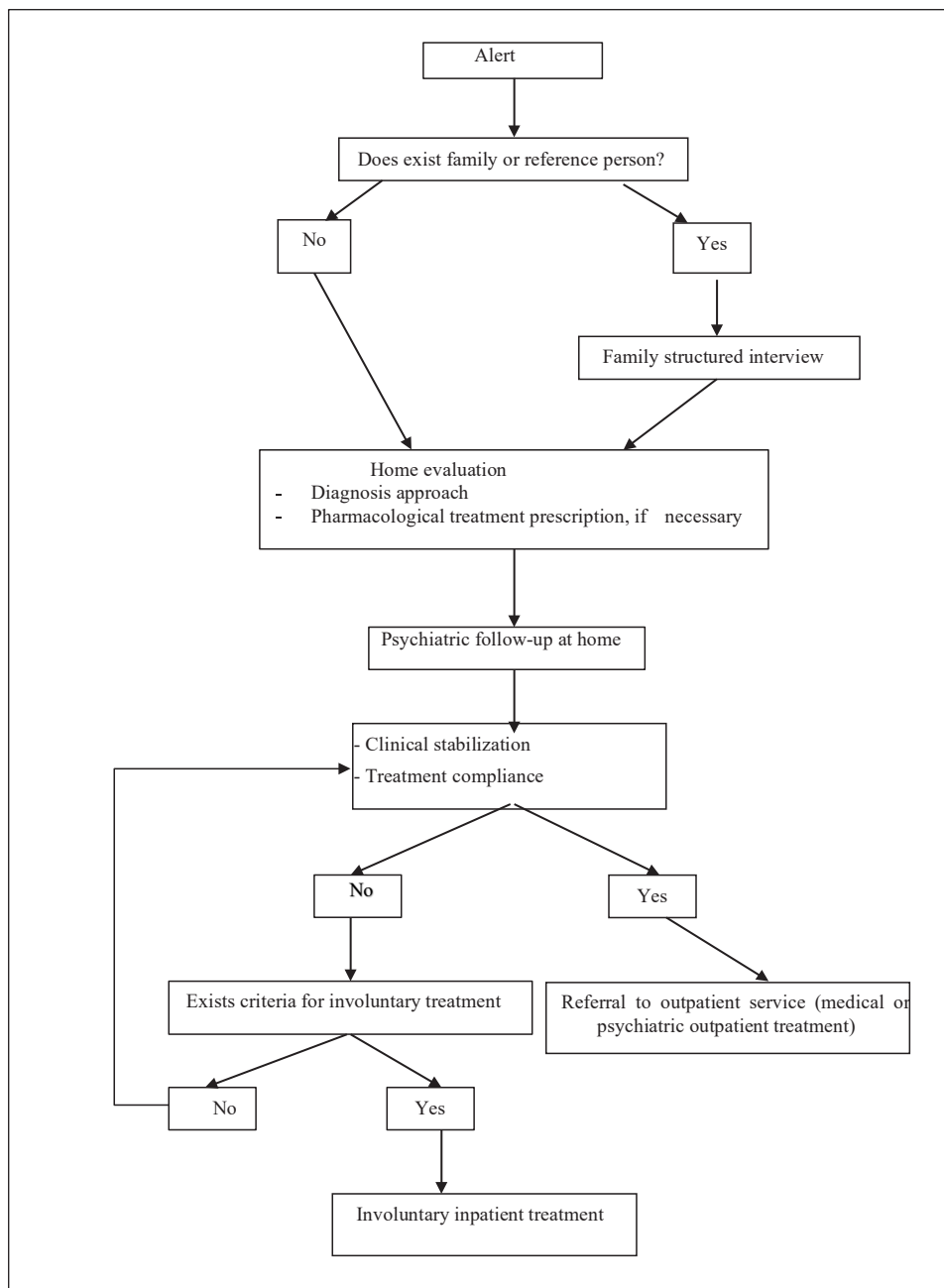
Each case received a DSM-IV-TR diagnosis. Because patients can have more than one psychiatric diagnosis, we grouped the major mental disorders into seven categories: psychotic, affective, anxiety, cognitive, drug abuse and personality disorders and other Axis I diagnoses. The treatment administered and referred service by the CRHT were also recorded.

Illness severity was assessed using the Spanish version of the Severity of Psychiatric Illness (SPI) scale (Bulbena, Pompei, Olle, & Coletas, 1997; Lyons et al., 1997). This instrument was developed as a patient level decision support tool to evaluate the need for services, especially inpatient care, based on patients' clinical and social factors. This clinician administered rating scale consists of 12 items that are scored on a four-point scale ranging from 0 (*absent*) to 3 (*severe*). The items are suicide risk, danger to others, severity of symptoms, difficulty with selfcare, medical problems, drug problems, job problems, family disruption, home instability, treatment compliance, family involvement and premorbid dysfunction. The clinicians received standard training in the administration of the SPI and this was filled in with all possible information (from patient, family and previous computerized history) immediately after the visit. All the items on the SPI were completed for all cases. The Global Assessment of Functioning (GAF), Clinical Global Impression (CGI), Assault and Violence Assessment Tool (AVAT) and World Health Organization Disability Assessment (WHODAS) scores were also registered.

Statistical analysis

We conducted a descriptive and prospective study with univariate analysis of demographic and clinical data of the sample. Kruskal–Wallis one-way analysis of variance was used to examine the association between diagnostic group and isolation period. Pearson’s correlation was used to examine the association between administered scales and isolation period. Data were analysed using SPSS 20 software package (SPSS, Chicago, IL, USA).

Figure 1. Recruiting process flowchart.



Results

As seen in Table 1, *hikikomori* were predominantly young male (73.8%), while isolated women were older than men (mean age 51 vs. 36 years). The mean age at onset of *hikikomori* was 36.6 years, with a range from 15 to 79 years. Most of them lived with their family. Half of them had advanced education, but due to their social isolation behaviour most were not able to keep a stable job. The mean socially withdrawn period was 39.3 months (standard deviation (*SD*) = 52.8), with 30 years being the higher time of isolation. Most had personal psychiatric history (74.5%), with psychotic (34.7%) and anxiety (22%) disorders being the most frequent. A total of 39.3% had required previous psychiatric admission.

Almost 60% of *hikikomori* case had family psychiatric history (Table 2), with 44.4% being first-grade relatives. Of them, in the 55.7% of cases the mother was the one affected, having predominantly affective (46.2%) and anxiety disorders (23.1%). In contrast, the father's more frequent diagnoses were psychotic (40%) and drug use disorders (40%).

The family was the one that mainly detected the isolation at home (72.9%), and consulted with medical, psychiatric or social services, who alerted the CRHT (Table 3). Only 1.8% of *hikikomori* cases evaluated by the CRHT did not have a psychiatric diagnostic at that moment, with psychosis (36%) and anxiety (20.1%) being the most prevalent comorbid disorders. The 28.5% of *hikikomori* cases required to be referred to inpatient treatment.

Table 4 presents the scores on the different scales used for clinical evaluation. The mean GAF score of 42.3 describes the presence of serious symptoms and serious impairment in social functioning, which is consistent with the characteristics described of these subjects. The CGI–Severity scale (CGI-S) mean was 4, which corresponds to moderately ill patients. The score on the items of the SPI emphasizes that *hikikomori* cases presented low aggressiveness and risk of suicide, but these subjects had high severity of symptoms, high premorbid dysfunction and self-care disability, and low treatment compliance.

Individuals isolated for 12 months or less needed to be hospitalized in 29.2% of cases, while 34.3% of patients isolated for more than 2 years needed to be hospitalized. Cases with isolation from 12 to 48 months were less hospitalized (18.8%), with no differences statistically significant. With respect to isolation period, there were no significant differences between diagnostic groups (Kruskal–Wallis, $\chi^2 = 4.35$, $df = 4$, $p = .361$). Therefore, regarding the outlier and extreme values in Figure 2, highest isolation times seemed to be in the psychotic diagnostic group. None of the people without a diagnosis of mental disorder remained isolated for 4 years or more.

The correlation between the different administered scales and isolation period is only significant with GAF score (Pearson's correlation, $-.155$; $p = .049$). Other scales had no significant correlation: AVAT score (Pearson's correlation, $-.034$; $p = .673$), SPI score (Pearson's correlation, $.096$; $p = .220$), CGI score (Pearson's correlation, $.140$; $p = .075$), WHODAS

score (Pearson's correlation, .101; $p = .203$).

Table 1. Socio-demographic characteristics and family and personal medical history of hikikomori cases.

Variables	n (%)
Male	121 (73.8)
Female	43 (26.2)
Age, <i>M (SD)</i>	40 (18.3)
Age at onset of <i>hikikomori</i> , <i>M (SD)</i>	36.6 (18)
Living situation	
Alone	23 (14.4)
Family	141 (86)
Employment status	
Unemployed	99 (60.2)
Student	13 (8)
Worker	0 (0)
Old age pensioner	15 (9.2)
Medical pensioner	30 (18.4)
Sick leave	7 (4.39)
Family psychiatric diagnostic	
Psychotic disorder	63 (38.7)
Affective disorder	53 (33.3)
Anxiety disorder	9 (5.3)
Cognitive disorder	2 (1.3)
Drug use disorder	17 (10.7)
Personality disorder	6 (4)
Other	5 (6.7)
Medical history	75 (46.3)
Psychiatric history	120 (74.5)
Psychotic disorder	41 (34.7)
Affective disorder	25 (21.1)
Anxiety disorder	26 (22)
Cognitive disorder	0 (0)
Drug use disorder	4 (3.4)
Personality disorder	9 (7.6)
Other	13 (11)
Previous treatment	
No	13 (12.1)
Anxiolytics	14 (13.1)
Antidepressants	34 (31.8)
Mood stabilizers	3 (2.8)
Antipsychotics	42 (39.3)
Others	1 (0.9)
Previous psychiatric hospitalization	55 (39.3)

Table 2. Family psychiatric history of *hikikomori* cases.

Family psychiatric history	<i>Hikikomori</i> family (<i>n</i> = 164), <i>n</i> (%)	
No	68 (40.1)	
First grade	72 (44.4)	
Mother	39 (55.7)	
Father	15 (21.4)	
Brother and/or sister	13 (18.6)	
Son or daughter	3 (4.3)	
Second grade	25 (15.4)	
Family psychiatric diagnosis	Mother	Father
Psychotic disorder	4 (10.3)	6 (40)
Affective disorder	18 (46.2)	1 (6.7)
Anxiety disorder	9 (23.1)	1 (6.7)
Drug use disorder	1 (2.6)	6 (40)
Personality disorder	3 (7.7)	0
Cognitive disorder	3 (7.7)	1 (6.7)
Other	1 (2.6)	0 (0)

Table 3. Clinical characteristics of *hikikomori* cases visited by the CRHT.

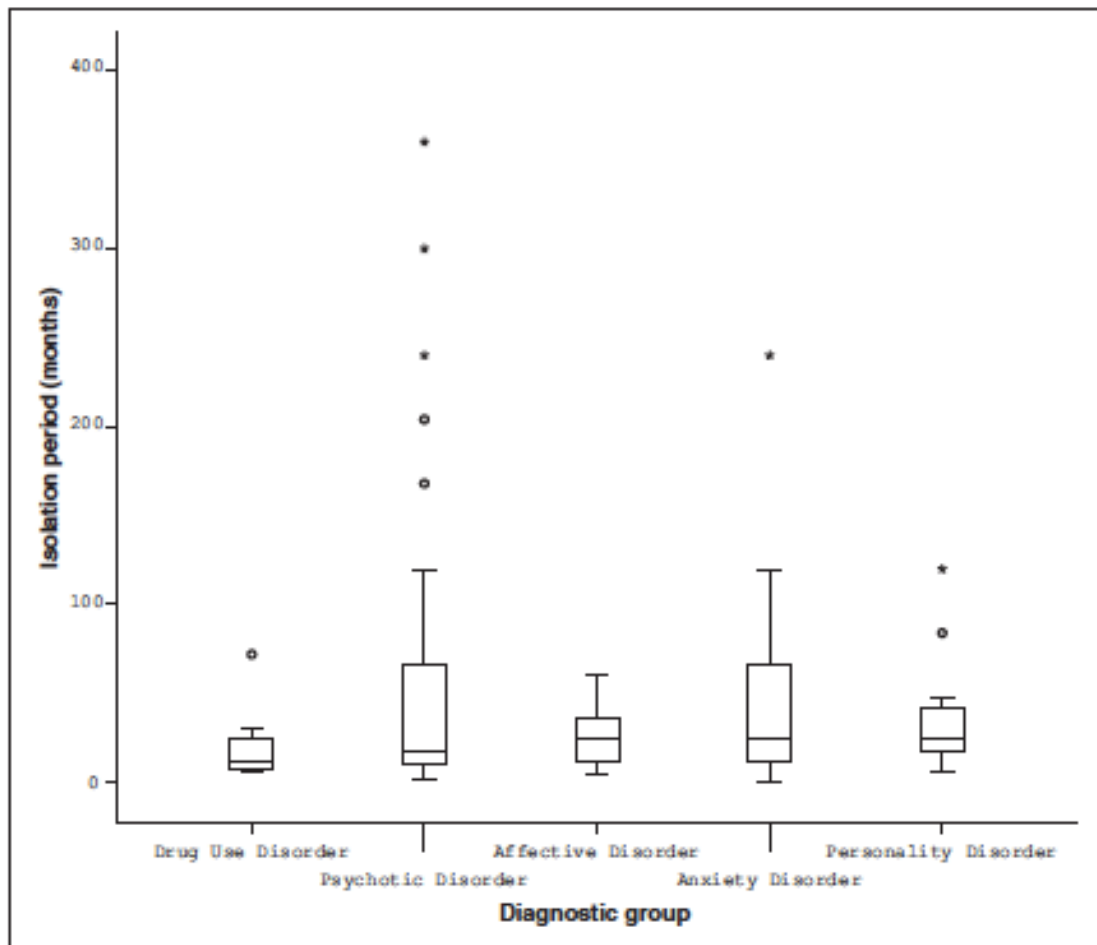
Variables	<i>Hikikomori</i> (<i>n</i> = 164), number (%)
Who detects	
Patient	3 (1.7)
Family	129 (72.9)
Social services	7 (4)
Outpatient teams	31 (17.5)
Other	7 (4)
Who alerts to the CRHT	
Social services	17 (9.5)
Psychiatric outpatient teams	80 (44.7)
Emergency services	5 (2.8)
Medical outpatient teams	50 (27.9)
Other	27 (15.1)
Diagnosis	
Psychotic disorder	59 (36)
Affective disorder	27 (16.5)
Anxiety disorder	33 (20.1)
Drug use disorder	9 (5.5)
Personality disorder	26 (15.9)
Other	7 (4.3)
No psychiatric disorder	3 (1.8)
Pharmacological treatment administered	
None	72 (44.2)
Anxiolytics	6 (3.7)
Antidepressants	42 (26.1)
Mood stabilizers	3 (1.9)
Antipsychotics	36 (22.4)
Depot antipsychotics	1 (0.6)
Others	1 (0.6)
Number of visits by the CRHT, <i>M</i> (<i>SD</i>)	4.4 (3.7)
Referred service by the CRHT	
Hospitalization	51 (28.5)
Psychiatric outpatient team	71 (39.7)
Medical outpatient team	31 (17.3)
Other	26 (14.5)

SD: standard deviation; CRHT: Crisis Resolution Home Treatment.

Table 4. Assessment scales scores of *hikikomori* cases visited by the CRHT.

Variables		<i>Hikikomori</i> (n = 164) Mean (SD)
Global Assessment of Functioning (GAF) score		42.3 (16.2)
GAF score	n (%)	
0–10	4 (2.4)	
11–20	11 (6.7)	
21–30	27 (16.5)	
31–40	40 (24.4)	
41–50	35 (21.3)	
51–60	25 (15.2)	
61–70	14 (8.5)	
71–80	3 (1.8)	
81–90	2 (1.2)	
Assault and Violence Assessment Tool (AVAT)		2.1 (2.3)
SPI		
Suicide risk item		0.3 (0.6)
Danger to others item		0.5 (0.7)
Severity of symptoms		1.8 (0.9)
Self-care ability item		1.3 (0.9)
Medical problems item		0.5 (0.8)
Drug problems item		0.4 (0.8)
Job problems item		1.7 (1.1)
Family disruption item		1.3 (0.9)
Home instability item		0.4 (0.6)
Treatment compliance		1.4 (1.2)
Family involvement		0.7 (0.9)
Premorbid dysfunction		1.5 (0.8)
Total		12 (4.9)
Clinical Global Impression–Severity scale (CGI-S)		4.1 (1.1)
World Health Organization Disability Assessment (WHODAS)		12.3 (3.9)

Figure 2. Correlation between diagnostic group and isolation period.



Discussion

This was, to our knowledge, the first European study to describe the socio-demographic and clinical characteristics of a group of *hikikomori* cases, since to date only punctual cases had been reported (Aguglia et al., 2010; De Michele, Caredda, Delle, Salviati, & Biondi, 2013; Garcia-Campayo et al., 2007; Gariup et al., 2008; Lee et al., 2013; Malagón Amor et al., 2010; Ovejero et al., 2014; Sakamoto et al., 2005; Teo, 2013). As pointed in previous studies, the *hikikomori* syndrome seems to exist not only in Japan (Kato et al., 2012; Kondo et al., 2013), but is probably a frequent problem in Spain, with 15.4% of cases being attended by the CRHT. These data go against previous theories which define *hikikomori* as a culture-bound syndrome (Teo & Gaw, 2010), and support previous studies that suggest their existence in other cultures (Kato et al., 2012; Teo et al., 2014). To date, this phenomenon has been probably underestimated in Spain, due to the difficult access to these people and due to lack of specialized domiciliary teams. As noted by Lee et al. (2013), these teams must also be compound by well-trained multidisciplinary professionals with structured manuals, because one of the main problems in therapeutic treatment

was gaining access to the participants and gaining their collaboration. There must also be a well-established therapeutic network between psychiatric clinics and community mental health centers, to ensure the continuity of treatment and monitoring (Lee et al., 2013).

As seen in previous studies (Kondo et al., 2013; Koyama et al., 2010), hikikomori was more frequently seen in males. In contrast to reports from earlier research, where the hikikomori phenomenon was described as a relatively common form of psychopathology in adolescents and young adults in Japan (Kondo et al., 2013; Koyama et al., 2010), the mean age in our sample was older, 40 years ($SD = 18.3$), with males being younger (36 years) than females (51 years). The mean age at onset of hikikomori was 37 years, but with a wide range of age, from 13 to 79 years. Perhaps this was because the majority of cases referred to the CRHT had been previously visited by other conventional medical equipment, without clinical improvement achieved and adherence to treatment, persisting and even worsening for years. This is consistent with the subgroup of individuals with hikikomori onset in the middle age described by Koyama (Koyama et al., 2010), who had first experienced hikikomori in their teens or 20s, occurring for several decades, but not been recognized at the beginning. Thus, premorbid dysfunction is quite high, as shown in the SPI item. Only 25% of the cases were the first psychiatric consultation. This highlights again the need for specialized equipment designed to detect and treat these types of complex cases as soon as possible.

We must also mention the role of families, who despite being the main detectors, in a non-discardable percentage (18%, 36 cases) the family did not allow the CRHT evaluation and treatment at home. As it has been noticed before (Kondo et al., 2013), disrupted family dynamics are very common and attributed to the development of hikikomori (such as a lack of problem-solving skills, inappropriate relationships with the individual with hikikomori and an inability to promote change due to fear of exacerbation of symptoms or violence). For example, one of our cases stayed isolated at home for 25 years, until the mother died and the father consulted, because of her rejection to his assessment (Malagón Amor et al., 2010). This is different from typical Japanese primary hikikomori, in which family used to be middle- to upper- middle-class backgrounds, with highly involved and collaborative mothers (Saito, 1998). This should be related with the '*amae*' concept (Doi, 1973), that describes Japanese dependent behaviours in which the person may beg or plead, or alternatively act selfishly and indulgently, while secure in the knowledge that the caregiver will forgive this. Traditionally, in Asian societies this is a frequent phenomenon that begins in childhood, generating family dynamics in which the child manipulates parents to be cared, becoming chronic in time and leads young people to be more economically dependent on their parents. Hikikomori may be indirectly promoted by *amae*, making parents accept their child

staying at home. Although the *amae* was originally considered to be uniquely Japanese, recent opinions suggest that it is actually more universal and exists in other cultures (Kato et al., 2012; Niiya, Ellsworth, & Yamaguchi, 2006).

In this regard, the high frequency of family psychiatric history is noteworthy, mostly maternal affective and anxiety disorders. Fathers are more likely to have psychotic and drug use disorders. This could be related to the difficulty of these families to handle the situation at home. Perhaps, a family environment with a depressed mother and a father not involved in caring for the child would be related to the development and perpetuation of the isolation at home. Umeda et al. (Umeda, Kawakami, & The World Mental Health Japan Survey Group, 2002–2006, 2012) also described the association of maternal mental disorders, specifically panic disorder, with hikikomori, suggesting that this association could be due to parenting behaviours that reinforce the patient's anxiety and their avoidant coping strategy. Perhaps this would suggest also the need for support and family psychoeducation, to accompany and facilitate understanding and acceptance of the diagnosis and treatment of hikikomori. It would be important to consider this data for early detection in descendants or relatives of people with mental illness.

Only three people (1.8%) had no symptoms suggestive of mental disorder, corresponding with primary hikikomori (Koyama et al., 2010; Teo & Gaw, 2010), the persons being who, voluntarily, without psychiatric mental illness, decided to focus their life at home, without maintaining social relationships, being economically dependent on their families. This percentage differs from previous studies (Koyama et al., 2010) in which primary hikikomori becomes up to 50%, and is more consistent with recent studies (Kondo et al., 2013) where 80% of hikikomori had comorbid psychiatric disorders. This could be probably due to differences in the sample evaluated, as people derived to CRHT were refractory cases selected from outpatient medical services, with high probability of presenting mental pathology. None of these three people stayed, at the moment of evaluation, isolated for more than 4 years.

In the rest of the evaluated cases, psychotic and anxiety disorders were the most common, especially in people who remained isolated for over 4 years. The high comorbidity with anxiety disorders, up to 25% of cases in our sample, had already been described in previous studies (Nagata et al., 2013; Teo, Lerrigo, & Rogers, 2013), specifically social anxiety and obsessive-compulsive disorder. Affective disorders were also a frequent diagnosis, approximately 17%. This is consistent with previous results (Kato, Shinfuku, Sartorius, & Kanba, 2011; Koyama et al., 2010; Teo, 2013) that found that those people with a history of hikikomori were six times more likely to have a mood disorder than the general population. Personality disorders were more frequent in people isolated from 1 to 4 years, mostly cluster A, such as schizoid personality. These data would go against the proposal that the *hikikomori* syndrome is a new

psychiatric disorder (Teo & Gaw, 2010), given that almost all subjects evaluated had a comorbid psychiatric disorder that justified the isolation. We believe that the primary hikikomori, without psychiatric comorbidity, exists, but is a very rare phenomenon in our society. Most socially isolated subjects present associated psychopathology. Based on our experience seeing patients with psychotic disorder who have been isolated for many years, in cases of youth hikikomori, with no psychiatric comorbidity initially observed, we think that their monitoring over time is important, since it may be the beginning of other diseases, such as prodromal psychotic disorders.

The isolation time was highly variable, although the average time was almost 40 months, ranging from 6 months to 30 years. Although there were no statistically significant differences, a trend did exist in the results of severity scales, showing that the longer the time of isolation, the greater the clinical severity. Thus, as pointed out by Teo A.R. (2010), there is a wide spectrum of severity, related not only to the time of evolution, but probably also with comorbid psychiatric pathology. Thus, while some hikikomori were willing to go out of home, but due to comorbid mental disorders such as agoraphobia they were not able to, others stayed isolated in their room for decades, not bathing and relieving themselves in empty bottles, with no willingness to communicate with anyone. Most subjects who remained isolated for over 4 years had a psychotic disorder, which shows that severe mental disorders are more likely to have longer isolation time.

Regarding the severity, worth highlighting is the high prevalence of cases who did not cooperate with treatment, with little insight of the disease and the need for treatment and changing the situation. In one-third of cases there was a risk of danger to themselves or to others, and/or disturbed reality judgment within the context of severe psychotic symptoms, so it was necessary to make involuntary hospital treatment. This would be in line pointing Kato, where psychiatrists from countries different from Japan suggested that hospitalization was one of the preferred treatments for *hikikomori*, but surprisingly, in Japan, some psychiatrists felt people with the *hikikomori* syndrome do not need psychiatric treatment. This difference may be related to the fact that in Japan the *hikikomori*-like phenomena have been seen for a long time and somewhat have become acceptable behaviour within Japanese society (Kato et al., 2012).

This study has some limitations. First, the psychotic disorder was included in contrast with prior studies that did exclude them. We decided to include this diagnosis in line with some previous studies that raise the possibility that social isolation is associated with different mental disorders, including psychotic disorders (Gariup et al., 2008; Tateno et al., 2012). In contrast, other *hikikomori* research works exclude people affected with psychotic disorders, mental

retardation and other mental disorders, and have even developed definitions in which its presence is an exclusion criterion for the diagnosis of *hikikomori* (Teo & Gaw, 2010). The most accepted definition, which we used, was created in May 2010 by a research group supported by the Japanese government (Ministry of Health, Labour and Welfare, 2010), describing that ‘in principle, *hikikomori* is considered a non-psychotic condition distinguished from social withdrawal due to positive or negative symptoms of schizophrenia. However, there is a possibility of underlying prodromal schizophrenia’. We believe, as pointed before, that prodromal psychosis is a major issue to consider in youth *hikikomori*. This controversy highlights the importance of achieving a consensus definition of *hikikomori*, so that there would be no different diagnostic criteria between researchers and all investigations would refer to the same phenomenon. In this sense, new assessment methods, as recently proposed (Teo et al., 2014), can help to establish the characteristics and precise definition of the phenomenon. We believe that differentiation between primary and secondary *hikikomori* would be helpful (Koyama et al., 2010), noting that in secondary *hikikomori* social isolation must be the main symptom and dominant over other comorbid symptoms. Second, and on the same line of including or excluding other comorbid mental disorders, the autism spectrum disorders were not assessed. Retrospectively, the review of the three people who were diagnosed as not having any disorder shows that one might meet the criteria for autism spectrum disorder. It is possible that other subjects diagnosed as having cluster A personality disorder can fulfil criteria for autism spectrum disorder. Thus, as highlighted in previous studies (Kondo et al., 2013; Tateno et al., 2012), autism spectrum disorder is probably a more frequent comorbid diagnosis that described so far. This disorder should be considered in future *hikikomori* research, since it share features such as qualitative impairment in social interaction and restricted, repetitive and stereotyped patterns of behaviour, interests and activities. Third, the Internet addiction was also not assessed, and, as it has been previously noticed (Lee et al., 2013), is a conduct disorder frequently associated with social withdrawal. Fourth is the heterogeneity of the sample, since they present a great variability in age range. It would be useful to have new research focussing on young *hikikomori*, in order to establish differential characteristics from older isolated subjects. Fifth, the high number of people that we could not assess due to family refusal highlights the need for support and family psychoeducation.

Conclusion

In sum, this study shows the existence of *hikikomori* in Spain, supporting previous data that affirm that it is not a unique phenomenon in Japan, nor only linked to their culture. The detection and treatment is difficult because of the lack of access and collaboration, highlighting the need

for specialized domiciliary teams such as the CRHT. The high comorbidity with psychiatric disorders observed leads us to conclude that it may not be a new diagnosis, but rather a severe syndrome associated with multiple psychiatric disorders. Primary *hikikomori* also may exist, but much less commonly. It would be useful to carry out cross-national studies with larger samples in order to determine a more accurate definition of *hikikomori*, and clearly describe its existence in other cultures. It may also be necessary to investigate the association between *hikikomori* and other mental disorders, in order to develop more effective prevention and treatment teams and better describe its psychopathology.

Acknowledgements

We would like to acknowledge the cooperation of the staff of the CRHT, specially Magda Bellsola and Anna Gonzalez.

Conflict of interest

The authors declare that there is no conflict of interest

Funding

This research received no specific grant from any funding agency in the public, commercial, or not-for-profit sectors.

References

- Aguglia, E., Signorelli, M., Pollicino, C., Arcidiacono, E., & Petralia, A. (2010). *Hikikomori* phenomenon: cultural bound or emergent psychopathology? *Giornale Italiano Di Psicopatologia*, *16*, 1–8.
- Borovoy, A. (2008). Japan's hidden youths: Mainstreaming the emotionally distressed in Japan. *Culture, Medicine, and Psychiatry*, *32*, 552–576.
- Bulbena, A., Pompei, S., Olle, L., & Coletas, J. (1997). Assessment of Severity of Psychiatric Illness. *Archivos de Neurobiologia*, *60*, 69–79.
- De Michele, F., Caredda, M., Delle, C. R., Salviati, M., & Biondi, M. (2013). *Hikikomori* (ひきこもり): A culture-bound syndrome in the web 2.0 era. *Rivista di Psiquiatria*, *48*, 354–358.
- Doi, T. (1973). *The anatomy of dependence*. Tokyo, Japan: Kodensha International.
- Garcia-Campayo, J., Alda, M., Sobradie, N., & Sanz, A. B. (2007). A case report of *hikikomori* in Spain. *Medicina Clinica*, *129*, 318–319.
- Gariup, M., Parellada, E., Garcia, C., & Bernardo, M. (2008). *Hikikomori* or simple schizophrenia? *Medicina Clinica*, *130*, 718–719.
- Kaneko, S. (2006). Japan's socially withdrawn youths and time constraints in Japanese society: Management and conceptualization of time in a support group for '*hikikomori*'. *Time & Society*, *15*, 233–249.
- Kato, T. A., Shinfuku, N., Sartorius, N., & Kanba, S. (2011). Are Japan's *hikikomori* and depression in young people spreading abroad? *The Lancet*, *378*, 1070.

- Kato, T. A., Tateno, M., Shinfuku, N., Fujisawa, D., Teo, A. R., Sartorius, N., Kanba, S. (2012). Does the 'hikikomori' syndrome of social withdrawal exist outside Japan? A preliminary international investigation. *Social Psychiatry and Psychiatric Epidemiology*, *47*, 1061–1075.
- Kondo, N., Sakai, M., Kuroda, Y., Kiyota, Y., Kitabata, Y., & Kurosawa, M. (2013). General condition of hikikomori (prolonged social withdrawal) in Japan: Psychiatric diagnosis and outcome in mental health welfare centers. *International Journal of Social Psychiatry*, *59*, 79–86.
- Koyama, A., Miyake, Y., Kawakami, N., Tsuchiya, M., Tachimori, H., & Takeshima, T. (2010). Lifetime prevalence, psychiatric comorbidity and demographic correlates of 'hikikomori' in a community population in Japan. *Psychiatry Research*, *176*, 69–74.
- Lee, Y. S., Lee, J. Y., Choi, T. Y., & Choi, J. T. (2013). Home visitation program for detecting, evaluating and treating socially withdrawn youth in Korea. *Psychiatry and Clinical Neurosciences*, *67*, 193–202.
- Lyons, J. S., Stutesman, J., Neme, J., Vessey, J. T., O'Mahoney, M. T., & Camper, H. J. (1997). Predicting psychiatric emergency admissions and hospital outcome. *Medical Care*, *35*, 792–800.
- Malagón Amor, A., Alvaro, P., Córcoles, D., Martín-López, L. M., & Bulbena, A. (2010). 'Hikikomori': A new diagnosis or a syndrome associated with a psychiatric diagnosis? *International Journal of Social Psychiatry*, *56*, 558–559.
- Ministry of Health, Labour and Welfare. (2010). *Guidelines for assessment and support of hikikomori*. Tokyo, Japan: Author. Retrieved from <http://www.mhlw.go.jp/stf/houdou/2r985200-0000-6i6f.html> (in Japanese).
- Nagata, T., Yamada, H., Teo, A. R., Yoshimura, C., Nakajima, T., & van, V., I. (2013). Comorbid social withdrawal (hikikomori) in outpatients with social anxiety disorder: clinical characteristics and treatment response in a case series. *International Journal of Social Psychiatry*, *59*, 73–78.
- Niiya, Y., Ellsworth, P. C., & Yamaguchi, S. (2006). Amae in Japan and the United States: An exploration of a 'culturally unique' emotion. *Emotion*, *6*, 279–295.
- Ovejero, S., Caro-Canizares, I., de Leon-Martinez, V., & Baca-Garcia, E. (2014). Prolonged social withdrawal disorder: A hikikomori case in Spain. *International Journal of Social Psychiatry*, *60*, 562–565.
- Saito, T. (1998). *Shakaiteki Hikikomori: Owaranai Shishunki* [Social withdrawal: A never ending adolescence]. Tokyo, Japan: PHP Kenkyujo.
- Sakamoto, N., Martin, R. G., Kumano, H., Kuboki, T., & Al-Adawi, S. (2005). Hikikomori, is it a culture-reactive or culture-bound syndrome? Nidotherapy and a clinical vignette from Oman. *International Journal of Psychiatry in Medicine*, *35*, 191–198.
- Tateno, M., Park, T. W., Kato, T. A., Umene-Nakano, W., & Saito, T. (2012). Hikikomori as a possible clinical term in psychiatry: A questionnaire survey. *BMC Psychiatry*, *12*, 169.
- Teo, A. R. (2010). A new form of social withdrawal in Japan: A review of hikikomori. *International Journal of Psychiatry in Medicine*, *56*, 178–185.
- Teo, A. R. (2013). Social isolation associated with depression: A case report of hikikomori. *International Journal of Social Psychiatry*, *59*, 339–341.
- Teo, A. R., Fetters, M. D., Stufflebam, K., Tateno, M., Balhara, Y., Choi, T. Y., ... Kato, T. A. (2014). Identification of the hikikomori syndrome of social withdrawal: Psychosocial features and treatment preferences in four countries. *International Journal of Social Psychiatry*. Advance online publication. doi:10.1177/0020764014535758
- Teo, A. R., & Gaw, A. C. (2010). Hikikomori, a Japanese culture-bound syndrome of social withdrawal?: A proposal for DSM-5. *The Journal of Nervous and Mental Disease*, *198*, 444–449.
- Teo, A. R., Lerrigo, R., & Rogers, M. A. (2013). The role of social isolation in social anxiety disorder: A systematic review and meta-analysis. *Journal of Anxiety Disorders*, *27*, 353–364.

Umeda, M., Kawakami, N., & The World Mental Health Japan Survey Group, 2002–2006. (2012). Association of childhood family environments with the risk of social withdrawal ('*hikikomori*') in the community population in Japan. *Psychiatry and Clinical Neurosciences*, 66, 121–129.

Watts, J. (2002). Public health experts concerned about '*hikikomori*'. *The Lancet*, 359, 1131.

6.2 Segundo estudio

Malagón-Amor, Á., Martín-López, L. M., Córcoles, D., González, A., Bellsolà, M., Teo, A. R., Pérez, V., Bullbena, A., & Bergé, D. (2018). A 12-month study of the *hikikomori* syndrome of social withdrawal: Clinical characterization and different subtypes proposal. *Psychiatry Research*, 270(December 2018), 1039–1046.

<https://doi.org/10.1016/j.psychres.2018.03.060>

OBJETIVOS E HIPÓTESIS DEL ESTUDIO:

Objetivo 1: Caracterización clínica y sociodemográfica del fenómeno de aislamiento social en nuestro entorno y determinar su equivalencia con el síndrome de *hikikomori*.

Hipótesis 1: La conducta de aislamiento social es equiparable al llamado *hikikomori*, y existe no sólo ligado a la cultura japonesa, sino también en nuestra sociedad.

Objetivo 2: Determinar la naturaleza sindrómica versus diagnóstica del aislamiento social, también llamado *hikikomori*, y determinar los síntomas y características necesarias para establecer la presencia del síndrome o diagnóstico.

Hipótesis 2: La conducta de aislamiento social constituye un síndrome grave, comórbido a diferentes trastornos mentales. No representa una nueva categoría diagnóstica.

Objetivo 3: Determinar los posibles diferentes subtipos de aislamiento social y su posible correspondencia con entidades diagnósticas ya descritas.

Hipótesis 3: El aislamiento social se puede dividir en varios subtipos en función de: la patología comórbida, la edad, el tiempo de aislamiento o la colaboración con el tratamiento. Además, estas variables tienen relevancia en la respuesta a la intervención y el pronóstico.

Objetivo 4: Describir la evolución a largo plazo tras diferentes abordajes terapéuticos en el aislamiento social.

Hipótesis 4: El aislamiento social tiene una mejor evolución a largo plazo tras un tratamiento intensivo. Los sujetos que reciben un tratamiento convencional breve presentarán una peor evolución.

Este artículo ha supuesto la primera publicación sobre la evolución y respuesta a tratamiento a largo plazo de un grupo amplio de casos afectados de aislamiento social, proporcionando más evidencia sobre la existencia de este fenómeno en nuestra cultura.

Dentro del **objetivo principal** de caracterización del aislamiento social, complementa al primer estudio, aportando nuevos datos sobre sus características clínicas. Así, se evaluó la red social, basal y a 12 meses, siendo mayoritariamente nula o centrada sólo en la familia con quien convive. Se exploró la existencia de adicción a internet comórbida (siendo del 30%), del riesgo suicida (10%) y los antecedentes heteroagresivos (20%).

En relación con la **segunda hipótesis**, complementa al primer artículo, estudiando en mayor profundidad los datos clínicos sobre comorbilidad asociada, investigando específicamente la existencia de otros diagnósticos tales como trastorno por acumulación o del espectro autista. Se observó sólo un caso sin diagnóstico de trastorno mental asociado, aunque cabe destacar que presentaba una conducta compatible con adicción a internet. Se objetivaron diferentes diagnósticos comórbidos, tales como trastornos de ansiedad, afectivos, psicóticos, personalidad, uso de sustancias y otros (que incluyen diagnósticos como trastorno por acumulación, del espectro autista y dismorfofobia).

Respecto al **tercer objetivo**, se realizó un análisis por subgrupos en función de las variables comorbilidad, edad, tiempo de evolución y colaboración con el tratamiento, analizando su asociación con la gravedad clínica y del aislamiento, así como con la evolución a 12 meses. El análisis mostró que los sujetos afectos de trastornos afectivos y/o de ansiedad presentaban características específicas distintivas del resto de diagnósticos: igual proporción de hombre-mujer, menos antecedentes psiquiátricos, mejor red social, menor gravedad y mayor colaboración con el tratamiento, con mayor proporción de derivación a seguimiento ambulatorio psiquiátrico. Sin embargo, en la evolución a 12 meses presentaron mayor desvinculación del seguimiento, mayor porcentaje de persistencia del aislamiento y empeoramiento de la gravedad clínica, observando en los modelos de regresión una influencia significativa del grupo diagnóstico ansiedad-afectivo en la gravedad y aislamiento en el seguimiento a 12 meses. El subgrupo de casos con menor colaboración presentó peor red social inicial, puntuación de mayor gravedad y discapacidad en escalas evaluadas y mayor porcentaje de hospitalización. La evaluación de la influencia del tiempo de aislamiento y la edad en la gravedad y evolución no obtuvo resultados estadísticamente significativos.

En relación al **cuarto objetivo**, el análisis mostró la tendencia global de estos sujetos a recaer en el aislamiento y desvincularse del seguimiento psiquiátrico a lo largo de 12 meses. Los casos que recibieron tratamiento hospitalario tras la actuación del EMSE presentaron menor persistencia de aislamiento, mayor vinculación al seguimiento psiquiátrico y mejor red social a los 12 meses. Se observó mayor proporción de hospitalización en pacientes con trastornos psicóticos.

*NOTA. Según normativa y debido a que la publicación no se encuentra disponible en Open Access, se adjunta la última versión previa a la concesión de los derechos de autor a la revista Psychiatry Research. Reproducido con permiso de Elsevier.

<https://doi.org/10.1016/j.psychres.2018.03.060>

A 12-month study of the hikikomori syndrome of social withdrawal: clinical characterization and different subtypes proposal.

Ángeles Malagón-Amor^{a,b,*}, Luis Miguel Martín^{a,b,d}, David Córcoles^{a,c}, Anna González^a, Magda Bellsolà^a, Alan R. Teo^{e,f,g}, Víctor Pérez^{a,b,c,d}, Antoni Bulbena^{a,b,c,d}, Daniel Bergé^{a,b,c,d}.

^a Institut de Neuropsiquiatria i Addiccions, Hospital del Mar, Barcelona, Spain.

^b Department of Psychiatry and Forensic Medicine, Universitat Autònoma de Barcelona, Barcelona, Spain

^c Centro de Investigación Biomédica en Red de Salud Mental, CIBERSAM G21, Spain.

^d Neurosciences Research Programme, Hospital del Mar Medical Research Institute (IMIM), Barcelona, Spain

^e Center to Improve Veteran Involvement in Care (CIVIC), VA Portland Health Care System, Portland, USA.

^f Department of Psychiatry, School of Medicine, Oregon Health & Science University, Portland, USA.

^g School of Public Health, Oregon Health & Science University and Portland State University, Portland, USA.

*Corresponding author: Ángeles Malagón Amor, Institute of Neuropsychiatry and Addictions (INAD), Parc de Salut Mar, Passeig Marítim 25, 08003, Barcelona, Spain. Tel: +34-932483175.
Email address: AMalagon@parcdesalutmar.cat

Abstract

Social withdrawal is a new mental health problem increasingly common, present in different cultures, whose psychopathology and treatment is not yet established. This study aims to determine the socio-demographic and clinical features and possible clinical subtypes that predict the 12-month outcomes of cases with hikikomori syndrome, a severe form of social withdrawal. Socio-demographic and clinical data at baseline were analysed as well as data obtained for 12 months after at-home treatment in 190 cases. The inclusion criteria were: spending all time at home, avoiding social situations and relationships, significant deterioration due to social isolation, with a minimum duration of 6 months. Six major diagnostic groups were identified: affective, anxiety, psychotic, drug use, personality and other Axis I disorders. The anxiety-affective subgroup demonstrated lower clinical severity, but worse evolution. Less than half of the cases were available for medical follow-up at 12-months. Subjects undergoing intensive treatment had a higher medical follow-up rate and better social networks at 12-months. Therefore, our findings provide data to reach consensus on the specific characteristics of social isolation hikikomori syndrome. The analysis demonstrated the fragility and tendency to relapse and have disengagement, particularly relevant in the anxiety-affective subgroup, suggesting that intensive treatments are more effective.

Keywords: social isolation; comorbidity; long-term treatment; home treatment; differential diagnosis.

1. Introduction

Social isolation is a health problem that has become increasingly important in recent years, requiring studies that investigate its existence and psychopathology in different cultures. "Hikikomori syndrome", initially described in Japan by Tamaki Saito (Saito, 1998), is a type of isolation with specific characteristics. Cases are described as "those who are completely isolated from society and are in their home for more than six months, beginning in the second half of the twentieth, and in which other psychiatric disorders do not better explain the main causes of this condition".

In East Asian countries, hikikomori syndrome has been described as having a 1-2% lifetime prevalence (Koyama et al., 2010; Teo and Gaw, 2010; Wong et al., 2014), and it has been declared a public health problem in Japan. Thus, the Japanese government published guidelines with diagnostic criteria that excluded schizophrenia or other known psychopathology (Ministry of Health, 2003; Saito, 2010). Nonetheless, subsequent investigations have included associated psychiatric pathologies, such as anxiety, depressive, internet addiction, autism spectrum and other disorders (Campbell et al., 2006; Kato et al., 2011a, 2011b; Kondo et al., 2013; Koyama et al., 2010; Lee et al., 2013; Li and Wong, 2015; Malagón-Amor et al., 2015; Nagata et al., 2013; Stip et al., 2016; Suwa and Hara, 2003; Tateno et al., 2012; Teo, 2013; Teo et al., 2015a, 2015b, 2013a). It has also been suggested that patients with prodromal stages of psychotic disorders may be included (prior to a definitive diagnosis of psychosis) based on their similar characteristics (Kondo et al., 2013; Malagón-Amor et al., 2015; Stip et al., 2016). Some authors have divided hikikomori into two categories: primary and secondary (Kato et al., 2012; Suwa et al., 2003). Primary hikikomori is not associated with any psychiatric disorders, while secondary hikikomori is caused by a currently recognized psychiatric disorder. However, there is no consensus on which psychiatric disorder should be considered to exclude a diagnosis of primary hikikomori. Therefore, it is evident that there is no consensus on which comorbid psychiatric disorders should be included. In addition, given the existence of cases that do not meet the criteria of other existing psychiatric disorders, it has been suggested that severe social isolation might be considered as a new psychiatric disorder (Teo and Gaw, 2010). In an effort to standardize the diagnosis of severe social isolation-hikikomori, the following diagnostic criteria have been suggested (Teo et al., 2015b; Teo and Gaw, 2010): 1) spending most of the day and most days at home, 2) avoiding social situations, such as attending school or going to work, 3) avoiding social relationships, such as friendships or contacts with family members, 4) experiencing discomfort or significant deterioration due to social isolation, and 5) having a minimum duration of 6 months.

The description of its existence in other countries and cultures (De Michele et al., 2013; Furuhashi et al., 2012; García-Campayo et al., 2007; Gariup et al., 2008; Gondim et al., 2017; Kondo et al., 2013; Lee et al., 2013; Malagón-Amor et al., 2015; Ovejero et al., 2014; Sakamoto et al., 2005; Teo, 2013; Wong et al., 2017a) suggests that it is not only a disorder related to Japanese culture. Our group described the existence of hikikomori in Spain, where primary hikikomori less common than secondary hikikomori. It was concluded that it may not be a new diagnosis but rather a severe syndrome associated with multiple mental illnesses (Malagón-Amor et al., 2015). Social exclusion is frequent in severe mental illness patients (Koenders et al., 2017; Linz and Sturm, 2013), and it has been described that intensive case management improves social functioning (Dieterich et al., 2017), emphasizing the need for treatments and services designed to develop social skills, as well as to create opportunities for social connection and community involvement. There has been little research investigating treatment approaches focused solely on social isolation syndrome. Psychotherapy (Teo et al., 2015a), including individual, group, and exercise-oriented psychotherapy, have been proposed as treatment options (Nishida et al., 2016). Previous studies have found that despite a long evolution of isolation, subjects presented a preference for treatment delivered in person, as opposed to telepsychiatry (Teo et al., 2015a). Pharmacological treatment would be based on the associated comorbid psychiatric pathology. These studies highlight the lack of awareness of the disorder and the subject's motivation for treatment (Kondo et al., 2013; Malagón-Amor et al., 2015), highlighting the need for specialized home care teams that have access to these subjects (Kondo et al., 2008; Lee et al., 2013; Malagón-Amor et al., 2015). Regarding the long-term treatment and prognosis of hikikomori, there is little information. Kondo et al. (2013) have found that only 15.3% of subjects achieved social participation after 21.7 months of consultation. Tateno et al. (2012) have suggested the division of hikikomori into three groups that are based on comorbid pathology and therapeutic options that are based on a survey-based study of psychiatrists from different countries.

Despite the recent development of clearer diagnostic criteria, there is still considerable heterogeneity among subjects with hikikomori, and there are important knowledge gaps in the prevalence, comorbidity, and psychopathology, as well as their treatment options.

The hypothesis of our study is that social isolation is formed by a heterogeneous group of subjects with different comorbid pathologies, and depending on the comorbid pathology, there are different clinical characteristics and responses to treatment. Accordingly, this study aimed to determine the possible different subtypes of social isolation and their possible associations with the diagnostic entities already described, and finally, to analyse the evolution of the cases during 12 months after an assertive home care treatment approach.

2. Methods

2.1. Participants

A total of 190 people who were treated at home because of social withdrawal by the Crisis Resolution Home Treatment (CRHT) from 2008 to 2014 in Barcelona (Spain). The definition and diagnostic inclusion criteria for the social isolated cases were (Tateno et al., 2012; Teo et al., 2015a, 2015b; Teo and Gaw, 2010) 1) spending most of the day and most days at home, 2) avoiding social situations, such as attending school or going to work, 3) avoiding social relationships, such as friendships or contacts with family members, 4) experiencing discomfort or significant deterioration due to social isolation, and 5) having a minimum duration of 6 months. These symptoms should be the primary and predominant over any other symptoms, in case there were.

2.2. Home visitation program

The CRHT team was formed by two psychiatrists and two nurses. The target population were patients with severe mental disorders dissociated from outpatient monitoring. People with no psychiatric history who presented behavioural disorders suggestive of mental disorder were also evaluated. Cases were referred to the CRHT by primary and psychiatry outpatient teams, psychiatric emergency services and/or social workers. CHRT coordinated with these resources to assess and treat these subjects at home, and, once stabilized, linked them back to the regular psychiatric services. Since its beginning, the demand for intervention in cases of social isolation was remarkable, specializing on its assessment and treatment as a result of it. The inclusion criteria were evaluated based on the information provided by the family and/or the subjects, depending on the collaboration. In turn, they were evaluated and confirmed at the first home visit. The exclusion criteria were subjects with diagnosed cognitive disorders, such as dementia, drug dependence without other comorbid psychiatric disorders, age younger than 12 years old and subjects for whom the only treatment option was involuntary inpatient therapy. For more information on the operation of the equipment, review the previous article (Malagón-Amor et al., 2015). After home treatment was initiated and initial improvement was achieved, the CRHT home treatment was completed, and the cases were delivered to the most appropriate device in an individualized manner: outpatient psychiatric or medical centre, hospitalization or others. If stabilization was not reached, and there were criteria for involuntary treatment (suicide risk, aggression, risk of escape, altered reality judgment), an involuntary transfer was made at the referral hospital for hospitalization. For those subjects who retained the reality judgment, were aware of the seriousness of the situation, but they did not agree to carry out the treatment and receive help, it was not possible to carry out the treatment. Following this derivation, the clinical

condition and situation of isolation was evaluated by contacting the subjects' professional references 4, 8 and 12 months after derivation.

2.3. Measurement instruments

In the first assessment at home, all cases were prospectively studied according to a routine computerized protocol that included demographic and clinical information by a trained clinical team. Socio-demographic data included age, gender and social network. The clinical characteristics included a personal psychiatric history, including any history of suicide, aggressiveness, and internet addiction. The socially withdrawn period and the age at onset of hikikomori were also recorded. The patient diagnoses were evaluated using the DSM-IV-TR criteria, grouping the major mental disorders into six categories: psychotic, affective, anxiety, drug abuse, personality and other Axis I diagnoses. The service referred by the CRHT was recorded. Illness severity was assessed using the Spanish version of the Severity of Psychiatric Illness (SPI) scale (Bulbena et al., 1997; Lyons et al., 1997). The Global Assessment of Functioning (GAF) and World Health Organization Disability Assessment (WHO/DAS) and Scale of Unawareness of Mental Disorder (SUMD) scores were also registered. Social network was evaluated according to criteria developed by our team based on clinical experience: 1) null relationship, 2) relationship with family with whom we live, 3) relationship with a friend outside the home, and 4) normalized social relation. For the analysis, the cases were divided into two groups: null social network vs. some relationship with family or people outside the home.

In the surveillance of the linkage at the 4, 8 and 12 months, an evaluation of the subject's connection to the mental health network was performed by contacting to the responsible medical service. The clinical status was evaluated using the GAF and WHO/DAS scales, as well as the persistence of social isolation and its severity. We recorded whether there was a change in the diagnostic orientation performed by the CRHT during the 12-month linkage, as well as the new diagnosis, if any.

2.4. Statistical analysis

First, a descriptive analysis of the subjects at baseline was performed. Second, univariate analysis between the baseline determinations and outcome measures of functioning were performed using Pearson's correlation coefficient. The outcome variables were social isolation persistence, improvement in social isolation condition, social network, responsible medical services and GAF and WHODAS scores. Third, different regression models were performed using outcome variables as the dependent variables, and clinical and socio-demographical variables were used as the independent variables. The variables with significant correlation with outcome measures in the univariate analysis were selected. In addition, diagnostics were grouped into affective-

anxiety group vs others due to the baseline similarities within these groups (see Table 1). The evolution across time of measured outcomes were analysed using generalized estimating equations with an exchangeable working correlation structure. The effect of presence/absence of anxiety-affective disorder across time was assessed introducing an interaction term (time by visit) (see Fig. 2). Analyses were conducted using Stata (version 14) and SPSS 24 (SPSS, Chicago, IL, USA).

2.5. Ethics statement

The study was approved by the Parc de Salut Mar Barcelona Clinical Research Ethical Committee, in accordance with the Code of Ethics of the World Medical Association (Declaration of Helsinki).

3. Results

The global socio-demographic and clinical characteristics are shown in Table 1 (first column). The 12-months follow-up results are shown in Table 2.

Regarding the social network, 57.4% of the subjects maintained relationships with their families, while 34.2% had no relationship with anyone, even with family members inside the home. No statistically significant differences were found in the 12-month follow-up for any of the outcome variables.

The influence of isolation time on severity and evolution was also evaluated without obtaining statistically significant data, and the results demonstrated that the time of isolation has not a determinant role in severity or evolution.

3.1. Comorbid pathology

Only one case had no associated pathology. In that case, internet addiction behaviour was detected. Six major diagnostic groups were identified: affective ($n = 28$), anxiety ($n = 35$), psychotic ($n = 75$), drug use ($n = 8$), personality (total $n = 33$, cluster A $n = 12$, cluster B $n = 19$, and cluster C $n = 2$) and other diagnoses ($n = 10$), including hoarding disorder ($n = 1$), autism spectrum disorder ($n = 2$) and body dysmorphic disorder ($n = 1$).

Patients in the anxiety and affective disorders diagnostic groups had similar a gender proportion (affective group male 57.1% vs anxiety group 60%) and outcome variables (affective group vs anxiety group: mean WHO/DAS Total 11.8 (SD 3.7) vs 11.4 (3.4); mean GAF 42.8 (SD 13.9) vs 42.6 (12.9), mean SPI total 10.3 (5.6) vs 10.4 (4.1), bonding at 12 months 37% vs 44.1%, improvement in social isolation state at 12 months 26.9% vs 35.5%), but the mean age differed

(affective group 53 years vs anxiety group 35 years, $p < 0.001$). Accordingly, we decided to perform an analysis in which one group would include patients with comorbid pathologies of anxiety or affective disorders, compared to the other large group of cases with social isolation (Table 1).

3.2. Twelve-month follow-up analysis

Table 2 shows the comparative analysis of the 12-month evolution in the anxiety or affective subgroup vs other cases once discharged from CRHT and referred to outpatient or inpatient centres. Fig. 1 shows the total confirmed follow-up in medical resources, once referred from CRHT team, during 12 months, of cases with social isolation. Lost cases are not included. The results of the regression models examining the influence of the diagnostic groups across time are shown in Table 3 and Fig. 2.

Significant variables between the affective-anxiety group and other groups (age, gender, initial social network, history of aggressiveness, number of CRHT visits, referral device-whether or not admitted- GAF, total WHODAS, total SPI, SPI 10, SPI 8 and SPI 12) were included in the logistic regression analysis of the predictors of isolation at 12 months, with statistically significant results for the variables age ($B = 0.024$, $p = 0.098$), derivation device and cases with and without hospitalization ($B = 1.766$, $p < 0.001$) and SPI12 ($B = 0.629$, $p = 0.028$).

3.3. Collaboration with treatment

The classification of the cases based on whether they were collaborators vs non-collaborators, according to the score of the SPI sub-item 10 (opposition to treatment), showed statistically significant differences in variables such as the initial social network ($p = 0.001$) and at 8 months ($p = 0.041$), as well as the baseline referral medical service ($p = 0.009$), at 4 months ($p = 0.009$) and 8 months ($p = 0.058$), with a higher percentage of involuntary hospitalization as opposed to treatment ($n = 28$ [58.3%] vs $n = 8$ [16.7%], $p < 0.001$). Statistically significant differences were found, with a direct relationship between SPI 10 and total SPI ($B = 2.526$, $p < 0.001$), SUMD ($B = 0.167$, $p < 0.001$), baseline total WHODAS ($B = 1.225$, $p < 0.001$), at 4 months ($B = 0.683$, $p = 0.005$) and 8 months ($B = 0.742$, $p = 0.011$), and inverse between SPI 10 and baseline GAF ($B = -2.778$, $p = 0.001$) and GAF at 4 months ($B = -2.208$, $p = 0.014$).

3.4. Type of treatment after CRHT

Cases who required hospital admission after home treatment by CRHT compared to those who were referred for outpatient follow-up had lower isolation behaviour persistence at 12 months ($n = 21$ [61.8%] vs $n = 74$ [84.1%], $p = 0.008$), 4 months ($n = 24$ [68.6%] vs $n = 89$ [93.7%], $p <$

0.001) and at 8 months ($n = 22$ [66.7%] vs $n = 80$ [87.9%], $p = 0.006$), better psychiatric follow-up at 12 months ($n = 28$ [73.7%] vs $n = 42$ [40%], $p < 0.001$), 4 months ($n = 37$ [90.2%] vs $n = 64$ [58.7%], $p < 0.001$) and 8 months ($n = 29$ [72.5%] vs $n = 53$ [49.5%], $p = 0.013$), and better social networks at 12 months (better $n = 20$ [58.8%] vs $n = 30$ [33.3%], $p = 0.010$), 4 months (better $n = 27$ [77.1%] vs $n = 33$ [35.9%], $p < 0.001$), and 8 months (better $n = 20$ [58.8%] vs $n = 30$ [33.3%], $p = 0.008$). Overall, they had a lower relapse rate of social isolation ($n = 6$ [15.5%] vs $n = 13$ [48.1%], $p = 0.005$). In terms of baseline characteristics, they had a worse social network (poor social network $n = 22$ [23.2%] vs $n = 73$ [76.8%], $p = 0.020$), without any gender differences (men $n = 35$ [81.4%] vs $n = 82$ [71.9%], $p = 0.225$) or age (mean 39.8 vs 39.2, $p = 0.849$). There were differences in the comorbid diagnoses, with a higher proportion of hospitalization in patients with psychotic disorders ($n = 34$ [79.1%] vs $n = 27$ [23.7%], $p < 0.001$).

Fig. 1. Confirmed follow-up for outpatient medical resources in cases with social isolation after being referred from the CRHT team (during the 12 months)

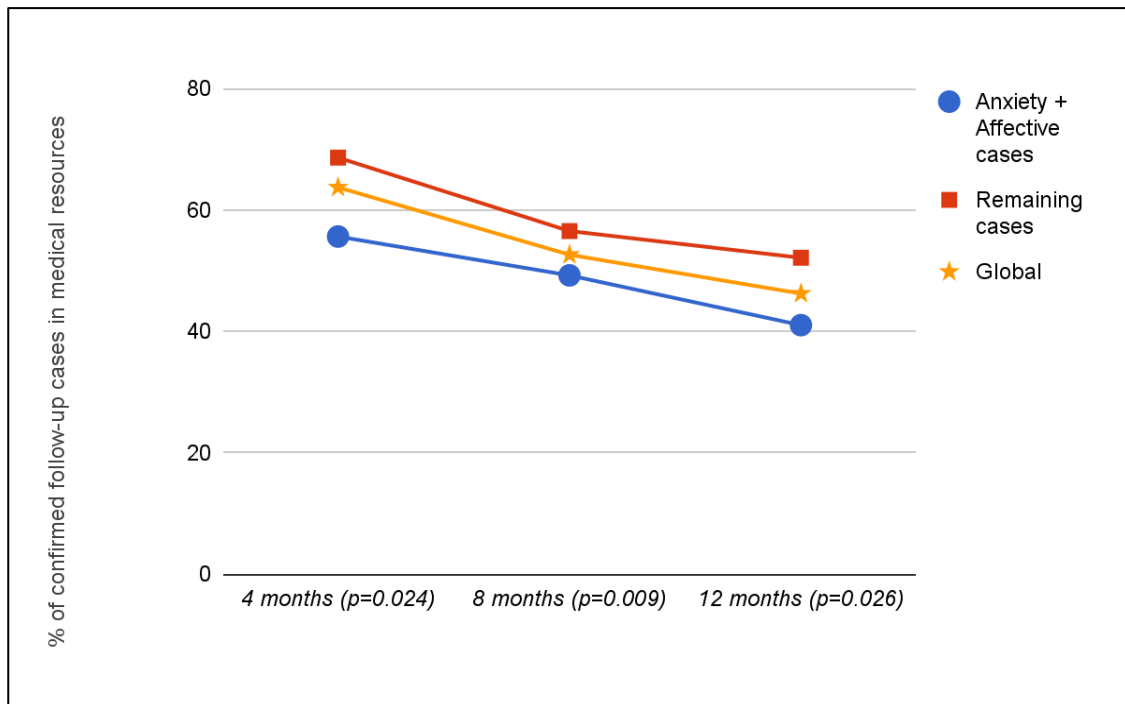


Table 1
Socio-demographic and clinical differences between the socially isolated cases with comorbid anxiety or affective disorder and cases with different comorbid disorders who were at home by CRHT

Variables	Global (<i>n</i> = 190) <i>n</i> (%)	Anxiety + affective cases (<i>n</i> = 63) <i>n</i> (%)	Remaining cases (<i>n</i> = 127) <i>n</i> (%)	<i>p</i>
Gender, Male, <i>n</i> (%)	136 (72.1)	37 (58.7)	99 (78.6)	0.004
Age, mean (<i>SD</i>)	39.1 (18.1)	43.6 (20.65)	37 (16.04)	0.018
Isolation period, months, mean (<i>SD</i>)	38.1 (52.3)	36.5 (47.4)	39.1 (54.8)	0.734
Age at onset of isolation, mean (<i>SD</i>)	36.2 (17.9)	39.8 (20.6)	34.4 (16.2)	0.073
Social network at the beginning of CRHT treatment				0.032
- None	65 (34.2)	15 (23.8)	49 (38.9)	
- People living together	109(57.4)	39 (61.8)	71 (55.6)	
- People outside the home	16 (8.4)	9 (14.3)	7 (5.6)	
Social network at the end of CRHT treatment				0.027
- None	41 (21.6)	7 (11.1)	34 (26.2)	
- People living together	118(62.1)	40 (63.5)	78 (61.9)	
- People outside the home	29 (15.3)	15 (23.8)	14 (11.1)	
- Normalized	2 (1.1)	1 (1.6)	1 (0.8)	
Psychiatric history	141 (74.7)	47 (33.3)	94 (66.7)	<0.001
- Drug use disorder	5 (3.5)	2 (4.3)	3 (3.2)	
- Psychotic disorder	53 (37.6)	3 (6.4)	50 (53.2)	
- Affective disorder	29 (20.6))	18 (38.3)	11 (11.7)	
- Anxiety disorder	32 (22.7)	22 (46.8)	10 (10.6)	
- Personality disorder	15(10.6)	0 (0)	15 (16)	
- Other	7 (5)	2 (4.3)	5 (5.3)	
Aggressiveness history	39 (20.7)	7 (11.1)	32 (25.8)	0.019
Suicide history	19 (10.1)	5 (7.9)	14 (11.2)	0.483
Internet addiction	59 (31.4)	20 (30.2)	39 (31.5)	0.851
Referred to service by the CRHT				0.006
- Medical outpatient team	26 (16.6)	8 (14.8)	18 (17.5)	
- Psychiatric outpatient team	62 (39.5)	31 (57.4)	31 (30.1)	
- Hospitalization	48 (30.6)	9 (16.7)	39 (37.9)	
- Other	21 (13.4)	6 (11.1)	15 (14.6)	
Number of visits by the CRHT, M (<i>SD</i>)	4.2 (3.8)	5.71 (5.37)	3.59 (2.59)	<0.001
WHO/DAS total, mean (<i>SD</i>)	12.8 (3.7)	11.66 (3.54)	13.45 (3.77)	0.002
GAF at the beginning of CRHT treatment, mean (<i>SD</i>)	40.7 (15)	42.74 (13.29)	39.37 (15.6)	0.148
GAF at the end of CRHT treatment, mean (<i>SD</i>)	45.7 (16.7)	50.47 (14.69)	42.98 (17.2)	0.003
SUMD Total, mean (<i>SD</i>)	10 (4.2)	6.44 (3.76)	10.68 (4.03)	<0.001
SPI total, mean (<i>SD</i>)	12.6 (4.9)	9.98 (4.75)	13.52 (4.7)	<0.001

SPI: Severity of Psychiatric Illness Scale GAF: Global Assessment of Functioning Scale; WHO/DAS: World Health Organization Disability Assessment Scale; CRHT: Crisis Resolution Home Treatment

Table 2

Comparative analysis of the 12-month evolution in the anxiety or affective subgroup vs other cases of social isolation once discharged from CRHT and referred to outpatient or inpatient treatment centres

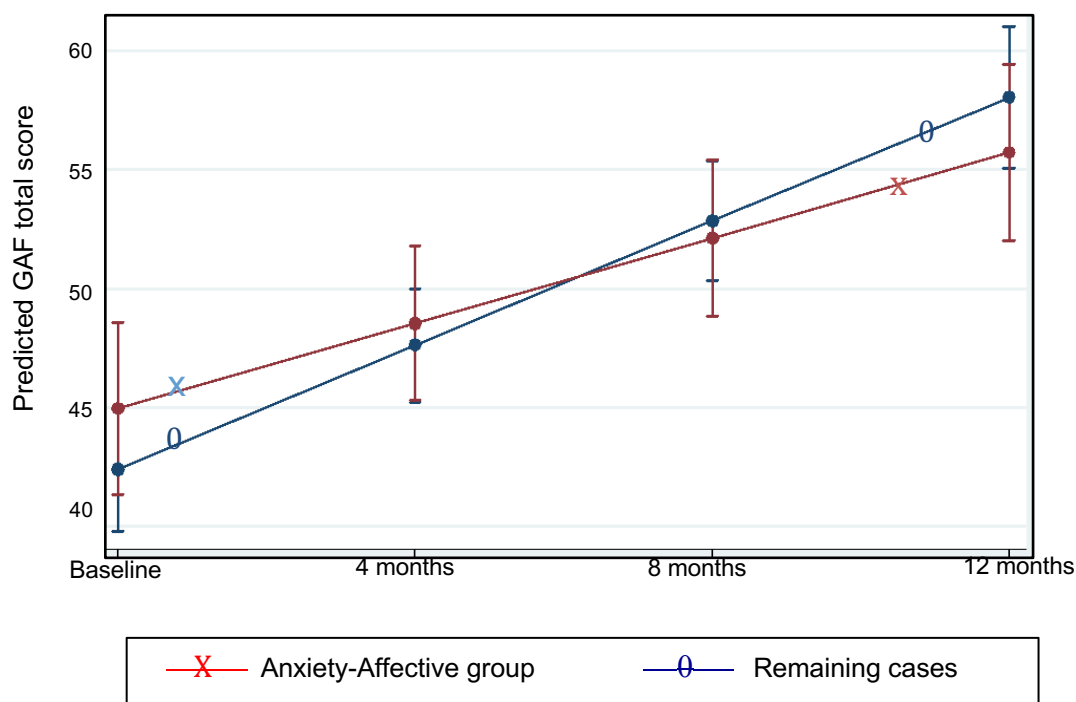
Variable	4 months			8 months			12 months		
	Anxiety + affective cases (n = 63) n (%)	Remaining cases (n = 127) n (%)	p	Anxiety + affective cases (n = 63) n (%)	Remaining cases (n = 127) n (%)	p	Anxiety + affective cases (n = 63) n (%)	Remaining cases (n = 127) n (%)	p
Social isolation persistence*	56 (91.8)	78 (84.8)	0.197	50 (87.7)	69 (79.3)	0.193	48 (84.2)	64 (76.2)	0.248
Better social isolation condition**	19 (32.2)	50 (54.9)	0.015	18 (31.6)	38 (47.7)	0.031	14 (24.6)	36 (42.9)	0.006
Social network, n (%)			0.491			0.965			0.402
- None	7 (12.1)	7 (12.1)		7 (12.3)	12 (14)		4 (7)	13 (15.9)	
- People living together	30 (51.7)	7 (7.7)		31 (54.4)	43 (50)		34 (59.6)	40 (48.8)	
- People outside home	20 (34.5)	24 (26.4)		16 (28.1)	26 (30.2)		11 (19.3)	17 (20.7)	
- Normal	1 (1.7)	2 (2.2)		3 (5.3)	5 (5.8)		8 (14)	12 (14.6)	
Responsible medical service			0.200			0.974			0.991
- Medical outpatient service	7 (11.7)	11 (10.3)		7 (11.7)	11 (11.6)		7 (11.9)	10 (11)	
- Psychiatric outpatient service	49 (81.7)	76 (71)		49 (81.7)	77 (81.1)		48 (81.4)	75 (82.4)	
- Inpatient unit	4 (6.7)	19 (17.8)		3 (5)	6 (6.3)		3 (5.1)	4 (4.4)	
- Other	0	1 (0.9)		1 (1.7)	1 (1.1)		1 (1.7)	2 (2.2)	
GAF	50.80 (14.24)	53.37 (13.4)	0.281	53.75 (14.87)	54.89 (15.5)	0.663	53.39 (16.49)	55.82 (17.7)	0.413
WHODAS Total	10.82 (3.79)	11.55 (3.73)	0.263	10.64 (4.22)	11.05 (4.44)	0.557	10.64 (4.97)	10.73 (4.03)	0.922

*Social isolation persistence: cases that maintain social isolation behaviour; **Better social isolation condition: cases with improvement in the severity of the isolation behaviour

Table 3
Regression model of the influence of anxiety-affective diagnostic group across a 12-month evolution period

	Isolation state		WHODAS Total score		GAF Total score	
	Odds ratio (SD)	<i>p</i>	Coef. (SD)	<i>p</i>	Coef. (SD)	<i>p</i>
Anxiety-affective disorder	0.27 (0.12)	0.004	-2.20 (0.70)	0.002	4.17 (2.71)	0.124
Evolution time	0.80 (0.05)	0.001	-0.86 (0.11)	<0.001	5.22 (0.49)	<0.001
Anxiety-affective disorder and evolution time	1.23 (0.13)	0.048	0.51 (0.17)	0.004	-1.62 (0.77)	0.037
Constant	1.73 (0.47)	0.043	13.96 (0.41)	<0.001	37.17 (1.6)	<0.001

Fig. 2 Influence of anxiety-affective diagnoses in total GAF score across the 12-month evolution period



4. Discussion

To our knowledge, this study is the first to analyse a large sample social isolation cases in our society in terms of the global characteristics and the evolution and response to long-term treatment, thereby providing more scientific evidence about the phenomenon in Western culture. The results of this study confirm that the phenomenon exists in cultures other than in Japan (Aguglia et al., 2010; De Michele et al., 2013; Furuhashi et al., 2012; García-Campayo et al., 2007; Gariup et al., 2008; Gondim et al., 2017; Kato et al., 2012; Kondo et al., 2013; Lee et al., 2013; Malagón-Amor et al., 2015; Ovejero et al., 2014; Sakamoto et al., 2005; Teo, 2013; Wong et al., 2017a). Only one case corresponded to primary hikikomori (Koyama et al., 2010; Teo and Gaw, 2010), although the subject did demonstrate behaviour compatible with internet addiction (Teo et al., 2015b) confirming our hypothesis that isolation behaviour is not a new diagnostic category but a serious syndrome common to different mental disorders (Malagón-Amor et al., 2015). Regarding comorbid pathologies, which were diverse, our theoretical proposal of differentiation between the group of cases with affective or anxiety pathology and the remaining cases shows that the affective-anxiety subgroup presents a lower clinical severity and disability at basal level, higher disorder awareness and greater collaboration with the treatment, being possible to be linked voluntarily to outpatient treatment centres. These baseline characteristics more favourable initially contrast with a worse evolution during the 12-month follow-up, with lower bonding and higher percentages of persistence of isolation. Regarding the disease evolution, it should be noted that when the subjects underwent less intensive treatment (outpatient treatment), there was a greater disconnection and abandonment of treatment at 12 months, with worsening of the isolation. When the treatment referral was more intensive care (e.g., hospitalization), then the improvement was greater and more stable over time. These data indicate that the best type of treatment is more effective intensive treatments at home or hospital, initially focusing on creating a therapeutic link, improving the awareness of disorder and collaboration, until complete rehabilitation of the person is achieved.

4.1. Socio-demographic and clinical characteristics

As described in previous studies, social isolation was more frequent in men (Kondo et al., 2013; Koyama et al., 2010; Li and Wong, 2015; Wong et al., 2014). This fact has been related to social factors typical of Japanese culture, in which young Asian men have a strong desire for success, together with a greater need to keep up appearances when unsuccessful. Thus, they may be more sensitive to failure and are more likely to decide to withdraw from society if they feel that they have failed (Uchida, 2010; Uchida and Norasakkunkit, 2015). This sense of failure in men could

also occur, though likely less intensely, in our society. This fact would not explain the phenomenon in its entirety but no other influencing factors have been described.

While hikikomori Japanese research has focused on young people and adolescents (Chan and Lo, 2014, 2013; Hattori, 2006; Kato et al., 2016; Kondo, 2001; Kondo et al., 2008, 2007; Li and Wong, 2015; Teo et al., 2015b; Yong and Kaneko, 2016) the wide sample analysed in our study, without any exclusions by age, shows that the existence of social isolation is not limited to a young population (Malagón-Amor et al., 2015). As described (Koyama et al., 2010), cases with onset in middle age might be related to particular social situations such as the loss of one's job, suggesting a different psychopathology. In addition, some had first experienced it in their teens or twenties, suggesting that the social isolation is a problem that has not been recognized at the beginning.

Regarding the social network, it was predominantly null or restricted only to the people with whom the subjects coexisted. The subjects with the worst social networks at the first evaluation were younger, highlighting the need for early detection and treatment in young patients. Furthermore, given the discrepancy between studies of type of relationships these subjects can maintain (Li and Wong, 2015), these data provide more evidence to reach a consensus that unifies diagnostic and inclusion criteria. Also, mobile health research methodology of extracting behaviourally meaningful features from sensor data may be useful to provide objective information to the professional clinical judgment and early detection on withdrawal behaviour (Li et al., 2017a).

The isolation time was highly variable, without a certain influence on the development or severity of the disease, which is surprising and suggests that despite the suitability of early detection, long-term cases may also have good prognoses.

4.2. Comorbid pathology

Only one case presented no associated mental disorder, corresponding to primary hikikomori (Koyama et al., 2010; Teo and Gaw, 2010). This person presented with behaviour compatible with internet addiction (Stip et al., 2016), which is not included as a diagnostic category in DSM-5; however, there are increasing proposals that it should be included (Stip et al., 2016; Tao et al., 2010). Secondary hikikomori is predominant in our society, supporting the hypothesis that the phenomenon of social isolation is a severe syndrome common to different mental disorders and not a new diagnostic category (Malagón-Amor et al., 2015). It is likely that the different mental health practices in different countries and cultures can also influence these differences (Kato et al., 2011a), which may indicate different diagnostic and therapeutic plans for similar isolation cases.

The comorbid pathologies were diverse, with psychotic, personality, affective and anxiety disorders being predominant. Other disorders, such as autism spectrum disorder, occurred infrequently. In this sense, interest in the study of social isolation has led in recent research to determine diagnostic criteria and describe the associated comorbid pathology (Teo et al., 2015b), relating it to several very heterogeneous psychiatric disorders, without a final conclusion. The relationship between depressive disorders (Teo, 2013; Teo et al., 2013a), such as Modern Type Depression (related to Japanese culture) (Kato et al., 2016) and hikikomori has questioned. In addition, anxious disorders (Nagata et al., 2013; Teo et al., 2013b) have been linked to social isolation. Our overall analysis of the diagnostic groups showed some significant differences between the diagnostic groups, socio-demographic and clinical variables, as well as the 12-month disease evolution. Based on previous studies, as well as this global analysis, we made a theoretical proposal differentiating between the group of patients with affective or anxiety pathology and the other patients, with significant between-group differences. Thus, the anxiety-affective subgroup had a greater proportion of women, with lower clinical severity and disability at baseline, greater awareness of the disorder and greater collaboration with the treatment, making it possible to treat them voluntarily on an outpatient basis. Initially, these baseline characteristics contrasted more favourably with a worse disease evolution during the 12 months, with lower bonding, higher percentages of persistence of isolation and worsening of clinical condition. These data lead us to consider whether the unique and differentiated characteristics of the anxiety-affective subgroup would be specifically related to hikikomori social isolation syndrome. Therefore, could we exclude subjects with comorbid pathologies, such as substance use disorder, personality disorder or psychosis, from the studies of social isolation-hikikomori? Alternatively, perhaps we should evaluate the different subtypes of isolation to offer different types of treatment based on disease comorbidity.

4.3. Evolution during the twelve months: importance of the type of treatment and collaboration

To the best of our knowledge, this study is the first 12-month follow-up study of subjects with social isolation. After the home treatment by the CRHT has been completed, and the cases are referred to the outpatient or hospital centre, there is an overall tendency for cases to disconnect over the following months, to persist with their isolation behaviour and to even worsen in the isolation state. Of the cases, only 14% ended with a normalized social network. Although disconnection was a global phenomenon, it was more pronounced in the anxiety-affective subgroup, which is surprising given its initial greater collaboration with treatment. We consider that differences in the maintenance of the psychiatric follow-up and worsening of the recovery

state in this subgroup are partly related to the fact that this subgroup was more frequently referred to outpatient devices. The results suggest that subjects treated with more intensive treatment devices, such as hospitalization, achieved more rapid and stable improvement over a year, with better social networks and maintenance of the psychiatric follow-up during the 12 months. This result occurred even when the initial clinical characteristics were more unfavourable, such as poor social network and psychotic diagnosis. This fact raises the question of which treatment types are most appropriate to treat social isolation and highlights the failure of existing specialized outpatient devices used to treat these types of social isolated cases. Thus, some authors have indicated the need for early intervention (Hattori, 2006), both voluntary and involuntary hospitalization (Kato et al., 2012), with pharmacotherapy (Nagata et al., 2013), antidepressants (Teo, 2010), animal-assisted therapy (Wong et al., 2017b) or even traditional Chinese medicine (Kato et al., 2012). Others have emphasized the need to create a bond and trust with the patient (Krieg and Dickie, 2013) through which treatment can be initiated and to understand their psychosocial situations and possible attachment traumas (Hattori, 2006; Ogino, 2004; Wong, 2009). There have been described approaches to engage withdrawn young people, based on three identified reasons for changing their withdrawal behaviour: rebalancing one's ideal self with reality, reconnecting with tuned-in people, and regaining momentum in life (Li et al., 2017b). In this regard, it should be noted that one of the most important problems for the management and treatment of social isolation cases is the access to these subjects and their limited collaboration (Lee et al., 2013). Cases with the worst collaboration had the worst social networks, greater severity and disability, and more frequently required hospitalization. The intensive home-based approach and the creation of a therapeutic relationship facilitates the awareness of the disorder and the need for treatment, improving the social isolation behaviour. These data make it possible to determine the type of treatment that is most appropriate for people with social isolation, and we believe that the basis for treating these subjects is their initial home access, link building and initial intensive approach, either at home or in the hospital, with prolonged treatment times focusing on social skills rehabilitation and social reintegration, until complete rehabilitation of the person is achieved. We consider that short-term treatments represent failure for this type of subject.

This study has several strengths and limitations that must be considered. Its main strength is the fact that it is the first study in Western culture to investigate a wide sample of isolation cases and to analyse its global characteristics, long-term disease evolution and response to treatment. However, the first and primary limitation is the methodology; this study is an observational descriptive study, for which it is not possible to establish causal relations between variables or to realize a true calculation of incidence. Another important limitation is the heterogeneity of the sample, in terms of the age range and comorbid pathology, although this heterogeneity has been

used to evaluate different subgroups that contribute more scientific evidence on the phenomenon. In addition, some variables, such as the degree of isolation and social network, have not been evaluated objectively through standardized scales, which could be used as a reference for future research. Due to the long 12-months follow-up, some data has not been possible to obtain for all cases, such as the social network (Table 2), which supposes a remarkable loss of information.

In conclusion, this study reinforces the existence of hikikomori-isolation syndrome in our culture, supporting the hypothesis that it is a syndrome comorbid with several psychiatric disorders. In turn, possible subgroups, depending on the comorbid condition, may exist. Included in these subgroups are patients with anxiety or affective disorder who present specific differential characteristics with other heterogeneous cases that could resemble the hikikomori syndrome described in Japan and have specific treatment needs. This analysis would provide data to reach consensus on the diagnostic criteria and establish the specific characteristics of social isolation hikikomori syndrome. The 12-month follow-up analysis demonstrated the fragility and tendency to relapse and have disengagement, which was particularly relevant in the subgroup of patients with mood-anxiety disorders. Intensive treatments may be more effective than conventional outpatient treatments.

Funding

Dr. Teo's work was partially supported by the U. S. Department of Veterans Affairs, Veterans Health Administration, Office of Research and Development, Health Services Research and Development (HSR&D) and the HSR&D Center to Improve Veteran Involvement in Care (CIVIC Grant Number: I50 HX001244-01). His work was also supported in part by a Career Development Award from the Veterans Health Administration Health Service Research and Development (HSR&D) (CDA 14-428).

Conflicts of interest

The authors declare no conflicts of interest.

Disclaimer

The U.S. Department of Veterans Affairs played no role in the design and conduct of the study; in the data collection, management, analysis, and interpretation; in the preparation, review, or approval of the manuscript; or in decision to submit the manuscript for publication.

The findings and conclusions in this document are those of the authors, who are responsible for its contents. The findings and conclusions do not necessarily represent the views of the U.S. Department of Veterans Affairs or the United States government.

References

- Aguglia, E., Signorelli, M.S., Pollicino, C., Arcidiacono, E., Petralia, A., 2010. Hikikomori phenomenon: cultural bound or emergent psychopathology? *J. Psychopathol. Behav. Assess.* 16, 157–164.
- Bulbena, A., Pompei, S., Olle, L., Coletas, J., 1997. Assessment of Severity of Psychiatry illness. *Arch. Neurobiología* 60, 69–79.
- Campbell, A.J., Cumming, S.R., Hughes, I., 2006. Internet use by the socially fearful: addiction or therapy? *Cyberpsychol. Behav.* 9, 69–81.
- Chan, G.H.-Y., Lo, T.W., 2014. Hidden youth services: what Hong Kong can learn from Japan. *Child. Youth Serv. Rev.* 42, 118–126.
- Chan, H.-Y., Lo, T.-W., 2013. Quality of life of the hidden youth in Hong Kong. *Appl. Res. Qual. Life* 9, 951–969.
- De Michele, F., Caredda, M., Delle Chiaie, R., Salviati, M., Biondi, M., 2013. Hikikomori (ひきこもり): a culture-bound syndrome in the web 2.0 era. *Riv. Psichiatr.* 48, 354–358.
- Dieterich, M., Irving, C.B., Bergman, H., Khokhar, M.A., Park, B., Marshall, M., 2017. Intensive case management for severe mental illness. *Cochrane Database Syst. Rev.* 1, CD007906.
- Furuhashi, T., Figueiredo, C., Pionnié-Dax, N., Fansten, M., Vellut, N., Castel, P.-H., 2012. Pathology seen in French “Hikikomori”. *Seishin Shinkeigaku Zasshi* 114, 1173–1179.
- García-Campayo, J., Alda, M., Sobradiel, N., Sanz Abós, B., 2007. A case report of hikikomori in Spain. *Med. Clin.* 129, 318–319.
- Gariup, M., Parellada, E., García, C., Bernardo, M., 2008. Hikikomori or simple schizo- phrenia? *Med. Clin.* 130, 718–719.
- Gondim, F.A.A., Aragão, A.P., Holanda Filha, J.G., Messias, E.L.M., 2017. Hikikomori in Brazil: 29 years of voluntary social withdrawal. *Asian J. Psychiatr.* 30, 163–164.
- Hattori, Y., 2006. Social withdrawal in Japanese youth: a case study of thirty-five hikikomori clients. *J. Trauma Pract.* 4, 181–201.
- Kato, T.A., Hashimoto, R., Hayakawa, K., Kubo, H., Watabe, M., Teo, A.R., et al., 2016. Multidimensional anatomy of “modern type depression” in Japan: a proposal for a different diagnostic approach to depression beyond the DSM-5. *Psychiatry Clin. Neurosci.* 70, 7–23.
- Kato, T.A., Shinfuku, N., Fujisawa, D., Tateno, M., Ishida, T., Akiyama, T., et al., 2011a. Introducing the concept of modern depression in Japan; an international case vign- ette survey. *J. Affect. Disord.* 135, 66–76.
- Kato, T.A., Shinfuku, N., Sartorius, N., Kanba, S., 2011b. Are Japan's hikikomori and depression in young people spreading abroad? *Lancet* 378, 1070.
- Kato, T.A., Tateno, M., Shinfuku, N., Fujisawa, D., Teo, A.R., Sartorius, N., et al., 2012. Does the “hikikomori” syndrome of social withdrawal exist outside Japan? A pre- liminary international investigation. *Soc. Psychiatry Psychiatr. Epidemiol.* 47, 1061–1075.
- Koenders, J.F., de Mooij, L.D., Dekker, J.M., Kikkert, M., 2017. Social inclusion and re- lationship satisfaction of patients with a severe mental illness. *Int. J. Soc. Psychiatry* 63, 773–781.
- Kondo, N., 2001. Social withdrawal in the adolescent and young adult. *Seishin Shinkeigaku Zasshi* 103, 556–565.
- Kondo, N., Iwazaki, H., Kobayashi, M., Miyazawa, H., 2007. Psychiatric background of social withdrawal in adolescence. *Seishin Shinkeigaku Zasshi* 109, 834–843.
- Kondo, N., Sakai, M., Ishikawa, S.-I., Niimuras, J., Tanoue, M., 2008. Home visits for social withdrawal cases in community mental health and child welfare services. *Seishin Shinkeigaku Zasshi* 110, 536–545.
- Kondo, N., Sakai, M., Kuroda, Y., Kiyota, Y., Kitabata, Y., Kurosawa, M., 2013. General condition of hikikomori (prolonged social withdrawal) in Japan: psychiatric diagnosis and outcome in mental health welfare centres. *Int. J. Soc. Psychiatry* 59, 79–86.
- Koyama, A., Miyake, Y., Kawakami, N., Tsuchiya, M., Tachimori, H., Takeshima, T., World Mental Health Japan Survey Group, 2002-2006, 2010. Lifetime prevalence, psychiatric comorbidity and demographic correlates of “hikikomori” in a community population in Japan. *Psychiatry Res.* 176, 69–74.
- Krieg, A., Dickie, J.R., 2013. Attachment and hikikomori: a psychosocial developmental model. *Int. J. Soc. Psychiatry* 59, 61–72.
- Lee, Y.S., Lee, J.Y., Choi, T.Y., Choi, J.T., 2013. Home visitation program for detecting, evaluating and treating socially withdrawn youth in Korea. *Psychiatry Clin. Neurosci.* 67, 193–202.

- Linz, S.J., Sturm, B.A., 2013. The phenomenon of social isolation in the severely mentally ill. *Perspect. Psychiatr. Care* 49, 243–254.
- Li, T.M.H., Li, C.-T., Wong, P.W.C., Cao, J., 2017a. Withdrawal behaviors and mental health among college students. *Behav. Psychol./Psicol. Conduct.* 25, 99–109.
- Li, T.M.H., Liu, L., Wong, P.W.C., 2017b. Withdrawal experience and possible way-outs from withdrawal behavior in young people. *Qualitative Social Work* 1473325016688369.
- Li, T.M.H., Wong, P.W.C., 2015. Youth social withdrawal behavior (hikikomori): a systematic review of qualitative and quantitative studies. *Aust. N.Z. J. Psychiatry* 49, 595–609.
- Lyons, J.S., Stutesman, J., Neme, J., Vessey, J.T., O'Mahoney, M.T., Camper, H.J., 1997. Predicting psychiatric emergency admissions and hospital outcome. *Med. Care* 35, 792–800.
- Malagón-Amor, Á., Córcoles-Martínez, D., Martín-López, L.M., Pérez-Solà, V., 2015. Hikikomori in Spain: a descriptive study. *Int. J. Soc. Psychiatry* 61, 475–483.
- Ministry of Health, L.A.W., 2003. *Shakaiteki Hikikomori Wo Meguru Tiiki Seisin Hoken Katudou No Guide-line (Guideline on Mental Health Activities in Communities for Social Withdrawal)*. Tokio.
- Nagata, T., Yamada, H., Teo, A.R., Yoshimura, C., Nakajima, T., van Vliet, I., 2013. Comorbid social withdrawal (hikikomori) in outpatients with social anxiety disorder: clinical characteristics and treatment response in a case series. *Int. J. Soc. Psychiatry* 59, 73–78.
- Nishida, M., Kikuchi, S., Fukuda, K., Kato, S., 2016. Jogging therapy for Hikikomori social withdrawal and increased cerebral hemodynamics: a case report. *Clin. Pract. Epidemiol. Ment. Health* 12, 38–42.
- Ogino, T., 2004. Managing categorization and social withdrawal in Japan: rehabilitation process in a private support group for Hikikomorians. *Int. J. Jpn. Sociol.* 13, 120–133.
- Ovejero, S., Caro-Cañizares, I., de León-Martínez, V., Baca-García, E., 2014. Prolonged social withdrawal disorder: a hikikomori case in Spain. *Int. J. Soc. Psychiatry* 60, 562–565.
- Saito, K., 2010. *Hikikomori No Hyouka-Shien Ni kansuru Gaido-Rain [Guideline of Hikikomori For Their Evaluations and Supports]*. Ministry of Health, Labour and Welfare, Tokyo (http://www.ncgmkohodai.go.jp/pdf/jidouseishin/22ncgm_hikikomori.pdf).
- Saito, T., 1998. *Shakaiteki Hikikomori: Owaranai Shishunki [Social withdrawal: a Never Ending Adolescence]*. PHP Kenkyujo, Tokyo, Japan.
- Sakamoto, N., Martin, R.G., Kumano, H., Kuboki, T., Al-Adawi, S., 2005. Hikikomori, is it a culture-reactive or culture-bound syndrome? Nidotherapy and a clinical vignette from Oman. *Int. J. Psychiatry Med.* 35, 191–198.
- Stip, E., Thibault, A., Beauchamp-Chatel, A., Kisely, S., 2016. Internet addiction, hikikomori syndrome, and the prodromal phase of psychosis. *Front. Psychiatry* 7, 6.
- Suwa, M., Hara, K., 2003. Hikikomori among Young Adults in Japan: the importance of differential diagnosis between primary hikikomori and hikikomori with high-functioning pervasive developmental disorders. *Med. Welfare Res.* 3, 94–101.
- Suwa, M., Suzuki, K., Hara, K., Watanabe, H., Takahashi, T., 2003. Family features in primary social withdrawal among young adults. *Psychiatry Clin. Neurosci.* 57, 586–594.
- Tao, R., Huang, X., Wang, J., Zhang, H., Zhang, Y., Li, M., 2010. Proposed diagnostic criteria for internet addiction. *Addiction* 105, 556–564.
- Tateno, M., Park, T.W., Kato, T.A., Umene-Nakano, W., Saito, T., 2012. Hikikomori as a possible clinical term in psychiatry: a questionnaire survey. *BMC Psychiatry* 12, 169.
- Teo, A.R., 2013. Social isolation associated with depression: a case report of hikikomori. *Int. J. Soc. Psychiatry* 59, 339–341.
- Teo, A.R., 2010. A new form of social withdrawal in Japan: a review of hikikomori. *Int. J. Soc. Psychiatry* 56, 178–185.
- Teo, A.R., Choi, H., Valenstein, M., 2013a. Social relationships and depression: ten-year follow-up from a nationally representative study. *PLoS One* 8, e62396.
- Teo, A.R., Fetters, M.D., Stufflebam, K., Tateno, M., Balhara, Y., Choi, T.Y., et al., 2015a. Identification of the hikikomori syndrome of social withdrawal: Psychosocial features and treatment preferences in four countries. *Int. J. Soc. Psychiatry* 61, 64–72.
- Teo, A.R., Gaw, A.C., 2010. Hikikomori, a Japanese culture-bound syndrome of social withdrawal? A proposal for DSM-5. *J. Nerv. Ment. Dis.* 198, 444–449.
- Teo, A.R., Lerrigo, R., Rogers, M.A.M., 2013b. The role of social isolation in social anxiety disorder: a systematic

- review and meta-analysis. *J. Anxiety Disord.* 27, 353–364.
- Teo, A.R., Stufflebam, K., Saha, S., Fetters, M.D., Tateno, M., Kanba, S., et al., 2015b. Psychopathology associated with social withdrawal: Idiopathic and comorbid presentations. *Psychiatry Res.* 228, 182–183.
- Uchida, C., 2010. Apathetic and withdrawing students in Japanese universities—with regard to Hikikomori and student apathy. *J. Med. Dent. Sci.* 57, 95–108.
- Uchida, Y., Norasakkunkit, V., 2015. The NEET and Hikikomori spectrum: assessing the risks and consequences of becoming culturally marginalized. *Front. Psychol.* 6, 1117. Wong, P.W.C., Liu, L.L., Li, T.M.H., Kato, T.A., Teo, A.R., 2017a. Does hikikomori (severe social withdrawal) exist among young people in urban areas of China? *Asian J. Psychiatr.* 30, 175–176.
- Wong, P.W.C., Yu, R.W.M., Li, T.M.H., Lai, S.L.H., Fan, W.T.W., 2017b. Efficacy of a multicomponent intervention with animal-assisted therapy for socially withdrawn youth in Hong Kong. *Soc. Anim.* <https://doi.org/10.1163/15685306-12341462>.
- Wong, P.W., Li, T.M., Chan, M., Law, Y., Chau, M., Cheng, C., et al., 2014. The prevalence and correlates of severe social withdrawal (hikikomori) in Hong Kong: A cross-sectional telephone-based survey study. *Int. J. Soc. Psychiatry.* <https://doi.org/10.1177/0020764014543711>.
- Wong, V., 2009. Youth locked in time and space? Defining features of social withdrawal and practice implications. *J. Soc. Work Pract. Addict.* 23, 337–352.
- Yong, R.K.F., Kaneko, Y., 2016. Hikikomori, a phenomenon of social withdrawal and isolation in young adults marked by an anomic response to coping difficulties: a qualitative study exploring individual experiences from first-and second-person perspectives. *Open J. Prev. Med.* 6, 1.

6.3 Tercer estudio

Malagón-Amor, Á., Martín-López, L. M., Córcoles, D., González, A., Bellsolà, M., Teo, A. R., Bulbena, A., Pérez, V., & Bergé, D. (2020). Family Features of Social Withdrawal Syndrome (Hikikomori). *Frontiers in Psychiatry*, 11:138

<https://doi.org/10.3389/fpsy.2020.00138>

OBJETIVOS E HIPÓTESIS DEL ESTUDIO:

Objetivo 5: Determinar los factores familiares relacionados con la presencia del aislamiento social.

Hipótesis 5: Existe una asociación entre el aislamiento social y factores familiares. El aislamiento no está únicamente relacionado con factores culturales ligados a la sociedad japonesa.

Es el primer estudio realizado en una cultura diferente a la japonesa acerca de los factores familiares asociados al aislamiento social, aportando evidencia muy novedosa sobre este fenómeno.

En 36 casos (18%) ni la familia ni el paciente accedieron a que el EMSE realizase una evaluación ni tratamiento en el domicilio.

Los resultados mostraron elevada frecuencia de antecedentes psiquiátricos familiares, dinámicas familiares disfuncionales y abusos en la infancia, estando estos factores altamente correlacionados. Cada una de estas variables familiares se relacionó significativamente con al menos una de las variables de gravedad del aislamiento.

Los antecedentes psiquiátricos familiares más frecuentes fueron trastornos de ansiedad y afectivos en las madres. En los padres, se observó mayor frecuencia de trastornos psicóticos y por uso de sustancias. La presencia de antecedentes psiquiátricos familiares se relacionó significativamente con inicio más precoz del aislamiento, mayor frecuencia de adicción a internet y menor seguimiento médico a los 12 meses.

Las dinámicas familiares disfuncionales fueron muy frecuentes (61.5%), y se asociaron a variables de gravedad del aislamiento tales como el inicio más precoz, menor colaboración de la familia y menor seguimiento médico a los 12 meses.

Los resultados mostraron la presencia de antecedentes de maltrato en la infancia en el 20% de los casos, asociándose a variables de gravedad de aislamiento tales como menor colaboración familiar, más antecedentes psiquiátricos familiares y distocia familiar.

El 37.8% de los casos pertenecía a una familia monoparental, conviviendo mayoritariamente con la madre (94.1%). Estos casos fueron más jóvenes y con menor tiempo de evolución del aislamiento, con mayor puntuación en la escala de carga del cuidador Zarit. Requirieron más frecuentemente ingreso hospitalario, y no se observaron diferencias estadísticamente significativas en las variables de seguimiento a 12 meses.

* NOTA: Reproducido tras su publicación en Open Access en la revista *Frontiers in Psychiatry*: Malagón-Amor Á, Martín-López LM, Córcoles D, González A, Bellsolà M, Teo AR, Bulbena A, Pérez V and Bergé D (2020) Family Features of Social Withdrawal Syndrome (Hikikomori). *Front. Psychiatry* 11:138.



Family Features of Social Withdrawal Syndrome (Hikikomori)

Ángeles Malagón-Amor^{1,2*}, Luis Miguel Martín-López^{1,2,3,4}, David Córcoles^{1,3}, Anna González¹, Magda Bellsolà¹, Alan R. Teo^{5,6,7}, Antoni Bulbena^{1,2,3,4}, Víctor Pérez^{1,2,3,4} and Daniel Bergé^{1,2,3,4}

¹Institut de Neuropsiquiatria i Addiccions (INAD), Hospital del Mar, Barcelona, Spain, ²Department of Psychiatry and Forensic Medicine, Autonomous University of Barcelona, Barcelona, Spain, ³Centro de Investigación Biomédica en Red de Salud Mental, CIBERSAM G21, Madrid, Spain, ⁴Hospital del Mar Medical Research Institute (IMIM), Barcelona, Spain, ⁵Center to Improve Veteran Involvement in Care (CIVIC), VA Portland Health Care System, Portland, OR, United States, ⁶Department of Psychiatry, School of Medicine, Oregon Health & Science University, Portland, OR, United States, ⁷School of Public Health, Oregon Health & Science University and Portland State University, Portland, OR, United States

OPEN ACCESS

Edited by:

Xavier Noel,
Université Libre de Bruxelles, Belgium

Reviewed by:

Susana Jiménez-Murcia,
Hospital Universitario de
Bellvitge, Spain
Iryna Frankova,
Bogomolets National Medical
University, Ukraine

*Correspondence:

Ángeles Malagón-Amor
AMalagon@parcdesalutmar.cat

Specialty section:

This article was submitted to
Psychopathology,
a section of the journal
Frontiers in Psychiatry

Received: 10 December 2018

Accepted: 14 February 2020

Published: 02 March 2020

Citation:

Malagón-Amor Á, Martín-López LM, Córcoles D, González A, Bellsolà M, Teo AR, Bulbena A, Pérez V and Bergé D (2020) Family Features of Social Withdrawal Syndrome (Hikikomori). *Front. Psychiatry* 11:138. doi: 10.3389/fpsy.2020.00138

Background: Family may play an important role in the origin, maintenance, and treatment of people with social withdrawal. The aim of this study is to analyze family factors related to social withdrawal syndrome.

Methods: Socio-demographic, clinical, and family data, including family psychiatric history, dysfunctional family dynamics, and history of family abuse were analyzed in 190 cases of social withdrawal with a minimum duration of 6 months that started an at-home treatment program. Data were analyzed at baseline and at 12 months.

Results: In 36 cases (18%) neither the patient nor the family allowed at home evaluation and treatment by the Crisis Resolution Home Treatment (CRHT) team. Patients had high rates of dysfunctional family dynamics ($n = 115$, 61.5%), and family psychiatric history ($n = 113$, 59.3%), especially maternal affective ($n = 22$, 42.9%), and anxiety disorders ($n = 11$, 20.4%). There was a non-negligible percentage of family maltreatment in childhood ($n = 35$, 20.7%) and single-parent families ($n = 66$, 37.8%). Most of the cases lived with their families ($n = 135$, 86%), had higher family collaboration in the therapeutic plan ($n = 97$, 51.9%) and families were the ones to detect patient isolation and call for help ($n = 140$, 73.7%). Higher social withdrawal severity (as defined by at least one of: early age of onset, no family collaboration, lack of insight, higher CGSI score, and higher Zarit score), was associated with family psychiatric history, dysfunctional family dynamics, and family abuse history. All of these predictive variables were highly correlated one to each other.

Conclusions: There is a high frequency of family psychiatric history, dysfunctional family dynamics, and traumatic events in childhood (family maltreatment), and these factors are closely interrelated, highlighting the potential role of family in the development and maintenance of social withdrawal.

Keywords: hikikomori, social isolation, social withdrawal, family factors, family psychiatric history, home treatment, dysfunctional family dynamics, childhood maltreatment

INTRODUCTION

Social withdrawal syndrome was first described in Japan as hikikomori, and defined as the state of confining oneself to one's house for more than 6 months and strictly limiting communication with others (1). In recent years its existence has been described in other countries and cultures, noting that other factors besides Japanese culture may also influence its origin and development (2–4).

We have previously assessed which factors determine withdrawal relapse or persistence (3). Among them, some factors, such as age or comorbid diagnostics, may result in being difficult to modify. However, intensive treatment care, which showed a positive effect on prognosis (3), could be extended with the collaboration of different settings and familial environment.

More than half of the patients affected by social withdrawal maintain a relationship with their families (3, 5), which opens the door for one of the few opportunities for intervention and reinforces the relevance of studying family factors in social withdrawal. However, to our knowledge, few studies have reported data regarding family factors in relation to onset, persistence, or relapse in social withdrawal (6–9).

Family factors that have been identified with the appearance of social isolation include: insecure attachment (10), death of a family member (11), nuclear family without extended family support (12–14), fragmented family (15), dysfunctional family and parenting dynamics (8, 16–18), as well as emotional neglect and child abuse (19). A higher risk has been observed in families with a high economic level, as well as those with a high parental educational level (6). It has been described that some parents who do not know how to start a conversation or worry about their children (8) may not teach their children empathy, how to establish trusting relationships with others, and how to engage in healthy communications (20). Other features, such as traumatic childhood experience and family maltreatment history, have been described as risk factors for developing social withdrawal syndrome (6, 12, 18, 19).

In relation to dysfunctional family dynamics, hikikomori in Japan has been related to the concept of “*amae*” (21), which describes the Japanese dependent behavior in which a person implores, or alternatively acts with selfishness and indulgence, knowing that the caregiver will forgive them. Traditionally, in Asian societies, this is a frequent phenomenon that begins in childhood, generating a family dynamic in which the child uses manipulation to gain parental care, chronifying themselves in time, and thus, becoming economically dependent upon their parents (17, 22, 23). Adding to this phenomenon, the current generation of Japanese young adults has experienced a decrease in desire and motivation (18). In addition, the economic comfort afforded by Japanese families has led to a decrease in the value of work. Finally, it has been pointed out that parents are less strict in the upbringing of their children (24). In Western culture there is no word equivalent to “*amae*,” which may be related to a lower prevalence, although it may also exist.

In relation to the possible influence of parental psychopathology as a risk factor, there are few studies. Panic disorder in the mother has been described as a risk factor (6),

suggesting that this association could be attributable to parenting behavior that reinforces the patient's anxiety and avoidant coping strategy. In our research setting, our team described a high frequency of family psychiatric history, mostly maternal affective, and anxiety disorders. Fathers were more likely to have psychotic and drug use disorders (2); however, no other studies have investigated family history by separating the two parents.

In addition, it is undoubted that the family plays a very important role in the detection and treatment of the social withdrawal of their children (8, 23), as they usually alert health services about the situation and ask for help. However, due to prejudice and lack of knowledge, in many cases family members are unable to intervene at all, and the socially withdrawn person tends to hide for many years without seeking help (4). That is why, after the initial consultation, the first step is to alleviate the psychological burden on the parents themselves, support them and relieve their feelings of despair and self-condemnation (7, 8), perform family psychoeducation (4), and facilitate understanding and acceptance of the diagnosis and treatment of social withdrawal. It is also relevant for early detection in relatives or descendants of people with mental illness (2).

All of these aspects lead to the importance of the role of family and hereditary factors in social withdrawal, to understand its influence on the origin of the syndrome, and to apply this knowledge in early detection and treatment, both at the individual and family levels. Therefore, the objective of this study is the analysis of family factors related to social withdrawal and its evolution.

MATERIALS AND METHODS

Participants

The participants were 190 subjects with social withdrawal and their families, who were attended by the Crisis Resolution Home Treatment (CRHT) program from 2008 to 2014 in Barcelona (Spain). The diagnostic inclusion criteria were (25–28): (1) spend most of the day and almost every day at home; (2) avoid social situations, such as attending school or going to work; (3) avoid social relationships, such as friendships or contacts with family members; (4) discomfort or significant deterioration due to social isolation; (5) minimum duration of 6 months. These symptoms should be primary and predominant over any other symptoms, in case there were others. The exclusion criteria were subjects with diagnosed cognitive disorders, such as dementia, drug dependence without other comorbid psychiatric disorders, age younger than 12 years old, and subjects for whom the only treatment option was involuntary inpatient therapy. Diagnosis was made by the psychiatrists of the CRHT team through clinical evaluation.

Home Visitation Program

The CRHT team comprised two psychiatrists and two nurses. The target population were patients with severe mental disorders disengaged from outpatient monitoring, and people with no psychiatric history who presented behavioral disorders suggestive of mental disorders. Cases were referred to the CRHT by

social workers, primary and psychiatry outpatient teams, and/or psychiatric emergency services. When a case was referred to the CRHT, a first interview was performed with the family or caregiver, if it existed, to collect the medical and psychiatric history, socio-demographic data, determine which was the clinical situation, and coordinate the home visit. After, once at home, the diagnostic approach was made and pharmacological treatment was prescribed if necessary. Several home visits were performed until clinical stabilization. The mean number of visits was 4, with a wide range, from 1 to 21 visits. A review of the previous articles will provide more information on the operation of the equipment (2, 3). When CRHT home treatment was completed, cases were referred to the most appropriate device in an individualized manner: outpatient psychiatric or medical center, hospitalization, or others. Following this referral, the clinical condition and situation of isolation was evaluated by contacting the mental health team currently in charge of the subject at 4, 8, and 12 months after referral.

Measurement Instruments

All cases were prospectively studied according to a routine computerized protocol that included demographic and clinical information. Socio-demographic data included age, gender, social network, and living situation. The latter included screening for dysfunctional family relationships. A dysfunctional family was defined as one whose interrelationships serve to detract from, rather than promote, the emotional and physical health and well-being of its members, with continuous conflict and instability, and with traits such as poor communication, excessive control, perfectionism, lack of empathy, and excessive criticism. The degree of family collaboration in the therapeutic plan was also evaluated. Clinical characteristics included referral source, family psychiatric history, and personal psychiatric history. This included medical history, family abuse history in childhood, and previous contact with any outpatient-type mental health service. The socially withdrawn period and the age at onset of social withdrawal were also recorded. The patient diagnoses were evaluated using the DSM-IV-TR criteria, grouping the major mental disorders into six categories: psychotic, affective, anxiety, drug abuse, personality, and other Axis I diagnoses. The service to which the CRHT referred the case after follow-up was also recorded. Illness severity was assessed using the Spanish version of the Severity of Psychiatric Illness (SPI) scale (29, 30). Subjects were also evaluated using the Global Assessment of Functioning (GAF) (31, 32), the Clinical Global Impressions Scale (33, 34) and the World Health Organization Disability Assessment (WHO/DAS) (35) to measure functioning, the Zarit Burden Interview (36) to assess caregiver burden, and the Scale of Unawareness of Mental Disorder (SUMD) (37) to evaluate insight. Internet addiction was clinically evaluated using the diagnosis criteria more widely accepted (38, 39): (1) excessive Internet use (compulsive striving for Internet usage, growing importance of Internet in the system of personal values), (2) withdrawal symptoms (mood swings like anger, depression, and anxiety when Internet is unavailable), (3) tolerance (need for increased use of the Internet to relieve negative emotional symptoms), (4) negative consequences due to Internet use

(excessive engagement in Internet use, loss of previous hobbies and entertainments, loss of social relations, educational and sport opportunities, quarrels and lies). Social network was evaluated according to criteria developed by our team based on clinical experience as follows: (1) null relationship, (2) relationship with family with whom we live, (3) relationship with a friend outside the home, and (4) normalized social relation.

An evaluation of the subject's connection to the mental health network at 4, 8, and 12 months after program discharge was performed by contacting the responsible medical service. This assessment included clinical status evaluated using the GAF and WHO/DAS scales, as well as the persistence of social isolation and its severity.

Statistical Analysis

First, a descriptive analysis of the sample at baseline was performed. A specific descriptive analysis on the diagnostic family data separated by parent was carried out due to previously described high rates of anxiety disorders in mothers of socially isolated subjects, and the lack of reports of the psychiatric history of fathers.

Second, univariate analysis between baseline family characteristics and severity measures of withdrawal at baseline were calculated using Pearson's correlation coefficient. To this purpose, the variables reflecting severity were age at onset of social withdrawal, social withdrawal time, family collaboration with treatment, null social network, internet addiction, inpatient treatment, and SPI, WHO/DAS, CGI, CGSI, SUMD, ZARIT, and GAF scores. The variables related to family characteristics were family psychiatric history, dysfunctional family dynamics, family maltreatment history, and single-parent family. Those family variables with significant correlation with severity measures were selected for the next step. The same procedure was repeated for severity measures at 12 months adding successful linkage at this point in time. Third, to test the interrelation between the family variables predicting severity, the selected family variables were tested for correlations between each other using chi-square test to test association between categorical variables. Then, to determine the level of clustering within this set of family variables, the selected variables were introduced in two separate hierarchical clustering analyses: first, the subjects' dataset for the selected variables was converted to a Euclidean distance matrix. This matrix was entered in a clustering model using averages as the grouping criteria. The same procedure was repeated for the selected variables, except that the distance matrix was created subtracting the square of the correlation matrix to one. The two resulting dendrograms were plotted one to each other to visualize the correspondence of the grouping of subjects and variables. The subjects' dendrogram was divided into as many groups as the subjective visualization of the dendrogram suggested. Finally, to control the possible confounding effect of gender and age in the relation between family factors and severity of isolation, we computed a multivariate regression analysis. To this purpose, among the initial pool of variables of severity of social withdrawal, we selected those that showed significant

correlation with family factors in the univariate analysis (age at onset of social withdrawal, family collaboration with treatment, CGSI, SUMD, ZARIT) and entered them as dependent variables. As independent variables, we entered the previously mentioned family factors (family psychiatric history, dysfunctional family dynamics, family maltreatment history, and single-parent family), and age and sex.

Analyses were conducted using SPSS 24 (SPSS, Chicago, IL, USA), except for cluster analysis and multivariate analysis that were conducted using R (RStudio, v. 1.1.423—© 2009–2018 RStudio, Inc).

RESULTS

The global sociodemographic and clinical characteristics of cases treated at home are shown in **Table 1**. A more detailed description of the socio-demographic data of this sample can be found in our previous work (2, 3). In 36 cases (18%), neither the patient nor the family allowed the CRHT evaluation and treatment at home. Each of the family variables was significantly related to at least one of the severity variables as described below (see **Table 2**). These family variables were strongly interrelated (see **Table 3**). The difference between the ultrametric distances of the cluster analysis and the original distances was 0.0007 for the cluster analysis of the variables, and 0.0875 for the cluster analysis of the subjects, indicating good cluster modeling. **Figure 1** shows the dendrogram plot for the selected variables and subjects.

Family Psychiatric History

Family psychiatric history is described in **Table 1** and separated by gender of the parents in **Table 4**. In 21 cases, the family psychiatric history was unknown.

Having family psychiatric history was significantly associated with younger age at onset (mean age years 31.5 [SD 15.3] vs. 40.2 [SD 20.1], $p = 0.002$) and higher rates of internet addiction ($n = 41$ [36.9%] vs. $n = 18$ [23.4%], $B = 0.136$, $p = 0.049$) as measures of withdrawal severity. In regard to 12-month variables of severity, this variable was inversely related to linkage at 12 months ($B = -0.152$, $p = 0.048$). Regarding the associations with other family variables, having psychiatric history was positively related to history of family maltreatment ($n = 29$ [28.7%] vs. $n = 6$ [9%], $X-sq = 9.534$, $p = 0.002$), single-parent family ($n = 50$ [45.9%] vs. $n = 17$ [24.3%], $X-sq = 8.481$, $p = 0.004$), and familial dystocia ($n = 76$ [69.1%] vs. $n = 39$ [50.6%], $X-sq = 6.506$, $p = 0.011$).

Dysfunctional Family Dynamics

The existence of dysfunctional family dynamics was significantly related to some measures of withdrawal severity: younger age at onset of withdrawal (mean age 31.6 [SD 16.8] vs. 40.6 [SD 18.2], $p = 0.001$), higher internet addiction ($n = 43$ [37.4%] vs. $n = 16$ [22.5%], $B = 0.149$, $p = 0.034$), and less family collaboration ($n = 39$ [33.9%] vs. $n = 58$ [80.6%], $B = -0.466$, $p < 0.001$). Dysfunctional family dynamics was related with other family variables, such as having family psychiatric history ($n =$

TABLE 1 | Global sociodemographic and clinical characteristics of social withdrawal cases attended by CRHT.

Variables	Total social withdrawal cases (n = 190) n (%)
Gender, Male	137 (72.1)
Age, mean (SD)	39.1 (18.1)
Isolation period, months, mean (SD)	38.1 (52.3)
Age at onset of isolation, mean (SD)	36.2 (17.9)
WHO DETECTS SOCIAL ISOLATION	
- Family (vs. medical services)	140 (73.7)
LIVING SITUATION	
- Alone	30 (15.8)
- Family	160 (84.2)
- Family of origin	131 (81.8)
- Own family	29 (18.2)
Single-parent family	68 (37.8)
- With mother	64 (94.1)
- With father	4 (5.9)
EDUCATION LEVEL	
- Secondary or higher	77 (40.7)
- University	22 (11.6)
EMPLOYMENT STATUS	
- Unemployed	117 (61.6)
- Student	18 (9.5)
- Worker	0 (0)
- Old age pensioner	17 (8.9)
- Medical pensioner	32 (16.2)
- Sick leave	6 (3.2)
Dysfunctional family dynamics	115 (61.5)
FAMILY PSYCHIATRIC HISTORY	
- First grade	87 (76.9)
- Mother	51 (59.7)
- Father	17 (19.5)
- Brother	19 (20.7)
Second grade	26 (23.1)
Internet addiction	59 (31.4)
REFERRED SERVICE BY THE CRHT	
- Medical outpatient team	26 (16.6)
- Psychiatric outpatient team	62 (39.5)
- Hospitalization	48 (30.6)
- Other	21 (13.4)
WHO/DAS total, mean (SD)	12,8 (3.7)
GAF initial, mean (SD)	40,7 (15)
GAF final, mean (SD)	45,7 (16.7)
SUMD Total, mean (SD)	10 (4.2)
CGIS, mean (SD)	2,5 (1.6)
CGIC, mean (SD)	4,1 (1.1)
SPI total, mean (SD)	12,6 (4.9)
Zarit total, mean (SD)	44,7 (19.8)

76 [66.1%] vs. $n = 34$ [47.2%], $X-sq = 6.505$, $p = 0.011$), single-parent family ($n = 56$ [50.5%] vs. $n = 11$ [16.7%], $X-sq = 20.081$, $p < 0.001$), and family maltreatment history ($n = 30$ [29.7%] vs. $n = 5$ [7.7%], $X-sq = 11.515$, $p = 0.001$). It was also inversely related

TABLE 2 | Summary of the univariate analysis between variables of severity of isolation and family factors.

	Age at onset of isolation	Isolation time	Family collaboration with treatment	Null social network	Inpatient treatment	SPI score	WHO/DAS score	SUMD score	CGIC score	CGIS score	Zarit score	GAF score
Family psychiatric history	x											
Single-parent family											x	
Dysfunctional family dynamics	x		x							x		
Family maltreatment history			x									

x, significant correlation; $p < 0.05$.

TABLE 3 | Correlations between family variables that predict the severity of social withdrawal.

	Family maltreatment history <i>chi-square</i>	Dysfunctional family dynamics <i>chi-square</i>	Single-parent family <i>chi-square</i>	Family psychiatric history <i>chi-square</i>
Family maltreatment history	NA	11.515*	24.943*	9.534*
Dysfunctional family dynamics	11.515*	NA	20.081*	6.506*
Single-parent family	24.943*	20.081*	NA	8.481*
Family psychiatric history	9.534*	6.506*	8.481*	NA

*The Chi-Square statistic is significant at the 0.05 level.

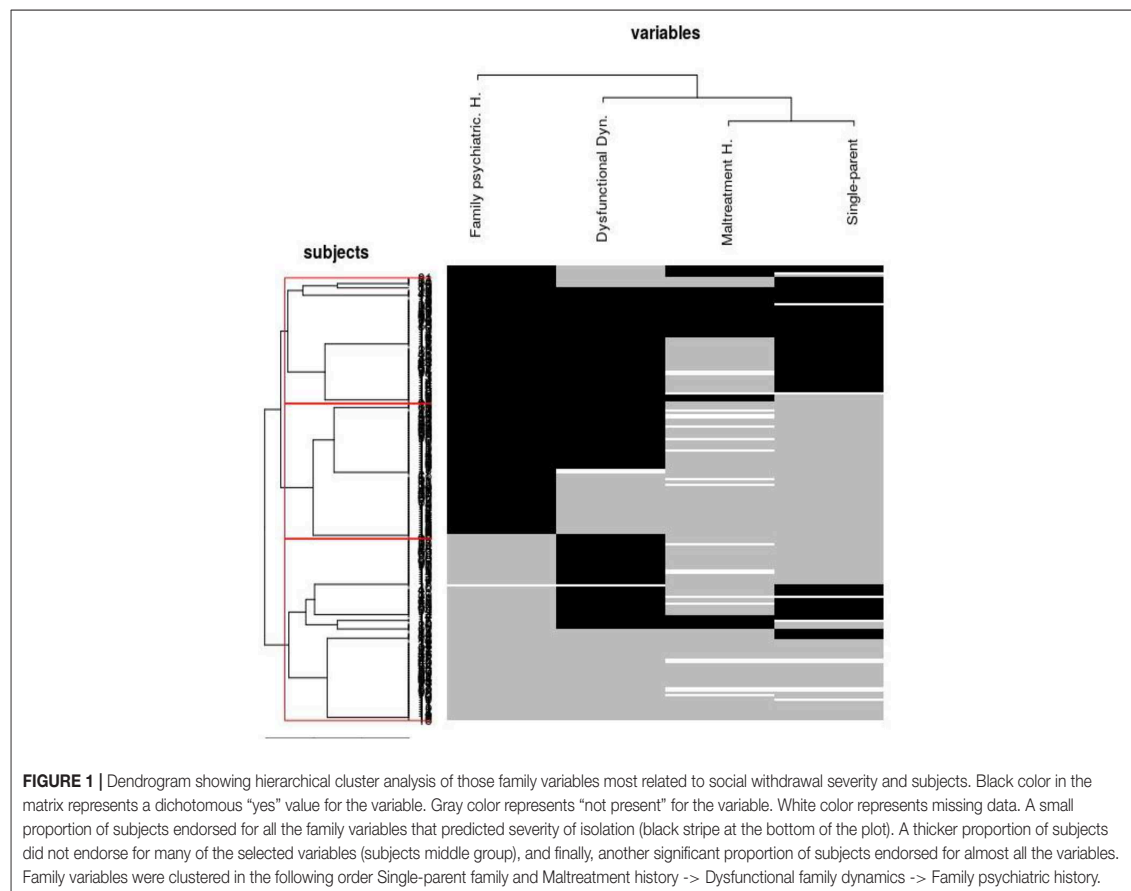


TABLE 4 | Family psychiatric diagnosis separated by parent of social withdrawal cases attended at home by CRHT.

Family psychiatric diagnosis	Mother n (%)	Father n (%)	<i>p</i>
Drug use disorder	3 (6.1)	5 (31.2)	0.01
Psychotic disorder	6 (12.2)	9 (50)	
Affective disorder	22 (42.9)	2 (12.5)	
Anxiety disorder	11 (20.4)	1 (6.2)	
Personality disorder	3 (6.1)	0 (0)	
Other	6 (12.2)	0	

with linkage at 12 months follow-up ($n = 10$ [26.3%] vs. 0 [0%], $p = 0.041$, $B = -0.161$).

Family Maltreatment History

Regarding family maltreatment history, statistically significant differences were found in withdrawal severity measures: less family collaboration with treatment ($n = 11$ [31.4%] vs. $n = 78$ [59.6%], $B = -0.281$, $p = 0.003$) and higher Zarit scores (mean 58.3 [SD 18.4] vs. mean 41.4 [18.9 SD], $p = 0.048$). No significant differences were found in the 12 months follow-up. As regards to other family variables, family maltreatment history was related with having family psychiatric history ($n = 29$ [82.9%] vs. $n = 72$ [54.1%], $X\text{-sq} = 9.534$, $p = 0.002$), dysfunctional family dynamics ($n = 30$ [85.7%] vs. $n = 71$ [54.2%], $X\text{-sq} = 11.515$, $p = 0.001$, $B = 0.263$) and single-parent family ($n = 25$ [78.1%] vs. $n = 40$ [30.1%], $X\text{-sq} = 24.943$, $p < 0.001$).

Single-Parent Families

In relation to cases from single-parent families, compared to two-parent families, statistically significant differences were found in some severity variables: age at onset of withdrawal (mean 25.9 [SD 12.1] vs. mean 38.3 [SD 18.3], $p < 0.001$), social withdrawal time (months mean 27.2 [SD 28.1] vs. mean 43.7 [SD 62.9], $p = 0.001$), higher internet addiction ($n = 31$ [46.3%] vs. $n = 27$ [24.3%], $B = 0.219$, $p = 0.002$), and higher Zarit scores (mean 53.42 [SD 19.37] vs. mean 39.06 [SD 19.11], $B = 14.361$, $p = 0.055$). Regarding other family variables, there was more frequent history of family abuse ($n = 25$ [38.5%] vs. $n = 7$ [7%], $X\text{-sq} = 24.943$, $p < 0.001$), higher family dystocia ($n = 56$ [83.6%] vs. $n = 55$ [50%], $X\text{-sq} = 20.081$, $p < 0.001$) and less family psychiatric history ($n = 50$ [45.9%] vs. $n = 59$ [54.1%], $X\text{-sq} = 8.481$, $p = 0.004$). No significant differences were found in the 12 months follow-up.

No other statistically significant differences were found between variables related to family characteristics and sociodemographic, clinical, and severity variables, and variables about follow-up for 12 months.

The multivariate regression analysis controlling for age and sex revealed a non-significant effect of sex ($F = 0.7$, $p = 0.634$), a significant effect of age ($F = 224.4$, $p < 0.001$). Dysfunctional family dynamics ($F = 6.1$, $p = 0.013$) and being single-parent family ($F = 4.8$, $p = 0.025$) remained significant to predict severity of social withdrawal, while family maltreatment history reached only trend level ($F = 3.1$, $p = 0.078$)

and family psychiatric history was non-significant ($F = 0.6$, $p = 0.684$).

Twenty-eight subject (out of 162) had at least one missing value in the variables describing the four selected family factors and thus, they were not entered in the multivariate analysis. In the univariate analysis, all subjects with available data for each analysis were used. Subjects with missing values did not differ with the rest of subjects in terms of CGIS (mean = 4.0 vs. 4.2, $p = 0.616$), GAF at baseline (37.5 vs. 41.2, $p = 0.254$), Zarit score (mean = 34.2 vs. 46.3, $p = 0.142$), or duration of social withdrawal (31.6 vs. 39.2, $p = 0.264$). However, subjects with missing values were significantly older than the rest (mean age 45.7 vs. 32.9, $p = 0.002$).

DISCUSSION

To our knowledge, this is the first study to investigate family factors related to social withdrawal syndrome in a culture other than Japanese. We found that social withdrawal had a high frequency of family psychiatric history, dysfunctional family dynamics, and traumatic events in childhood (family maltreatment). All of these factors were closely interrelated.

Family Psychiatric History

Our study shows that there is a high frequency of family psychiatric history associated with social withdrawal syndrome, as pointed out in our previous study (2). Compared to one of the few epidemiological reports of family psychiatric history (40), the rates of family psychiatric history in our population were much higher than those of the general population. Cases with a family psychiatric history experienced earlier onset of isolation. In turn, they present more unfavorable family data, such as higher frequency of childhood maltreatment history and family dystocia, suggestive of the existence of dysfunctional family dynamics that make them a high-risk group for these factors as a whole.

It is known that children of parents with severe mental illness are at risk for a variety of psychiatric disorders and a third of them may develop a serious mental illness in early adulthood (41, 42). The most frequent family psychiatric disorders are affective and anxiety, the majority occurring in mothers. These results coincide with the few previous studies on family psychopathology and social withdrawal syndrome (6), as well as with other studies on maternal anxiety disorders and children with anxious school-refusal (43) and anxiety disorders in childhood (44). This association has been related to parenting behavior specific to mothers with anxiety disorders, in which mothers tend to reinforce the anxiety of children and their coping strategies of avoidance, and would interfere with their exploration and social activity. It could also be related to some hereditary genetic factors, requiring more research on this phenomenon.

In relation to the psychopathology of the father, our data reflect a higher frequency of psychotic and substance abuse disorders. Parental drug use disorder has been reported as a risk factor for depression, anxiety, social isolation, behavioral problems, and lower academic achievement (45–48). However, to our knowledge, this is the only study that

has described the relationship between the psychopathology of the father and the offspring social withdrawal, which is not found in previous studies of social withdrawal syndrome (6).

An impairment in parenting has been reported in subgroups of parents with psychosis and low educational attainment, unemployment, poverty, and social isolation (49); the greater the difficulties in parenting, the greater the severity of the symptoms (50). These reports, together with our findings, point out impairment in parenting as a mediator in the association between parental mental disorder and risk factor for the development of the social withdrawal syndrome. This fact highlights the importance of prevention and early detection programs in this risk group (51) and the need for interventions to optimize successful parenting outcomes in the risk population. In addition, access to services and support programs by fathers is significantly lower than mothers (7), highlighting the need to emphasize aid programs for them.

Dysfunctional Family Dynamics

In relation to family functioning, 61.5% of cases present family dystocia, demonstrating its high frequency, and coinciding with previous studies in which family function and social isolation syndrome have been related (6, 8, 10, 11, 52). Family dynamics, such as lack of problem-solving skills, poor communication, lack of emotional exchange in the family, and the difficulty of family members in sympathizing with each other's negative feelings, are attributed to the development of social withdrawal (8, 11). It is known that parenting styles, such as authoritarian, controlling, rejecting, and overprotective attitude, influence the development and stabilization of social withdrawal syndrome (6, 12, 53). It has been described that children with an absent father figure, together with a very close maternal bond, could experience difficulty in becoming independent adults (4, 23). Parental ambivalent attachment has been linked with social withdrawal syndrome (10). In turn, in the case of Japanese culture, hikikomori has been related to *amae*. Although the concept of *amae* was originally considered to be uniquely Japanese, recent opinions suggest that it is actually more universal and exists in other cultures (54, 55). In addition, especially as observed in social withdrawal syndrome, the development of basic interpersonal skills during the early stages of life seems to be insufficient, which could lead to vulnerability to stress in school/work environments and the tendency to escape from social situations (4, 23).

In our study, in 36 cases (18%), neither the patient nor the family allowed the CRHT to perform an initial in-home evaluation of the case. This phenomenon has been described previously and understood as an inability of the family to accept help, due to shame in revealing the problem and fear of symptom exacerbation or violence (4).

In addition, once home treatment had been started by our team, families with familial dystocia collaborated less (33.9 vs. 80.6%) with the therapeutic team in the guidelines and indications. This shows the difficulty and high stress that parents experience, their difficulty to intervene, their tendency to minimize or deny the problem, chronifying the situation

for years without asking for help. In fact, in most cases (86%) the subjects with social withdrawal coexist with the family, which usually detects the problem and ultimately requests help (73.7%). Therefore, psychoeducation and family support for parents could help to lower their psychological distress, minimize the family's anxiety, solve the problems in family relationships, and consequently make a positive impact on the withdrawn patient (4, 7, 8).

Family Maltreatment History

It is known that child maltreatment affects development and is related to various mental disorders, such as schizophrenia (56), bipolar disorder (56), and depressive and anxiety disorders (57). In relation to social withdrawal syndrome, the role of child maltreatment has been described as a risk factor for its development (6, 12, 19). In our study, we observed that 20.7% of cases have a history of maltreatment in childhood by the family, providing more evidence for the relationship of childhood abuse with social withdrawal syndrome, and confirming its role as a risk factor for development of social withdrawal. Cases with family abuse history present dysfunctional family dynamics more frequently, engage in less family collaboration with treatment, and are more likely to come from single-parent families. All of these factors contribute to an unfavorable familial environment, and probably increase the difficulty in detection, treatment, and clinical improvement of the syndrome. The data reinforce the need for effective programs and policies that reduce the occurrence of family abuse and facilitate early detection and treatment.

Single-Parent Family

Almost 40% of cases live in a single-parent family, out of which 94% live with the mother. These data coincide with previous studies (5, 9) in which the predominance of the mother is suggested as a figure of coexistence and care of subjects with social isolation. Cases with single-parent families are younger and have less time for the evolution of withdrawal, maybe because the family previously sought help. These cases have less family psychiatric history, but more often show a history of childhood maltreatment and dysfunctional family dynamics, both factors that may be related to the fact that, at the time of consultation, the family has already fragmented and the mother has been the child's primary caretaker. Furthermore, single-parent cases have a higher frequency of hospital admissions after in-home treatment and higher Zarit scales scores, suggesting the difficulty in managing the social withdrawal of family at home.

STRENGTHS AND LIMITATIONS

This study has several limitations and strengths. The main strength is that it is the first study in a culture other than Japanese, focusing on the family features related to social withdrawal syndrome, and providing more evidence on this phenomenon. One of the study's main limitations is not having used any objective measure by means of evaluation scales on variables, such as internet addiction, family dysfunctional dynamics, or

the degree of family collaboration. In addition, the personal history, such as family abuse history, is provided by the subject or family member, without objective corroboration of the facts. Moreover, no information was collected on the time point and length of parental divorce, so it has not been possible to analyze whether it occurred before or during the period of isolation. The results of the multivariate regression model should be considered with caution as important correlation between the independent variables is known.

CONCLUSIONS

Our study shows that negative family circumstances frequently accompany social withdrawal syndrome, and that most of them are related to isolation severity. These familial determinants of social isolation severity mainly co-occur rather than appear separately. Thus, community programs targeting social isolation should be designed to detect and evaluate each of these factors. Interventions targeting these familial determinants should be more cost-effective when offering a global family intervention rather than separate interventions for each factor, as more than one factor may co-occur, and mutual reinforcement may exist between some of them.

DATA AVAILABILITY STATEMENT

The datasets generated for this study are available on request to the corresponding author.

REFERENCES

1. Ministry of Health LAW. *Shakaiteki Hikikomori Wo Meguru Tiiki Seisin Hoken Katudou No Guide-line (Guideline on Mental Health Activities in Communities for Social Withdrawal)*. Tokio (2003).
2. Malagón-Amor Á, Córcoles-Martínez D, Martín-López LM, Pérez-Solà V. Hikikomori in Spain: a descriptive study. *Int J Soc Psychiatry*. (2015) 61:475–83. doi: 10.1177/0020764014553003
3. Malagón-Amor Á, Martín-López LM, Córcoles D, González A, Bellsolà M, Teo AR, et al. A 12-month study of the hikikomori syndrome of social withdrawal: clinical characterization and different subtypes proposal. *Psychiatry Res*. 270:1039–46. doi: 10.1016/j.psychres.2018.03
4. Kato TA, Kanba S, Teo AR. Hikikomori: experience in Japan and international relevance. *World Psychiatry*. (2018) 17:105–6. doi: 10.1002/wps.20497
5. Kondo N, Iwazaki H, Kobayashi M, Miyazawa H. Psychiatric background of social withdrawal in adolescence. *Seishin Shinkeigaku Zasshi*. (2007) 109:834–43.
6. Umeda M, Kawakami N. World mental health Japan survey group 2002–2006. Association of childhood family environments with the risk of social withdrawal ('hikikomori') in the community population in Japan. *Psychiatry Clin Neurosci*. (2012) 66:121–9. doi: 10.1111/j.1440-1819.2011.02292.x
7. Funakoshi A, Miyamoto Y. Significant factors in family difficulties for fathers and mothers who use support services for children with hikikomori. *Psychiatry Clin Neurosci*. (2015) 69:210–9. doi: 10.1111/pcn.12230
8. Suwa M, Suzuki K, Hara K, Watanabe H, Takahashi T. Family features in primary social withdrawal among young adults. *Psychiatry Clin Neurosci*. (2003) 57:586–94. doi: 10.1046/j.1440-1819.2003.01172.x
9. Kobayashi S, Yoshida K, Noguchi H, Tsuchiya T, Ito J. "Shakaiteki hikikomori" wo kakaeru kazoku ni kan suru jittai chousa (Research for parents of children with "social withdrawal"). *Seishin Igaku*. (2003) 45:749–56.

ETHICS STATEMENT

This study was carried out in accordance with the recommendations of the Parc de Salut Mar Barcelona Clinical Research Ethical Committee. Anonymized data were extracted from the routine clinical follow-up performed in the Crisis Resolution Home Treatment, and no additional complementary examinations have been used or any intervention or treatment has been tested for this study. The main principles outlined in the Declaration of Helsinki were followed and the final protocol was approved by the Parc de Salut Mar Barcelona Clinical Research Ethical Committee.

AUTHOR CONTRIBUTIONS

ÁM-A and DB were involved in the initial conception, design of the study and development of the study protocol. ÁM-A, DC, MB, and AG were involved in the organization of logistics, recruitment of patients, and data collection and management. ÁM-A and DB were involved in the analysis and interpretation of data and wrote the manuscript. LM-L, VP, AB, and AT provided critical revision of the manuscript.

FUNDING

AT's work was supported in part by a Career Development Award from the Veterans Health Administration Health Services Research and Development (CDA 14-428).

10. Krieg A, Dickie JR. Attachment and hikikomori: a psychosocial developmental model. *Int J Soc Psychiatry*. (2013) 59:61–72. doi: 10.1177/0020764011423182
11. Kondo N, Sakai M, Kuroda Y, Kiyota Y, Kitabata Y, Kurosawa M. General condition of hikikomori (prolonged social withdrawal) in Japan: psychiatric diagnosis and outcome in mental health welfare centres. *Int J Soc Psychiatry*. (2013) 59:79–86. doi: 10.1177/0020764011423611
12. Borovoy A. Japan's hidden youths: mainstreaming the emotionally distressed in Japan. *Cult Med Psychiatry*. (2008) 32:552–76. doi: 10.1007/s11013-008-9106-2
13. Kaneko S. Japan's "Socially Withdrawn Youths" and time constraints in Japanese society management and conceptualization of time in a support group for "Hikikomori." *J Time Ser Anal*. (2006) 15:233–249. doi: 10.1177/0961463X06067034
14. Lee YS, Lee JY, Choi TY, Choi JT. Home visitation program for detecting, evaluating and treating socially withdrawn youth in Korea. *Psychiatry Clin Neurosci*. (2013) 67:193–202. doi: 10.1111/pcn.12043
15. Chong S, Chan K-M. A Case Study of a Chinese "Hikikomorian" in Canada: theorizing the process of hikikomorization. *J Spec Educ Rehabil*. (2012) 13:99–114. doi: 10.2478/v10215-011-0028-0
16. Chan GH-Y, Lo TW. Hidden youth services: What Hong Kong can learn from Japan. *Child Youth Serv Rev*. (2014) 42:118–26. doi: 10.1016/j.childyouth.2014.03.021
17. Heinze U, Thomas P. Self and salvation: visions of hikikomori in Japanese manga. *J Ger Inst Jpn Stud Tokyo*. (2014) 26:151–69. doi: 10.1515/cj-2014-0007
18. Teo AR. A new form of social withdrawal in Japan: a review of hikikomori. *Int J Soc Psychiatry*. (2010) 56:178–85. doi: 10.1177/0020764008100629
19. Hattori Y. Social withdrawal in Japanese youth: a case study of thirty-five hikikomori clients. *J Trauma Pract*. (2006) Available online at: http://www.tandfonline.com/doi/abs/10.1300/J189v04n03_01

20. Todd KHL. Hikikomoria: existential horror or national malaise. *Southeast Rev Asian Stud.* (2011) 33:135–47.
21. Doi T. *The Anatomy of Dependence*. Kodansha International Tokyo (1973).
22. Furlong A. The Japanese hikikomori phenomenon: acute social withdrawal among young people. *Sociol Rev.* (2008) 56:309–25. doi: 10.1111/j.1467-954X.2008.00790.x
23. Kato TA, Hashimoto R, Hayakawa K, Kubo H, Watabe M, Teo AR, et al. Multidimensional anatomy of “modern type depression” in Japan: a proposal for a different diagnostic approach to depression beyond the DSM-5. *Psychiatry Clin Neurosci.* (2016) 70:7–23. doi: 10.1111/pcn.12360
24. Ogino T. Managing categorization and social withdrawal in Japan: rehabilitation process in a private support group for Hikikomorians. *Int J Jpn Sociol.* (2004) 13:120–33. doi: 10.1111/j.1475-6781.2004.00057.x
25. Teo AR, Gaw AC. Hikikomori, a Japanese culture-bound syndrome of social withdrawal?: a proposal for DSM-5. *J Nerv Ment Dis.* (2010) 198:444–9. doi: 10.1097/NMD.0b013e3181e086b1
26. Teo AR, Stufflebam K, Saha S, Fetters MD, Tateno M, Kanba S, et al. Psychopathology associated with social withdrawal: idiopathic and comorbid presentations. *Psychiatry Res.* 228:182–3. doi: 10.1016/j.psychres.2015.04.033
27. Tateno M, Park TW, Kato TA, Umene-Nakano W, Saito T. Hikikomori as a possible clinical term in psychiatry: a questionnaire survey. *BMC Psychiatry.* (2012) 12:169. doi: 10.1186/1471-244X-12-169
28. Teo AR, Fetters MD, Stufflebam K, Tateno M, Balhara Y, Choi TY, et al. Identification of the hikikomori syndrome of social withdrawal: psychosocial features and treatment preferences in four countries. *Int J Soc Psychiatry.* (2015) 61:64–72. doi: 10.1177/0020764014535758
29. Bulbena A, Pompei S, Olle L, Coletas J. Assessment of severity of psychiatry illness. *Archivos de Neurobiología.* (1997) 60:69–79.
30. Lyons JS, Stutesman J, Neme J, Vessey JT, O'Mahoney MT, Camper HJ. Predicting psychiatric emergency admissions and hospital outcome. *Med Care.* (1997) 35:792–800. doi: 10.1097/00005650-199708000-00005
31. Endicott J, Spitzer RL, Fleiss JL, Cohen J. The global assessment scale. a procedure for measuring overall severity of psychiatric disturbance. *Arch Gen Psychiatry.* (1976) 33:766–71. doi: 10.1001/archpsyc.1976.01770060086012
32. Dickey B, Sederer LI. *Outcomes assessment in clinical practice*. Williams and Wilkins (1996).
33. Guy W. ECDEU assessment manual for psychopharmacology. *NIH Guide Grants Contracts.* (1976) 534–37. doi: 10.1037/e591322011-001
34. García JB, Portilla MPG-, Fernández MTB, Martínez PAS, García MB. *Banco de Instrumentos Básicos Para la Práctica de la Psiquiatría Clínica*. Madrid: Ars Médica (2002).
35. World Health Organization. *WHO Psychiatric Disability Assessment Schedule (WHO/DAS) : With A Guide to Its Use*. World Health Organization (1988).
36. Carrasco MM, Salvadó I, Nadal S, Mijo LC, Rico JM, Lanz P, et al. Adaptación para nuestro medio de la Escala de Sobrecarga del Cuidador de Zarit. *Revista multidisciplinar de gerontología.* (1996) 6:338.
37. Ruiz A, Pousa E, Duño R, Crosas J, Cuppa S, García C. Spanish adaptation of the Scale to Assess Unawareness of Mental Disorder (SUMD). *Actas Esp Psiquiatr.* (2008) 36:111–119.
38. Block JJ. Issues for DSM-V: internet addiction. *Am J Psychiatry.* (2008) 165:306–7. doi: 10.1176/appi.ajp.2007.07101556
39. Northrup JC, Lapierre C, Kirk J, Rae C. The internet process addiction test: screening for addictions to processes facilitated by the internet. *Behav Sci.* (2015) 5:341–52. doi: 10.3390/bs5030341
40. McGrath JJ, Wray NR, Pedersen CB, Mortensen PB, Greve AN, Petersen L. The association between family history of mental disorders and general cognitive ability. *Transl Psychiatry.* (2014) 4:e412. doi: 10.1038/tp.2014.60
41. Rasic D, Hajek T, Alda M, Uher R. Risk of mental illness in offspring of parents with schizophrenia, bipolar disorder, and major depressive disorder: a meta-analysis of family high-risk studies. *Schizophr Bull.* (2014) 40:28–38. doi: 10.1093/schbul/sbt114
42. Weich S, Patterson J, Shaw R, Stewart-Brown S. Family relationships in childhood and common psychiatric disorders in later life: systematic review of prospective studies. *Br J Psychiatry.* (2009) 194:392–8. doi: 10.1192/bjp.bp.107.042515
43. Martin C, Cabrol S, Bouvard MB, Lepine JP, Mouren-Siméoni MC. Anxiety and depressive disorders in fathers and mothers of anxious school-refusing children. *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry.* (1999) 38:916–22. doi: 10.1097/00004583-199907000-00023
44. Cooper PJ, Fearn V, Willetts L, Seabrook H, Parkinson M. Affective disorder in the parents of a clinic sample of children with anxiety disorders. *J Affect Disord.* (2006) 93:205–12. doi: 10.1016/j.jad.2006.03.017
45. Johnson JL, Leff M. Children of substance abusers: overview of research findings. *Pediatrics.* (1999) 103:1085–99.
46. Lieberman DZ. Children of alcoholics: an update. *Curr Opin Pediatr.* (2000) 12:336–40. doi: 10.1097/00008480-200008000-00009
47. Solis JM, Shadur JM, Burns AR, Hussong AM. Understanding the diverse needs of children whose parents abuse substances. *Curr Drug Abuse Rev.* (2012) 5:135–47. doi: 10.2174/1874473711205020135
48. Usher AM, McShane KE, Dwyer C. A realist review of family-based interventions for children of substance abusing parents. *Syst Rev.* (2015) 4:177. doi: 10.1186/s13643-015-0158-4
49. Campbell L, Hanlon M-C, Poon AWC, Paolini S, Stone M, Galletly C, et al. The experiences of Australian parents with psychosis: the second Australian national survey of psychosis. *Aust N Z J Psychiatry.* (2012) 46:890–900. doi: 10.1177/0004867412455108
50. Campbell LE, Hanlon M-C, Galletly CA, Harvey C, Stain H, Cohen M, et al. Severity of illness and adaptive functioning predict quality of care of children among parents with psychosis: a confirmatory factor analysis. *Aust N Z J Psychiatry.* (2018) 52:435–45. doi: 10.1177/0004867417731526
51. Siegenthaler E, Munder T, Egger M. Effect of preventive interventions in mentally ill parents on the mental health of the offspring: systematic review and meta-analysis. *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry.* (2012) 51:8–17.e8. doi: 10.1016/j.jaac.2011.10.018
52. Chan GH-Y, Lo T-W. Family relationships and the self-esteem of hidden youth: a power dynamics perspective. *J Fam Issues.* (2016) 37:1244–66. doi: 10.1177/0192513X14537479
53. Yamamoto K. The background and types of social withdrawal. *Bull Fac Health Welf Osaka Univ Health Sport Sci.* (2005) 2:23–37.
54. Kato TA, Tateno M, Shinfuku N, Fujisawa D, Teo AR, Sartorius N, et al. Does the “hikikomori” syndrome of social withdrawal exist outside Japan? a preliminary international investigation. *Soc Psychiatry Psychiatr Epidemiol.* (2012) 47:1061–75. doi: 10.1007/s00127-011-0411-7
55. Niiya Y, Ellsworth PC, Yamaguchi S. Amai in Japan and the United States: an exploration of a “culturally unique” emotion. *Emotion.* (2006) 6:279. doi: 10.1037/1528-3542.6.2.279
56. Palmier-Claus JE, Berry K, Bucci S, Mansell W, Varese F. Relationship between childhood adversity and bipolar affective disorder: systematic review and meta-analysis. *Br J Psychiatry.* (2016) 209:454–9. doi: 10.1192/bjp.bp.115.179655
57. Li M, D'Arcy C, Meng X. Maltreatment in childhood substantially increases the risk of adult depression and anxiety in prospective cohort studies: systematic review, meta-analysis, and proportional attributable fractions. *Psychol Med.* (2016) 46:717–30. doi: 10.1017/S003329715002743

Conflict of Interest: The authors declare that the research was conducted in the absence of any commercial or financial relationships that could be construed as a potential conflict of interest.

Copyright © 2020 Malagón-Amor, Martín-López, Córcoles, González, Bellsolà, Teo, Bulbena, Pérez and Bergé. This is an open-access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution License (CC BY). The use, distribution or reproduction in other forums is permitted, provided the original author(s) and the copyright owner(s) are credited and that the original publication in this journal is cited, in accordance with accepted academic practice. No use, distribution or reproduction is permitted which does not comply with these terms.

7 DISCUSIÓN

7 DISCUSIÓN

El presente trabajo de investigación ha sido el primer estudio occidental que describe las características sociodemográficas y clínicas de un amplio grupo de sujetos con aislamiento social, cumpliendo el objetivo principal del presente proyecto de Tesis Doctoral. Ha supuesto también el primer estudio sobre el síndrome de aislamiento social en nuestra sociedad que ha analizado la evolución y respuesta terapéutica a largo plazo, ha propuesto diferentes subtipos, y ha investigado los factores familiares relacionados con el aislamiento social, aportando evidencia científica sobre la existencia de este fenómeno en nuestro medio.

7.1 Caracterización sociodemográfica y clínica del aislamiento social

Objetivo 1: Caracterización clínica y sociodemográfica del fenómeno de aislamiento social en nuestro entorno y determinar su equivalencia con el síndrome de *hikikomori*.

Hipótesis 1: La conducta de aislamiento social es equiparable al llamado *hikikomori*, y existe no sólo ligado a la cultura japonesa, sino también en nuestra sociedad.

Resultados 1: Los sujetos evaluados presentan los mismos criterios y características que el síndrome de *hikikomori*. Es más frecuente en hombres adultos jóvenes, presenta una duración muy variable, elevada gravedad clínica y escasa colaboración.

La publicación de esta muestra de 190 casos seleccionados en base a los criterios diagnósticos más aceptados del *hikikomori* (Kato et al., 2019; Tan et al., 2020; Teo, Stufflebam, et al., 2015), supone el cumplimiento del objetivo principal del proyecto de Tesis Doctoral, mostrando su existencia en nuestro medio y avalando su existencia no únicamente en Japón, sino también en culturas occidentales como la nuestra (Bommersbach & Millard, 2019; Chauliac et al., 2017; De Michele et al., 2013; Domingues-Castro & Torres, 2018; Frankova, 2017; Gondim et al., 2017; Kato et al., 2019; Kato et al., 2012; Kondo et al., 2013; Lee et al., 2013; Li & Wong, 2015a; Roza et al., 2020; Sakamoto et al., 2005; Silić et al., 2019; Tan et al., 2020; Teo, Fetters, et al., 2015; Wu et al., 2019). Además, estos datos irían en contra de las teorías previas que definen *hikikomori* como un síndrome ligado únicamente a la cultura japonesa (Teo & Gaw, 2010), y avalarían aquellos estudios que sugieren su existencia en otras culturas (Bommersbach & Millard, 2019; Kato et al., 2019; Kato et al., 2012; Li & Wong, 2015a; Tan et al., 2020; Teo, Fetters, et al., 2015). A su vez, podría ir en relación con la teoría recientemente propuesta por Kato y colaboradores, en la que proponen que el *hikikomori* se relacionaría con un nuevo concepto, el de “síndrome ligado a la cultura moderna” (Kato & Kanba,

2016; Kato et al., 2019), en relación a factores culturales comunes tales como la globalización, el uso de internet y las relaciones sociales indirectas online en detrimento del contacto directo.

A menudo, como hemos descrito en la introducción, en la literatura previa se utilizan diferentes términos para describir el aislamiento social, dando lugar a confusión sobre el objeto de estudio. Los **criterios diagnósticos** y definición utilizados en el presente trabajo son similares a los más aceptados y utilizados en las investigaciones realizadas por los autores más destacados e importantes de Japón (Kato et al., 2019; T. Saito, 1998; Tan et al., 2020; Teo & Gaw, 2010; Teo, Stufflebam, et al., 2015). Con nuestros resultados, aportamos más evidencia científica que permite determinar que el síndrome de aislamiento social estudiado en nuestra sociedad es equiparable al síndrome de *hikikomori* observado en Japón, siendo términos, por tanto, equiparables y sinónimos. El hecho de que fuese en Japón donde se inició su estudio y donde más evidencia científica existe sobre el fenómeno definido como *hikikomori*, no excluiría que sea un síndrome también existente en nuestra sociedad y sobre el que sería necesario investigar.

En cuanto a las características clínicas más significativas, cabe destacar que se observó de forma más frecuente en **hombres**, coincidiendo con estudios previos (Kondo et al., 2013; Koyama et al., 2010; Li & Wong, 2015a; P. W. C. Wong et al., 2015). La explicación a este hecho no ha sido descrita, habiéndose destacado que los hombres asiáticos jóvenes tienen un fuerte deseo de éxito junto con una mayor necesidad de guardar las apariencias si no lo consiguen, por lo que podrían ser más sensibles al fracaso y sería más probable que decidan retirarse de la sociedad si sienten que han fallado (Uchida, 2010; Uchida & Norasakkunkit, 2015). Este sentimiento de fracaso en hombres podría darse también en menor intensidad en nuestra sociedad, aunque no fueron evaluados este tipo de factores culturales en la presente investigación.

Mientras que en la población japonesa suele observarse en jóvenes y adolescentes, la media de **edad** de nuestra muestra fue mayor, de casi 40 años (SD=18.1), siendo los hombres más jóvenes (media de edad 36 años) que las mujeres (media 51 años), con un amplio rango de edad, desde los 13 a los 79 años. Por un lado, este hecho muestra que el aislamiento social en nuestro medio no está circunscrito únicamente a la población joven. De hecho, aunque inicialmente la investigación sobre el *hikikomori* en Japón se centraba en población joven, recientemente se ha alertado sobre su presencia en sujetos mayores, estimando que el número de *hikikomori* entre 40 y 65 años es mayor que en aquellos con edades comprendidas entre 15 y 39 (Cabinet Office, 2016), siendo un nuevo tema de preocupación sobre el que se está trabajando e investigando en dicho país. Este hecho se podría corresponder con el subgrupo de *hikikomori* con inicio del aislamiento en la edad adulta descrito por Koyama (Koyama et al., 2010), relacionado con situaciones sociales particulares tales como pérdida del trabajo, con una posible psicopatología diferente a la de los jóvenes a tener en consideración. O también, que estos casos de *hikikomori* tardío hubieran iniciado su aislamiento en la adolescencia, sin

ser reconocido ni tratado hasta entonces. En este sentido, destaca el hecho de que en nuestra muestra la mayoría (74,7%) tenían antecedentes psiquiátricos, habían sido atendidos por otros dispositivos médicos convencionales, sin haber alcanzado mejoría clínica ni adherencia al tratamiento, persistiendo e incluso empeorando el aislamiento durante años. En esta línea, destacó la elevada disfunción premórbida observada. El hecho de que únicamente un 25% fuese su primer contacto con la red de salud mental destacaría la importancia de detectar estos sujetos de forma precoz y tratarlos de forma efectiva, para evitar el empeoramiento y cronicidad del aislamiento.

El **tiempo de aislamiento** fue muy variable, siendo la media de 38 meses, variando de 6 meses a 30 años. En la primera fase del estudio, a nivel basal, aunque no observamos diferencias estadísticamente significativas, existía una tendencia en los resultados de las escalas de gravedad que mostraba que, a mayor tiempo de aislamiento, mayor severidad clínica. En este sentido, tal como apunta Teo A.R (Teo, 2010), podría existir un amplio espectro de severidad, relacionado no sólo con el tiempo de evolución, sino también probablemente con la patología comórbida psiquiátrica. En la segunda fase del proyecto, observamos que el tiempo de aislamiento no tenía un papel determinante en la evolución a 12 meses ni en la gravedad, por lo que, en global, los datos no serían concluyentes para indicar el papel del tiempo de aislamiento ni en la gravedad ni en la evolución.

Respecto a la **red social** de los sujetos evaluados, mayoritariamente era nula o restringida únicamente a la familia con quien convivían. La mayoría de los casos convivían con su familia, teniendo la mitad de ellos estudios superiores, pero debido al aislamiento no eran capaces de realizar actividad laboral y eran sustentados por su familia. Aquellos casos con menor red social fueron más jóvenes, lo que pone de manifiesto, de nuevo, la importancia y necesidad de detección y tratamiento precoz en pacientes jóvenes. Dada la discrepancia entre estudios sobre el tipo de relaciones sociales que estos sujetos mantienen (Kato et al., 2019; Li & Wong, 2015a), este estudio aporta más datos sobre sus características, que ayudarían a alcanzar un consenso que unifique los criterios diagnósticos y de inclusión, destacando la escasa red social de estos pacientes, siendo mayoritariamente nula, estando aislados incluso de la familia con la que conviven en el domicilio. Cabe destacar que no se contabilizaron las relaciones virtuales, un factor que recientemente se ha descrito como posible factor a tener en cuenta y que debe evaluarse específicamente (Kato et al., 2019; Tan et al., 2020). Así, estos autores plantean añadir como especificación la presencia o no de interacciones sociales que ocurran a través de tecnologías de comunicación digitales (por ejemplo, juegos online o redes sociales).

En relación con la **gravedad**, es destacable la alta frecuencia de casos que no cooperaban, presentando escasa conciencia de trastorno o de necesidad de tratamiento. En casi un tercio de los casos se requirió la realización de un ingreso hospitalario involuntario debido a la existencia de riesgo auto o heteroagresivo y/o juicio de realidad alterado. Estos datos coincidirían con el estudio de Kato y colaboradores (Kato et al., 2012), en el que los psiquiatras de países diferentes a Japón sugirieron la

hospitalización como un tratamiento preferente para el aislamiento. Sorprendentemente, en Japón muchos psiquiatras consideraron que los sujetos con *bikikomori* no requieren tratamiento psiquiátrico. Esta diferencia podría estar relacionada por el hecho de que en Japón el fenómeno de *bikikomori* ha sido observado desde hace más tiempo y se ha convertido en una conducta aceptable en la sociedad japonesa (Kato et al., 2012). En cualquier caso, sería necesario unificar criterios y guías de actuación basadas en evidencia científica. Nuestro estudio aporta datos para ello, mostrando que la elevada gravedad de estos sujetos requiere un tratamiento intensivo de hospitalización en un porcentaje no despreciable de los casos, y que aquellos que son hospitalizados presentan una mejor evolución al cabo de 12 meses, por lo que sería útil continuar la investigación en el desarrollo de protocolos de actuación específicos en estos sujetos.

En relación con el **riesgo autolítico**, realizamos un subanálisis de la muestra presentado en el 24 Congreso Europeo de Psiquiatría realizado en Madrid en 2016 (ver anexo). Según nuestro conocimiento, fueron los primeros datos que evaluaban el riesgo autolítico en una muestra de sujetos con aislamiento social. Los casos con riesgo autolítico, comparados con los casos aislados sin riesgo, fueron más jóvenes, con un periodo de aislamiento menor, requiriendo más frecuentemente tratamiento en régimen hospitalario, y con puntuaciones que mostraban mayor gravedad y discapacidad en las escalas administradas. Pese a las posibles limitaciones de la escasa muestra y su publicación únicamente en formato póster, estos datos destacarían la importancia de detectar de forma precoz en sujetos jóvenes el aislamiento, así como de investigar cual es el abordaje más idóneo para ellos. Así, recientemente, se ha descrito que los sujetos con *bikikomori* presentan más frecuentemente factores de riesgo autolítico asociados (Yong & Nomura, 2019), avalando la necesidad de intervención precoz en estos sujetos.

En nuestro país, este estudio ha sido el primero que ha analizado una muestra amplia de 190 casos, ya que, hasta la fecha, únicamente se habían publicado cuatro casos aislados (García-Campayo et al., 2007; Gariup et al., 2008; Malagón et al., 2010; Ovejero et al., 2014) y no existen datos epidemiológicos sobre este fenómeno. Cabe destacar que los casos con aislamiento social analizados constituyen el 15.4% del total de los casos atendidos por el EMSE, lo que sugiere que sería un fenómeno frecuente en nuestro medio, que habría sido probablemente infradetectado, debido probablemente al difícil acceso a estas personas – que no solicitan ayuda por iniciativa propia - y debido a la falta de equipos domiciliarios especializados existentes en nuestra red de salud mental. Estos datos podrían ser considerados por las autoridades nacionales de salud pública con el objetivo de apoyar y lanzar estudios epidemiológicos más amplios en este campo. Además, estos datos destacarían también la utilidad de estos **programas de atención domiciliaria especializada**. Tal como apunta Lee y colaboradores (Lee et al., 2013), estos equipos deberían estar formados por profesionales multidisciplinares entrenados, debido a que uno de los principales problemas en el tratamiento fue el acceso a ellos y su colaboración. Debería haber también una red terapéutica bien

establecida entre el equipo de atención domiciliaria y los equipos ambulatorios, que aseguren la continuidad del tratamiento y minimicen el riesgo de abandono y recaída (Kato et al., 2019; Lee et al., 2013).

El síndrome de aislamiento social existe en nuestra sociedad y es equiparable al síndrome de *bikikomori* descrito en Japón. Es más frecuente en hombres jóvenes, con antecedentes psiquiátricos, que conviven con su familia -quien es la que alerta del problema-, y con una duración muy variable. Presentan elevada gravedad clínica y escasa colaboración clínica. Es un motivo de consulta frecuente en el EMSE, suponiendo un reto ante la elevada gravedad y escasa cooperación con el tratamiento que suelen presentar, y destacando la utilidad y necesidad de equipos de atención domiciliaria especializados.

7.2 Determinación de la naturaleza sindrómica del aislamiento social

Objetivo 2: Determinar la naturaleza sindrómica versus diagnóstica del aislamiento social, también llamado *bikikomori*, y determinar los síntomas y características necesarias para establecer la presencia del síndrome o diagnóstico.

Hipótesis 2: La conducta de aislamiento social constituye un síndrome grave, comórbido a diferentes trastornos mentales. No representa una nueva categoría diagnóstica.

Resultados 2: La mayor parte de los sujetos estudiados tuvo asociado un trastorno mental comórbido. Las características y criterios diagnósticos fueron similares a los más ampliamente aceptados para el *bikikomori*.

En relación al segundo objetivo del proyecto, destaca el hecho de que sólo un caso no presentaba ningún trastorno mental asociado, correspondiéndose con *bikikomori* primario (Koyama et al., 2010; Teo & Gaw, 2010), aunque cabe mencionar que sí presentaba una conducta compatible con adicción a internet (Stip et al., 2016). Estos resultados difieren de estudios previos (Koyama et al., 2010) en los que el *bikikomori* primario supone más del 50%, y son más consistentes con recientes estudios (Chauliac et al., 2017; Kato et al., 2019; Kondo et al., 2013; Teo, Stufflebam, et al., 2015), donde el 80% tenían patología comórbida. Por ello, estos datos serían consistentes con nuestra hipótesis de que la conducta de aislamiento no es una nueva categoría diagnóstica, sino un síndrome grave común a diferentes trastornos mentales. El *bikikomori* primario sería un fenómeno muy poco frecuente en nuestra sociedad. En la bibliografía previa, se ha relacionado con varios trastornos psiquiátricos muy heterogéneos, sin una conclusión final (Kato et al., 2019; Teo, Stufflebam, et al., 2015). Por todo ello,

se resalta la necesidad de investigación sobre la patología comórbida del aislamiento social para el entendimiento en profundidad de este fenómeno (Pozza et al., 2019).

Se observó una alta comorbilidad con **trastornos de ansiedad**, más de 25%, coincidiendo con estudios previos (Kato et al., 2019; Nagata et al., 2013; Teo, Lerrigo, et al., 2013), concretamente trastorno de ansiedad social y obsesivo compulsivo. Los **trastornos afectivos** fueron también frecuentes, un 17%. Esto concuerda con investigaciones previas (Kato, Shinfuku, Sartorius, et al., 2011; Koyama et al., 2010; Teo, 2013; Teo, Choi, et al., 2013) que describen en personas con historia de aislamiento un riesgo seis veces mayor de trastorno afectivo que en la población general. A su vez, se ha relacionado con trastornos afectivos como Modern Type Depression descrito en Japón, que podrían tener un origen común (Kato et al., 2016) relacionado con factores sociales y culturales japoneses. Otros trastornos, como los relacionados con el **espectro autista**, fueron infrecuentes, en contraposición a lo que se ha sugerido recientemente de que puedan tener similitudes y un origen similar, en relación a su dificultad en las relaciones sociales (Kato et al., 2019). Los **trastornos de personalidad** fueron más frecuentes en casos de duración del aislamiento de entre 1 y 4 años, siendo la mayoría de cluster A, como trastorno esquizoide de personalidad, difiriendo de otros estudios que relacionan el aislamiento social con mayor frecuencia con trastornos evitativo y paranoide de personalidad (Kato et al., 2019; Teo, Stufflebam, et al., 2015). En relación a los **trastornos psicóticos** (39,5%), muy frecuentes, se decidió incluirlos en el estudio, a diferencia de algunas investigaciones previas que los excluyen, y que incluso consideran que su presencia es un criterio de exclusión para el diagnóstico de *hikikomori* (Teo & Gaw, 2010). Cabe destacar que la definición inicialmente más aceptada, creada por el gobierno japonés (K. Saito, 2010a), describe que “en principio, *hikikomori* es una condición no psicótica diferente al aislamiento social debido a la clínica positiva o negativa de la esquizofrenia. De todos modos, existe la posibilidad de existencia de síntomas prodrómicos de esquizofrenia”. La fase prodrómica de la esquizofrenia caracterizada por aislamiento social, deterioro de funcionamiento social y académico, deterioro del autocuidado, irritabilidad, ansiedad, alteraciones del sueño y del ánimo comparte características con el *hikikomori*. La esquizofrenia simple, con predominio de síntomas negativos y ausencia de clínica delirante o alucinatoria, también se asemeja al síndrome de aislamiento social. A su vez, se ha descrito que la deprivación sensorial resultante del aislamiento social podría incrementar los síntomas psicóticos, borrando la línea entre los dos diagnósticos. Tal como apunta Stip (Stip et al., 2016), en ausencia de síntomas psicóticos en toda regla manifiestos sugestivos de un episodio agudo de psicosis, la modificación del medio ambiente (reducción de la deprivación sensorial y el uso de Internet, por ejemplo) puede ayudar a diferenciar entre *hikikomori*, psicosis y adicción a Internet. El desarrollo cronológico de los síntomas podría ser otra señal que ayude a aclarar qué condición fue primero y cual "desencadenó" la otra. Por todos estos argumentos, consideramos que la inclusión de sujetos con trastornos psicóticos comórbidos está justificada y es útil y necesaria para la detección precoz y el tratamiento de estos casos.

El síndrome de *hikikomori* se ha relacionado con la conducta de **adicción a internet** (Kato, Shinfuku, et al., 2020; Kato, Shinfuku, Fujisawa, et al., 2011; Stip et al., 2016; Tateno et al., 2019; Teo, Stufflebam, et al., 2015), como medio de conexión con el exterior, justificando incluso el aislamiento debido a dicha conducta de adicción. Ambas condiciones carecen de unos criterios diagnósticos bien establecidos y de estudios epidemiológicos poblacionales, lo que limita las conclusiones a tomar. Nuestros datos sugerirían que, aunque frecuente (31%), la adicción a internet no es predominante ni un criterio imprescindible para el aislamiento social. En el subanálisis realizado en formato póster presentado en el XIII Congreso Nacional de Psiquiatría celebrado en Santiago de Compostela en 2015 (ver anexo), los casos con adicción a internet fueron más jóvenes y con un periodo de aislamiento menor, aunque la gravedad clínica global y el grado de discapacidad no difirieron del resto de casos. Por ello, consideramos importante no sobrediagnosticar el uso de internet, así como contextualizarlo, teniendo en consideración que son dos condiciones diferentes que pueden coincidir.

Cabe recordar las definiciones de síndrome y enfermedad específica, en las que un síndrome se define como un conjunto de síntomas o signos que pueden aparecer juntos, aunque con un origen o etiología desconocidos. Una entidad diagnóstica específica, debe cumplir al menos una de las siguientes condiciones: 1. Un patrón de transmisión genética; 2. Una etiología, patofisiología y/o anatomía patológica bien conocida; 3. Un curso, pronóstico, estabilidad y respuesta a tratamiento predecible y consistente, en diferentes poblaciones (Pies, 2009). El hecho de que en el caso del *hikikomori* no se cumplan estas condiciones, junto con la alta frecuencia de comorbilidad con otros trastornos mentales, iría en contra de las teorías que postulan que constituye una nueva entidad diagnóstica. Los resultados de este estudio apoyarían las teorías que proponen que el *hikikomori* es un síndrome asociado a diferentes trastornos mentales. Además, tal como hemos comentado en el anterior apartado, en la cuestión sobre el escaso consenso sobre su definición y los diferentes términos utilizados en la literatura previa para referirse al aislamiento social, podríamos concluir, tal como ocurre en la bibliografía más reciente, que “síndrome de aislamiento social” y “síndrome de *hikikomori*” se refieren al mismo fenómeno.

Esta controversia destaca la importancia de alcanzar una definición y criterios de inclusión consensuados del síndrome de *hikikomori*-aislamiento social (Li & Wong, 2015a). En este sentido, consideramos que la descripción de nuestra muestra, junto con nuevos métodos de evaluación, como los propuestos por Teo A.R. (Kato et al., 2019; Teo, Fetters, et al., 2015) pueden ayudar a establecer las características y una definición precisa del fenómeno. Consideramos que la diferenciación entre *hikikomori* primario y secundario puede ser de ayuda (Koyama et al., 2010), destacando que en el *hikikomori* secundario el aislamiento social debe ser el síntoma principal y dominante frente a los otros síntomas comórbidos.

Así, en relación a nuestros resultados y en consonancia con los estudios más recientes (Kato et al., 2019), los criterios diagnósticos del síndrome de aislamiento social serían:

- A. Aislamiento físico:** Pasar la mayor parte del día y casi todos los días en el hogar;
- B. Evitación de la participación social:** Evitar las situaciones sociales, tales como asistir a la escuela o ir a un lugar de trabajo;
- C. Evitación de las relaciones sociales:** Evitar las relaciones sociales, como amistades o contactos con miembros de la familia;
- D. Malestar o deterioro significativo** debido a aislamiento social.
- E. Duración mínima de 6 meses.**

El síndrome de aislamiento social en nuestro ámbito se presentó de forma mayoritaria asociado a patología comórbida, lo que apoyaría la teoría de que la conducta de aislamiento no es una nueva categoría diagnóstica, sino un síndrome grave común a diferentes trastornos mentales, siendo los más frecuentes trastornos afectivos, de ansiedad y psicóticos. El término ampliamente conocido como “síndrome de *hikikomori*” sería equivalente al término “síndrome de aislamiento social”. Los resultados aportan más evidencia científica y consenso para establecer su definición y criterios diagnósticos claros, coincidiendo con los criterios más recientes propuestos en Japón.

7.3 Subtipos de aislamiento social

Objetivo 3: Determinar los posibles diferentes subtipos de aislamiento social y su posible correspondencia con entidades diagnósticas ya descritas.

Hipótesis 3: El aislamiento social se puede dividir en varios subtipos en función de: la patología comórbida, la edad, el tiempo de aislamiento o la colaboración con el tratamiento. Además, estas variables tienen relevancia en la respuesta a la intervención y el pronóstico.

Resultados 3: El subtipo ansiedad-afectivo presentó características diferenciales respecto al resto. Los subgrupos por edad y por tiempo de evolución del aislamiento no mostraron diferencias significativas. El subgrupo con menor colaboración presentó características particulares de mayor gravedad.

El análisis global de los casos atendidos durante el estudio, junto con los datos de la literatura previa (Kato et al., 2019; Teo, Stufflebam, et al., 2015), ofrece la visión de que los sujetos con aislamiento social son un grupo heterogéneo, no bien definido. Con el objetivo de poder caracterizarlo y poder evaluar la influencia de estas características específicas en la respuesta al tratamiento y el pronóstico, investigamos los posibles subtipos de aislamiento social en función de: 1. Patología comórbida; 2. Edad; 3. Tiempo de aislamiento y 4. Colaboración con el tratamiento.

7.3.1 Subtipos en función de la patología comórbida

El análisis de las características sociodemográficas, clínicas y de evolución de los diferentes grupos diagnósticos con aislamiento social, junto con los datos de la bibliografía previa (Kato et al., 2019; Kato, Shinfuku, Sartorius, et al., 2011; Koyama et al., 2010; Nagata et al., 2013; Teo, 2013; Teo, Stufflebam, et al., 2015), nos llevó a plantear una propuesta teórica de diferenciación entre subtipos de aislamiento social en función de su comorbilidad, con implicaciones a nivel de gravedad, respuesta al tratamiento y evolución. Los estudios previos mostraban con frecuencia la asociación del *bikikomori* con trastornos de ansiedad (Kondo et al., 2013; Nagata et al., 2013; Teo, Lerrigo, et al., 2013) y trastornos depresivos (Kato & Kanba, 2017, 2018; Kato, Shinfuku, Sartorius, et al., 2011; Teo, 2013). En nuestra muestra, observamos que se diferenciaban los grupos con **patología comórbida de ansiedad o afectiva**, en comparación con el resto de los casos con otras comorbilidades. Así, el subgrupo de ansiedad-afectivos presentaba una mayor proporción de mujeres, con menor gravedad clínica y discapacidad basal, mayor conciencia de trastorno y colaboración con el tratamiento. Este subgrupo se derivaba más frecuentemente a dispositivos de tratamiento ambulatorio estándar no intensivos (centro de salud mental), tras la atención domiciliaria del EMSE. Estas características basales más favorables contrastaban con la evolución del aislamiento a los 12 meses, presentando peor evolución, mayor desvinculación de los dispositivos de la red de salud mental, mayor porcentaje de aislamiento y empeoramiento clínico. De estos resultados se desprende la idoneidad de un posible abordaje terapéutico específico en este subgrupo de ansiedad-afectivos, que se centre en aprovechar las características iniciales más favorables y evitar la desvinculación, basado en una intervención no hospitalaria y un mayor esfuerzo terapéutico de moderada intensidad a largo plazo. Además, esta diferenciación entre subtipos podría tener utilidad en la diferenciación de tratamientos propuestos según la comorbilidad. En conjunto, consideramos que todas estas cuestiones deberían investigarse en futuros estudios.

La diferenciación por subtipos según patología comórbida mostró que el subgrupo de aislamiento ansiedad-afectivo presentaba características diferenciales en comparación con el resto de diagnósticos, con características clínicas basales más favorables, con menor gravedad y discapacidad, mayor colaboración con el tratamiento, derivándose mayoritariamente a tratamiento ambulatorio no intensivo. En contraste, la evolución fue peor, con mayor desvinculación y empeoramiento clínico a los 12 meses. Estos datos plantean la idoneidad de desarrollar un tratamiento específico de moderada intensidad que aproveche la mayor colaboración y menor gravedad inicial de este subgrupo de ansiedad-afectivo, y evite su desvinculación a largo plazo.

7.3.2 Subtipos en función de la edad

La mayoría de los estudios sobre *bikikomori* se han centrado en población adolescente y adultos jóvenes (G. H.-Y. Chan & Lo, 2014; H.-Y. Chan & Lo, 2014; Hattori, 2006; Takahiro A. Kato et al., 2016; Kondo N., 2001; Kondo Naoji et al., 2007, 2008; T. M. H. Li & Wong, 2015a; Teo, Stufflebam, et al., 2015b; R. K. F. Yong & Kaneko, 2016). La amplia muestra analizada en nuestro trabajo, sin exclusión por edad, muestra la existencia de aislamiento social no sólo circunscrito a población joven, sino con una media de edad de 40 años. La diferencia principal entre ambos grupos se observó en las características sociodemográficas. Así, el grupo de aislados jóvenes presentó predominio de hombres, con periodo de aislamiento menor y una red social más limitada. Los sujetos mayores de 40 años vivían más frecuentemente solos, presentando mayores problemas médicos y dificultades en su autocuidado. Sin embargo, el análisis de los datos en función de la edad por subgrupos observó que no existen diferencias a nivel de gravedad clínica, discapacidad basal, ni en la evolución a 12 meses. A nivel de evolución, únicamente destacó la mayor frecuencia de cambio de diagnóstico en jóvenes, siendo el diagnóstico nuevo más frecuentes el trastorno psicótico. Por todo ello, podríamos concluir que la edad no sería un factor relevante en función del cual dividir en subtipos el síndrome de aislamiento social. Estos datos no fueron incluidos en los artículos publicados tras los procesos de revisión de las revistas en las que fueron publicados.

Cabe destacar que el aislamiento en población mayor está siendo un nuevo tema de preocupación e investigación en Japón (Kubo et al., 2020). Aunque inicialmente se describió como un fenómeno en población joven, la cifra de *bikikomori* de más de 40 años supera a la de los menores en la actualidad (Cabinet Office, 2016), suponiendo un nuevo reto sobre el que enfocar el estudio del aislamiento social. Nuestro análisis aporta datos sobre este fenómeno de aislamiento, mostrando que no existirían diferencias a nivel clínico ni de evolución en los subgrupos en función de la edad.

7.3.3 Subtipos en función de la colaboración con el tratamiento

Ninguno de los casos atendidos por el EMSE buscó ayuda médica, siendo la familia o los servicios médicos quienes alertaron de la situación de aislamiento al EMSE. Estos datos coincidieron con la literatura previa, en la que un porcentaje muy pequeño (6.6%) de los casos de *bikikomori* inician la búsqueda de ayuda por propia iniciativa, siendo en el 72.2% de los casos los padres o familiares quienes consultan por primera vez (Kobayashi et al., 2003). Así, uno de los problemas más importantes en el manejo y tratamiento de los sujetos con aislamiento social es el acceso a ellos y su escasa colaboración (Ito, 2003; Lee et al., 2013), habiéndose descrito que el éxito en los resultados depende en gran medida de este factor (Kondo et al., 2013). Además, se ha descrito un tiempo medio de 4.4 años de aislamiento hasta utilizar los servicios de ayuda médicos, y en el 13% de los casos, más de 10 años hasta solicitar ayuda (Kubo et al., 2020; K. Saito, 2010b).

En nuestro estudio, la evaluación de la oposición al tratamiento propuesto en el domicilio mostró que aquellos con mayor oposición (es decir, menos colaboración), presentaban peor red social, mayor gravedad y discapacidad, así como una mayor necesidad de hospitalización. Estos resultados coinciden con estudios previos (P. W. C. Wong et al., 2015), que han destacado la importancia del insight y búsqueda de ayuda y colaboración con el tratamiento, sugiriendo que podrían constituir un subgrupo con características particulares y diferenciales. A su vez, estos datos avalarían la importancia de detectar aquellos casos con menor colaboración, que supondrían un subgrupo de mayor gravedad y discapacidad, en el que enfatizar el trabajo intensivo hospitalario inicial que posibilite estrategias centradas en el vínculo terapéutico (Krieg & Dickie, 2013), la conciencia de trastorno y de necesidad de tratamiento para salir del aislamiento. Consideramos que el tratamiento a corto plazo no sería de utilidad en estos casos. En los casos de menor colaboración sería también importante el trabajo psicoeducativo y de apoyo con las familias, que a menudo presentan resistencia a buscar ayuda (Kato et al., 2019; Kubo et al., 2020) en el contexto de falta de conocimientos y prejuicios sobre la enfermedad mental, así como sentimientos de culpa, estigma social y miedo a interferir en la vida de sus familiares.

Ningún caso tuvo la iniciativa de buscar ayuda médica, siendo la familia quien consultó mayoritariamente. Los sujetos con menor colaboración suponen un subgrupo con características particulares tales como peor red social, mayor gravedad y mayor necesidad de hospitalización. Este hecho destaca la importancia del insight, búsqueda de ayuda y colaboración con el tratamiento en el aislamiento social, siendo un subgrupo en el que enfatizar el tratamiento intensivo con especial atención sobre el vínculo terapéutico y la conciencia de trastorno, así como programas de soporte y psicoeducación familiar.

7.3.4 Subtipos en función del tiempo de aislamiento

El tiempo de aislamiento fue muy variable, sin una influencia clara en la gravedad ni evolución del aislamiento social. La media de periodo de aislamiento fue de 40 meses, variando desde 6 meses a 30 años. En la literatura previa, se ha descrito un tiempo medio de 4.4 años de aislamiento hasta utilizar los servicios de ayuda médicos, y en el 13% de los casos más de 10 años hasta solicitar ayuda (K. Saito, 2010b). En la primera fase del proyecto de Tesis Doctoral, correspondiente al artículo *“Hikikomori in Spain: a descriptive study”*, observamos que, aunque no existían diferencias estadísticamente significativas, existía una tendencia en los resultados de las escalas de gravedad que mostraba que, a mayor tiempo de aislamiento, mayor gravedad. Sin embargo, en la segunda fase del proyecto, relativa al artículo publicado *“A 12-month study of the hikikomori syndrome of social withdrawal: Clinical characterization and different subtypes proposal”*, no se observó influencia del tiempo de aislamiento en la evolución o la gravedad de la enfermedad. Es posible que existan otros factores que lo expliquen, y que existan otras causas del aislamiento que no se han descrito en nuestro trabajo. A su vez, tal como apuntan algunos autores (Kato et al., 2019; Teo & Gaw, 2010; J. C. M. Wong et al., 2019), podría existir un amplio espectro de gravedad relacionado no únicamente con el tiempo de evolución, sino también con otros factores como la patología comórbida y la colaboración con el tratamiento. Así, mientras algunos *hikikomori* quieren salir del domicilio, pero debido a la patología mental concomitante tal como ansiedad o agorafobia no son capaces, otros permanecen aislados en su habitación sin asearse ni incluso ir al lavabo, y sin ningún deseo de comunicarse con nadie. El hecho de que no haya una relación entre mayor tiempo de aislamiento y mayor gravedad hace plantear que aquellos casos con un periodo de aislamiento mayor podrían tener también buen pronóstico al iniciar el tratamiento.

7.4 Evolución y respuesta al tratamiento a largo plazo

Objetivo 4: Describir la evolución a largo plazo tras diferentes abordajes terapéuticos en el aislamiento social.

Hipótesis 4: El aislamiento social tiene una mejor evolución a largo plazo tras un tratamiento intensivo. Los sujetos que reciben un tratamiento convencional breve presentarán una peor evolución.

Resultados 4: Se observó una tendencia global a la desvinculación y empeoramiento del aislamiento a los 12 meses. Los casos que fueron hospitalizados presentaron una mejor evolución.

El cuarto objetivo de este proyecto de Tesis Doctoral ha supuesto el primer estudio de seguimiento a 12 meses de sujetos con aislamiento social. Una vez finalizado el tratamiento domiciliario por el EMSE y derivados al dispositivo más adecuado para cada caso, bien ambulatorio o bien hospitalario en función de las necesidades de cada paciente, se observó una tendencia global a la desvinculación de los pacientes a lo largo de los meses y empeoramiento en el estado de aislamiento. Los casos hospitalizados tras la actuación del EMSE presentaron mejor evolución al cabo de un año, con mejor red social y mantenimiento del seguimiento psiquiátrico. Esto ocurrió incluso cuando las características clínicas eran más desfavorables, tales como red social escasa, poca colaboración o diagnóstico de trastorno psicótico. Este hecho plantea la cuestión de qué dispositivos son los más adecuados para el abordaje del aislamiento social, ya que aquellos casos que reciben tratamientos intensivos (hospitalización) presentan mejor evolución a los 12 meses que aquellos que son derivados a dispositivos convencionales ambulatorios (centro de salud mental). Así, los resultados sugieren que los dispositivos de tratamiento más intensivos alcanzarían una mejoría más rápida y estable a lo largo de un año. Sin embargo, la mayoría de los casos que fueron hospitalizados fue de forma involuntaria, cuando las circunstancias clínicas indicaban que existían criterios para necesitar un tratamiento en contra de la voluntad del sujeto (riesgo auto o heteroagresivo elevado, juicio de realidad alterado). Estas características clínicas no se dan en todos los casos, y en aquellos en los que no existen criterios para realizar un tratamiento involuntario, pero el paciente no presenta conciencia de trastorno ni colabora con el tratamiento, las opciones de tratamiento ambulatorio existentes son escasas y existe elevado riesgo de desvinculación y empeoramiento del aislamiento.

Como hemos visto, son escasos los estudios publicados sobre el tratamiento del aislamiento social (J. C. M. Wong et al., 2019). Se han descrito diferentes opciones terapéuticas, tales como farmacoterapia (Nagata et al., 2013), antidepresivos (Teo, 2010), terapia asistida con animales (P. W. C. Wong, Yu, et al., 2017), intervención precoz e incluso medicina tradicional china (Kato et al., 2012). Otros autores han destacado la importancia de la detección precoz, intervención familiar (Hattori, 2006; J. C. M. Wong et al., 2019) y de realizar tratamiento hospitalario, tanto voluntario como involuntario (Kato et al., 2012). Lee y colaboradores realizaron un estudio de intervención domiciliaria en jóvenes aislados en Corea del Sur (Lee et al., 2013), en el que destacaron la importancia de los programas de atención domiciliaria en estos casos, afirmando que éstos equipos deben estar formados por profesionales multidisciplinares entrenados. Otros autores han descrito la necesidad de crear un vínculo y ganar la confianza del paciente (Krieg & Dickie, 2013), a través del cual el sujeto adquiera conciencia de trastorno y de necesidad de tratamiento, y pueda iniciarse la intervención. Este sería el objetivo de la intervención inicial domiciliaria del equipo EMSE.

Por todo ello, en base a estos resultados obtenidos y nuestra experiencia clínica en el equipo EMSE, consideramos que un tratamiento ideal de estos pacientes sería su acceso domiciliario inicial, creación de vínculo y abordaje intensivo, a nivel domiciliario -si es posible- u hospitalario, prolongado en el

tiempo, con un enfoque rehabilitador en habilidades sociales y reinserción social. Consideramos que los tratamientos a corto plazo no se asociarían a una mejora duradera. Tal como apunta Wong (J. C. M. Wong et al., 2019), el abordaje terapéutico debe ser individualizado, con diferentes abordajes en función de la gravedad. Sería recomendable que existiese una red terapéutica multidisciplinar bien establecida entre el equipo de atención domiciliaria y los equipos ambulatorios, que aseguren la continuidad del tratamiento y minimicen el riesgo de abandono y recaída.

Este es el primer estudio de seguimiento a 12 meses de sujetos con aislamiento social publicado. Los resultados mostraron una tendencia global a la desvinculación de los pacientes a lo largo de los meses y empeoramiento en el estado de aislamiento. Se observó que los casos hospitalizados tras la actuación domiciliaria del EMSE presentaron una mejor evolución al cabo de un año, con mejor red social y mantenimiento del seguimiento psiquiátrico. Esto fue así incluso en los casos con características basales más desfavorables, tales como mayor gravedad y peor red social inicial. Todo ello destacaría la importancia del abordaje terapéutico individualizado, multidisciplinar, especializado, intensivo y a largo plazo, que evite el abandono y recaída del aislamiento social.

7.5 Factores familiares del aislamiento social

Objetivo 5: Determinar los factores familiares relacionados con la presencia del aislamiento social.

Hipótesis 5: Existe una asociación entre el aislamiento social y factores familiares. El aislamiento no está únicamente relacionado con factores culturales ligados a la sociedad japonesa.

Resultados 5: El análisis de correlación mostró asociación entre la gravedad del aislamiento y factores familiares como antecedentes psiquiátricos, distocia familiar y abuso en la infancia.

La tercera fase del proyecto, correspondiente al quinto objetivo, ha supuesto el primer estudio que investiga los factores familiares relacionados con el aislamiento social en una cultura diferente a la japonesa. Los resultados destacan la elevada frecuencia de antecedentes psiquiátricos familiares, dinámicas familiares disfuncionales y antecedentes traumáticos en la infancia (maltrato familiar), estando todos estos factores altamente interrelacionados.

7.5.1 Antecedentes psiquiátricos familiares

Nuestro estudio mostró una elevada frecuencia de antecedentes psiquiátricos familiares asociada al síndrome de aislamiento social. Las tasas de antecedentes psiquiátricos familiares fueron mucho más elevadas que en la población general (Campbell et al., 2018). Además, la presencia de antecedentes psiquiátricos familiares se asoció a variables de gravedad del aislamiento: inicio más precoz y peor evolución a los 12 meses, con menor seguimiento médico. Aquellas familias con enfermedad mental en los progenitores presentaron también mayor frecuencia de maltrato en la infancia, distocia familiar y familias monoparentales, sugiriendo que es un grupo de elevado riesgo para el aislamiento.

Los antecedentes psiquiátricos familiares más frecuentes fueron los trastornos afectivos y de ansiedad, la mayoría presentes en las madres. Estos resultados coinciden con la escasa literatura científica previa (Cooper et al., 2006; Martin et al., 1999; Umeda et al., 2012). Esta asociación se ha relacionado con conducta específica de las madres afectas de trastornos de ansiedad, quienes tenderían a reforzar la ansiedad de sus hijos y sus estrategias de evitación, interfiriendo en su actividad social. También podría estar relacionado con factores genéticos, por lo que sería necesario ampliar la investigación sobre ello.

Este estudio es el primer y único que ha descrito la relación entre la psicopatología del padre y el aislamiento social de su descendencia, habiendo observado que los padres presentaban más frecuentemente trastornos psicóticos y por uso de sustancias. Este dato no se había observado en estudios previos sobre *bikikomori* (Umeda et al., 2012). El trastorno por uso de sustancias en los padres se ha descrito como un factor de riesgo para el desarrollo de depresión, ansiedad, aislamiento social y problemas conductuales en la descendencia (Johnson & Leff, 1999; Lieberman, 2000; Solís et al., 2012; Usher et al., 2015). Así, estos datos señalarían el deterioro en la crianza como un mediador en la asociación entre el trastorno mental de los padres y el factor de riesgo para el desarrollo del síndrome de aislamiento social. A su vez, estos resultados destacarían la importancia del desarrollo de programas de prevención y detección precoz en este grupo de riesgo (Siegenthaler et al., 2012), y la necesidad de intervenciones que optimicen los resultados de crianza en la población de riesgo. Además, el acceso de los padres a los programas de soporte y los servicios de salud mental es menor que en las madres (Funakoshi & Miyamoto, 2014), por lo que sería importante enfatizar los programas de ayuda en ellos.

Los antecedentes psiquiátricos familiares fueron muy frecuentes, y se asociaron a variables de gravedad del aislamiento, así como a mayor frecuencia de maltrato en la infancia, distocia familiar y familias monoparentales, sugiriendo que es un grupo de elevado riesgo. Los trastornos psiquiátricos familiares más frecuentes fueron los trastornos de ansiedad y depresión, mayoritariamente en las madres, coincidiendo con la literatura previa. Es el primer estudio que ha analizado los antecedentes psiquiátricos paternos, observando mayor frecuencia de trastornos psicóticos y de uso de sustancias. Estos datos destacarían la necesidad de programas de prevención, detección precoz y soporte en familias con progenitores afectos de trastornos mentales.

7.5.2 Dinámicas familiares disfuncionales

Los resultados mostraron que el 61.5% de los casos presentaba distocia familiar, demostrando su alta frecuencia y coincidiendo con estudios previos en los que se ha relacionado el funcionamiento familiar con el síndrome de aislamiento social (Chan & Lo, 2016; Kondo et al., 2013; Krieg & Dickie, 2013; Suwa et al., 2003; Umeda et al., 2012). La distocia familiar se asoció con variables de gravedad del aislamiento tales como el inicio más precoz y peor evolución a los 12 meses, con menor seguimiento médico.

Dinámicas familiares tales como escasa comunicación, dificultad en resolución de problemas, falta de intercambio emocional en la familia y dificultad de los miembros de la familia para simpatizar con los sentimientos negativos de los demás, se atribuyen al desarrollo del aislamiento social (Kondo et al., 2013; Suwa et al., 2003). A su vez, algunos estilos parentales como el autoritario, controlador, negligente y sobreprotector, influyen el desarrollo y mantenimiento del aislamiento (Borovoy, 2008; Krieg & Dickie, 2013; Umeda et al., 2012; Yamamoto, 2005). Se ha descrito que los hijos con una figura paterna ausente, junto con un vínculo maternal muy cercano, pueden experimentar dificultades para convertirse en adultos independientes (Kato et al. 2016, 2018; Morese et al. 2020). A su vez, el *bikikomori* se ha relacionado con otros factores ligados a la cultura japonesa, como el *amae*, en el que el hijo niño manipularía a los padres para obtener su cuidado, y en el que los padres aceptarían y normalizarían el aislamiento del niño (Bester & Doi, 1973; Kato et al., 2012). Aunque el *amae* se consideró inicialmente ligado únicamente a la cultura japonesa, opiniones más recientes sugieren que es más universal y existiría en otras culturas (Kato et al., 2012; Niiya et al., 2006). Además, especialmente como se observa en el síndrome de *bikikomori*, el desarrollo de habilidades interpersonales básicas durante las primeras etapas de la vida parece ser insuficiente, lo que podría conducir a la vulnerabilidad al estrés en los entornos escolares/laborales y a la tendencia a escapar de situaciones sociales (Kato et al., 2016, 2018).

En nuestro estudio, en 36 casos (18% del total) ni el paciente ni la familia accedieron a que el EMSE realizase una primera evaluación en el domicilio. Este hecho ha sido descrito en investigaciones previas sobre *hikikomori*, en relación a la incapacidad de la familia de aceptar ayuda, en contexto de vergüenza por revelar el problema, miedo a las posibles consecuencias (violencia, empeoramiento) que pueda provocar en su hijo (Kato et al., 2018, 2019). Además, en los casos en que el tratamiento domiciliario se inició, las familias con dinámicas familiares disfuncionales colaboraban menos con el equipo terapéutico en sus indicaciones y recomendaciones. Estos resultados muestran la dificultad y elevado estrés que padecen las familias, su dificultad para intervenir y su tendencia a minimizar o negar el problema, cronificando la situación durante años sin pedir ayuda. Así, nuestros resultados aportan más evidencia sobre la importancia y necesidad del desarrollo de programas de soporte y psicoeducación de la familia (Kato et al. 2019; Kubo et al. 2020; Morese et al. 2020), que ayuden reducir la ansiedad familiar, resolver los problemas de relación familiar, ayuden al entendimiento y manejo del problema del aislamiento en su familiar, y por tanto, tengan un impacto positivo en el paciente aislado (Funakoshi & Miyamoto, 2014; Kato et al., 2018; Nonaka et al., 2020; Suwa et al., 2003).

Las dinámicas familiares disfuncionales fueron muy frecuentes, y se asociaron a variables de gravedad del aislamiento tales como el inicio más precoz y peor evolución a los 12 meses, con menor seguimiento médico. En estas familias, existía menos colaboración con el equipo terapéutico. Los resultados son consistentes con la escasa bibliografía previa, y destacarían la necesidad de programas de soporte y psicoeducación familiar que ayuden reducir la ansiedad familiar, resolver los problemas de relación familiar, ayuden al entendimiento y manejo del problema del aislamiento en su familiar, y por tanto, tengan un impacto positivo en el paciente aislado.

7.5.3 Antecedentes de maltrato en la infancia

Es conocido que el maltrato infantil afecta al desarrollo, y está relacionado con varios trastornos mentales, tales como esquizofrenia (Palmier-Claus et al., 2016), trastorno bipolar (Palmier-Claus et al., 2016), trastorno depresivo y de ansiedad (Li et al., 2016). En relación con el síndrome de aislamiento social, se ha descrito el papel del maltrato en la infancia como factor de riesgo para el desarrollo del aislamiento (Borovoy, 2008; Hattori, 2006; Umeda et al., 2012). En nuestro estudio, los resultados mostraron que el 20.7% de los casos tenían antecedentes de maltrato por la familia en la infancia, aportando más evidencia a la relación entre maltrato en la infancia con el aislamiento social. La presencia de antecedentes de maltrato se asoció a variables de gravedad del aislamiento tales como menor colaboración familiar con el tratamiento, así como antecedentes psiquiátricos familiares, dinámicas familiares disfuncionales y familias monoparentales. Todos estos factores contribuirían a

un ambiente familiar desfavorable, que probablemente dificulte la detección, tratamiento y mejora del síndrome. Así, estos datos reforzarían la necesidad de programas eficaces y políticas que reduzcan la incidencia de maltrato infantil y favorezcan su detección precoz y tratamiento del aislamiento.

Los resultados aportan más evidencia sobre la relación entre el maltrato en la infancia y el aislamiento social, observándose la existencia de antecedentes de maltrato en la infancia en el 20% de los casos. La presencia de antecedentes de maltrato se asoció a variables de gravedad de aislamiento tales como menor colaboración familiar, antecedentes psiquiátricos familiares y distocia familiar, sugiriendo que todas estas variables contribuyen a un ambiente desfavorable que dificulta su detección y tratamiento.

7.5.4 Familias monoparentales

Casi el 40% de los casos pertenecía a una familia monoparental, y de ellos, el 94% convivía con la madre. Estos resultados coinciden con estudios previos (Kobayashi et al., 2003; Kondo et al., 2007), en los que predominantemente la madre es la figura con quien conviven y les cuida, siendo hasta la fecha el primer estudio que evalúa específicamente la relación entre familias monoparentales y aislamiento social. Los casos procedentes de familias monoparentales eran más jóvenes y presentaban menor tiempo de evolución del aislamiento, quizás relacionado con que la familia buscaba ayuda médica de forma más precoz. Pese a estas variables de gravedad más favorables, presentaron mayor frecuencia de ingresos hospitalarios y mayor puntuación en las escalas de sobrecarga del cuidador, lo que reflejaría la dificultad de la familia -mayoritariamente la madre- para el manejo en el domicilio. Aunque presentaron menos antecedentes psiquiátricos familiares, fueron más frecuentes los antecedentes de maltrato en la infancia y distocia familiar, pudiendo estar ambos factores relacionados con el hecho de que, en el momento de la consulta, la familia se había fragmentado y la madre se había convertido en la principal cuidadora. Sin embargo, esto debería investigarse con mayor precisión, ya que no se recopiló información sobre el momento y la duración de la separación de los padres, por lo que no fue posible analizar si ocurrió antes o durante el período de aislamiento. No se observaron diferencias en la evolución a 12 meses.

Casi la mitad de los casos pertenecía a una familia monoparental, conviviendo mayoritariamente con la madre. Fueron casos más jóvenes y con menor evolución del aislamiento, pero requirieron mayor número de ingresos hospitalarios y presentaron mayores dificultades en el manejo domiciliario, lo que reflejaría la dificultad de la familia -mayoritariamente la madre- para el manejo en el domicilio.

7.6 Fortalezas y limitaciones

La principal fortaleza del presente trabajo de Tesis Doctoral consiste en ser el primer estudio realizado en una amplia muestra de casos en nuestra sociedad, sobre un tema de elevada relevancia sobre el que existe un notable vacío en la literatura científica.

Ante el vacío de conocimiento sobre el fenómeno de aislamiento social en nuestra sociedad, y el escaso consenso sobre sus características a nivel global, este trabajo de Tesis Doctoral ha realizado un amplio análisis sobre sus características sociodemográficas y clínicas, de modo que puedan ser comparadas y evaluadas sus similitudes y diferencias con los estudios realizados en la cultura japonesa existentes, y con posibles futuros estudios internacionales, con el objetivo de llegar a un consenso y una caracterización exacta del síndrome de aislamiento social. Además, ha evaluado el papel de diferentes variables en la evolución y gravedad del aislamiento, proponiendo diferentes subtipos que pueden tener implicación en la gravedad y evolución. A su vez, ha innovado en el estudio sobre la evolución y respuesta terapéutica, hasta la fecha inexistente, de modo que, en base a la evaluación del papel de diferentes variables, propone posibles vías de investigación sobre nuevas estrategias de detección precoz y abordaje terapéutico. Por último, ha sido pionero también en el análisis de los factores familiares relacionados con el aislamiento social, abriendo nuevas posibles líneas de investigación en prevención primaria y secundaria.

La principal limitación del trabajo es la metodología de estudio observacional descriptivo, en la que no es posible establecer relaciones causales entre variables, ni realizar un cálculo real de incidencia.

Una limitación importante es la heterogeneidad de la muestra, tanto respecto al rango de edad como la patología comórbida incluida. En la segunda fase del estudio se aprovechó esta heterogeneidad para realizar un análisis por subgrupos en función de diferentes variables, para un análisis más detallado y exacto. La evaluación por subgrupos en función de la colaboración con el tratamiento también aportó datos relevantes para la detección y tratamiento a largo plazo, pero la limitación principal asociada a ello estaría en relación a que fue evaluado únicamente con un subítem de la escala GEP.

En el estudio de adicción a internet asociado al aislamiento, la dificultad asociada fue la falta de unos criterios diagnósticos bien establecidos y escalas asociadas aplicadas.

El análisis de otros diagnósticos específicos, tales como trastorno del espectro autista, subtipos de trastornos de personalidad, subtipos de trastornos de ansiedad aportaron más datos para la caracterización del fenómeno de aislamiento, pero se ve limitado por la falta de escalas específicas administradas.

Una limitación relevante está relacionada con el hecho de que algunas variables, tales como la red social, grado de aislamiento y dinámicas familiares no se evaluaron mediante entrevistas específicas ni escalas estandarizadas que pudiesen utilizarse como referencia en futuras investigaciones. No se contabilizaron las relaciones virtuales, dato que podría ser interesante para tener en cuenta en futuras investigaciones.

En relación al largo seguimiento durante 12 meses, no fue posible recoger algunos datos en todos los casos, tales como la red social, lo que supuso una pérdida de información.

7.7 Aportaciones y futuras líneas de investigación

A pesar de que muchos países ya han alertado de que nos estamos enfrentando a una epidemia, la investigación sobre el aislamiento social ha sido muy escasa durante décadas. Existen pruebas sólidas de que el aislamiento social aumenta significativamente el riesgo de mortalidad prematura, siendo considerado un factor de riesgo de mortalidad similar a la obesidad, tabaquismo o hipertensión arterial. Sin embargo, es escasa la literatura científica sobre este tema, y aún menos en el ámbito de la salud mental.

El objetivo de este trabajo ha sido aportar evidencia científica sobre el fenómeno del aislamiento social en nuestro medio. Tras evidenciar su existencia y dificultad de manejo en la práctica profesional clínica en el equipo EMSE, iniciamos un proceso de investigación que aportase datos sobre las características sociodemográficas, clínicas y familiares, y analizamos la evolución en el tiempo, la respuesta al tratamiento, y los factores que se asocian a una mejor o peor evolución. De este modo, este trabajo ha aportado información importante y útil para el entendimiento del fenómeno del aislamiento social en nuestra sociedad. Ha mostrado más evidencia científica que ayude al consenso en la definición y criterios diagnósticos del síndrome de aislamiento. Ha ofrecido, además, unas propuestas para establecer estrategias de abordaje terapéutico y soporte familiar, poniendo el foco en intervenciones comunitarias asertivas. Todos estos resultados han sido publicados en revistas científicas de ámbito social y de salud mental de notable relevancia. A su vez, la publicación de esta investigación ha aportado al equipo EMSE la colaboración en la investigación con autores internacionales expertos en aislamiento social, que ha enriquecido tanto la investigación como la posterior práctica clínica diaria en el EMSE. Cabe mencionar que la publicación de los diferentes artículos ha tenido también una repercusión en múltiples medios de comunicación que ha colaborado a dar visibilidad al fenómeno en nuestra sociedad, ayudando a familiares y pacientes a tomar conciencia de la necesidad de buscar ayuda profesional y salir de su encierro.

Pero son aún muchas las lagunas de conocimiento, y es necesario el desarrollo de futuras líneas de investigación sobre el síndrome de aislamiento social en diferentes áreas:

- En primer lugar, estos resultados aportan evidencia que debería ser ampliada y replicada en futuras investigaciones centradas en prevención primaria, a través de intervención en el entorno familiar sobre los factores familiares evaluados, tales como enfermedad mental en progenitores, o ante situaciones de abuso o maltrato durante la infancia.
- Ampliar el estudio de diferentes intervenciones psicoeducativas centradas en la familia, teniendo en consideración los factores familiares evaluados en nuestro estudio, de modo que faciliten la búsqueda de ayuda más precoz, trabajen con la familia el entendimiento de enfermedad y la colaboración durante el tratamiento.
- Los resultados muestran también la importancia de profundizar en la investigación sobre intervenciones enfocadas en detección precoz en casos de aislamiento social en jóvenes.
- Realizar investigación en prevención secundaria y terciaria, estudiando los tipos de intervenciones más eficaces - como los tratamientos específicos intensivos a largo plazo -, teniendo en cuenta variables evaluadas como la comorbilidad y la colaboración con el tratamiento. Estudiar en profundidad programas de tratamiento centrados en el desarrollo del vínculo terapéutico, la conciencia de trastorno y de necesidad de tratamiento para salir del aislamiento.
- Además, en base a la evidencia de los datos obtenidos, realizar nuevas vías de trabajo que estudien intervenciones comunitarias especializadas en aislamiento social, con equipos multidisciplinares de atención domiciliar especializada en psiquiatría similares al EMSE.
- Con el objetivo de alcanzar un consenso global, determinar una definición y criterios diagnósticos, así como describir claramente su existencia en diferentes culturas, sería de gran utilidad la realización de estudios internacionales con muestras amplias.

La reciente pandemia por Covid-19 que estamos viviendo a nivel mundial ha llevado al confinamiento y aislamiento social de millones de personas por razones sanitarias. Esta situación ha supuesto un hecho completamente nuevo e inesperado, que ha puesto de mayor relieve la importancia del estudio del aislamiento social a nivel de salud mental. Los conocimientos que este trabajo de Tesis y otros estudios previos sobre el aislamiento social y el *hikikomori* pueden ayudar en su investigación (Kato et al., 2020). Los primeros estudios que se están realizando sugieren que el impacto psicológico de la cuarentena es amplio, sustancial y puede ser duradero (Brooks et al. 2020), relacionándose con el desarrollo en población general de trastornos de ansiedad, depresivos, estrés postraumático y mayores tasas de suicidio (Sher 2020; Rubin and Wessely 2020). Se ha descrito también relación con el desarrollo de dificultades en las relaciones sociales (Xiang et al. 2020) y conductas evitativas (tales como evitar espacios públicos, lugares con multitud de personas), que retrasan el regreso a la vida normal durante meses (Brooks et al. 2020). A su vez, se ha descrito que las personas con antecedentes

de trastornos mentales podrían verse influidas de manera más sustancial a las respuestas emocionales provocadas por la epidemia de Covid-19, dando lugar a recaídas o empeoramiento de sus trastornos de base debido a la alta susceptibilidad al estrés en comparación con la población general (Yao et al. 2020). En consecuencia, sería necesario investigar si el aislamiento social que ha supuesto la cuarentena por Covid-19 podría ser un factor de riesgo para el empeoramiento y cronificación de conductas de aislamiento previas, disminuyendo la conciencia de trastorno y de necesidad de tratamiento, y dificultando su detección y tratamiento. Además, sería de gran interés profundizar en la investigación acerca de si el confinamiento podría ser el detonante para el desarrollo de una nueva conducta de aislamiento en personas vulnerables, y determinar qué factores de riesgo estarían asociados. Tal como hemos descrito a lo largo de la presente Tesis Doctoral, determinados factores familiares desfavorables, como enfermedad mental en progenitores y dinámicas familiares disfuncionales, están asociados al aislamiento social, y en la situación de confinamiento podrían verse exacerbados y afectar negativamente en los sujetos, precipitando o empeorando la conducta de aislamiento social. En conclusión, consideramos que el aislamiento social es un fenómeno sobre el que es necesario ampliar su investigación y conocimiento, y aún más si cabe en el momento actual.

8 CONCLUSIONES

8 CONCLUSIONES

El objetivo del presente trabajo de Tesis Doctoral es el análisis de las características sociodemográficas, clínicas y de respuesta terapéutica del aislamiento social en nuestra sociedad, así como los posibles subtipos y factores familiares asociados. A continuación, se muestran las conclusiones de cada objetivo:

8.1 Caracterización sociodemográfica y clínica del aislamiento social

Objetivo principal: Caracterización clínica y sociodemográfica del fenómeno de aislamiento social en nuestro entorno y determinar su equivalencia con el síndrome de *hikikomori*.

Hipótesis principal: La conducta de aislamiento social es equiparable al llamado *hikikomori*, y existe no sólo ligado a la cultura japonesa, sino también en nuestra sociedad.

Resultados 1: Los sujetos evaluados presentan los mismos criterios y características que el síndrome de *hikikomori*. Es más frecuente en hombres adultos jóvenes, presenta una duración muy variable, elevada gravedad clínica y escasa colaboración.

- Nuestro estudio pone de manifiesto que el síndrome de aislamiento social existe en nuestra sociedad, siendo equiparable al síndrome de *hikikomori* descrito en Japón.
- Los resultados muestran que sus características esenciales son: mayor frecuencia en hombres adultos jóvenes, con antecedentes psiquiátricos, que conviven con su familia -quien es la que alerta del problema-, con una red social nula y una duración del aislamiento muy variable. Presentan elevada gravedad clínica y discapacidad. De acuerdo con estudios previos, su detección y tratamiento se ve dificultado por la escasa búsqueda de ayuda de estos sujetos y poca colaboración con el tratamiento. En consecuencia, este hecho destacaría la importancia del papel de los equipos domiciliarios especializados como el EMSE en la detección y tratamiento del aislamiento social.
- La conducta de aislamiento social estudiada en nuestra muestra sería equiparable al síndrome de *hikikomori* observado en Japón, siendo términos, por tanto, equiparables y sinónimos.
- Esta investigación ha supuesto el primer estudio occidental que describe las características sociodemográficas y clínicas de un amplio grupo de sujetos con aislamiento social, cumpliendo el objetivo principal del proyecto de Tesis Doctoral.

8.2 Determinación de la naturaleza sindrómica del aislamiento social

Objetivo 2: Determinar la naturaleza sindrómica versus diagnóstica del síndrome aislamiento social, también llamado síndrome de *hikikomori* en Japón, y determinar los síntomas y características necesarias para establecer la presencia del síndrome o diagnóstico.

Hipótesis 2: La conducta de aislamiento social constituye un síndrome grave, comórbido a diferentes trastornos mentales. No representa una nueva categoría diagnóstica.

Resultados 2: La mayor parte de los sujetos estudiados tuvo asociado un trastorno mental comórbido. Las características y criterios diagnósticos fueron similares a los más ampliamente aceptados para el *hikikomori*.

- Este estudio pone de manifiesto que el aislamiento social no se corresponde con una nueva categoría diagnóstica, sino con un síndrome grave común a diferentes trastornos mentales, siendo los más frecuentes los trastornos psicóticos, de ansiedad y afectivos.
- La definición y criterios diagnósticos utilizados en nuestro estudio coinciden con los más aceptados y utilizados en las investigaciones más relevantes sobre el fenómeno en Japón, aportando más evidencia científica que ayuda a consensuar los criterios diagnósticos del síndrome de aislamiento social. Estos criterios diagnósticos son:
 - A. **Aislamiento físico:** Pasar la mayor parte del día y casi todos los días en el hogar.
 - B. **Evitación de la participación social:** Evitar las situaciones sociales, tales como asistir a la escuela o ir a un lugar de trabajo.
 - C. **Evitación de las relaciones sociales:** Evitar las relaciones sociales, como amistades o contactos con miembros de la familia.
 - D. **Malestar o deterioro significativo** debido a aislamiento social.
 - E. **Duración mínima de 6 meses.**

8.3 Subtipos de aislamiento social

Objetivo 3: Determinar los posibles diferentes subtipos de aislamiento social y su posible correspondencia con entidades diagnósticas ya descritas.

Hipótesis 3: El aislamiento social se puede dividir en varios subtipos en función de: la patología comórbida, la edad, el tiempo de aislamiento o la colaboración con el tratamiento. Además, estas variables tienen relevancia en la respuesta a la intervención y el pronóstico.

Resultados 3: El subtipo ansiedad-afectivo presentó características diferenciales respecto al resto. Los subgrupos por edad y por tiempo de evolución del aislamiento no mostraron diferencias significativas. El subgrupo con menor colaboración presentó características particulares de mayor gravedad.

- Esta investigación muestra que el aislamiento social puede dividirse en diferentes subtipos en función de las variables comorbilidad y colaboración con el tratamiento, con implicaciones a nivel de intervención terapéutica y pronóstico.
- Así, nuestro estudio revela que el aislamiento social puede dividirse en diferentes subtipos en función de los trastornos psiquiátricos comórbidos asociados. El subtipo de casos afectos de trastorno de ansiedad y/o afectivo presentó características diferenciales en comparación con el resto de diagnósticos, con características clínicas basales más favorables, derivándose mayoritariamente a tratamiento ambulatorio no intensivo. Sin embargo, su evolución fue peor, presentando mayor desvinculación y empeoramiento clínico a los 12 meses. En consecuencia, estos resultados plantean la idoneidad de desarrollar protocolos de tratamiento no hospitalarios de moderada intensidad a largo plazo para este subtipo ansiedad-afectivo, que aprovechen esta ventaja de mayor colaboración y menor gravedad inicial, y permitan evitar la desvinculación a largo plazo.
- Los resultados muestran que los sujetos con aislamiento social mayoritariamente no solicitan ayuda médica por iniciativa propia, siendo la familia quien consulta. El análisis realizado permite constatar que la colaboración con el tratamiento es una variable en función de la cual puede subdividirse el aislamiento social. Así, el subgrupo con menor colaboración presentó características particulares de mayor gravedad, tales como peor red social, mayor gravedad y mayor necesidad de hospitalización. Ello supone un riesgo y destacaría la investigación en el desarrollo de protocolos específicos de tratamiento intensivo hospitalario específicos en casos de escasa colaboración, centrados en el desarrollo del vínculo terapéutico, la conciencia de trastorno y de necesidad de tratamiento para salir del aislamiento.

- La edad y el tiempo de evolución del aislamiento no serían factores relevantes en función de los cuales dividir en subtipos el síndrome de aislamiento social, ya que en el análisis no obtuvieron implicaciones en la gravedad ni la evolución clínica.
- Esta investigación ha supuesto el primer estudio sobre el aislamiento social en nuestra sociedad que ha analizado los subtipos en función de variables clínicas basales y su papel en la evolución y respuesta terapéutica a largo plazo, aportando datos novedosos sobre los cuales se proporcionan nuevas líneas de investigación.

8.4 Evolución y respuesta al tratamiento a largo plazo

Objetivo 4: Describir la evolución a largo plazo tras diferentes abordajes terapéuticos en el aislamiento social.

Hipótesis 4: El aislamiento social tiene una mejor evolución a largo plazo tras un tratamiento intensivo. Los sujetos que reciben un tratamiento convencional breve presentarán una peor evolución.

Resultados 4: Se observó una tendencia global a la desvinculación y empeoramiento del aislamiento a los 12 meses. Los casos que fueron hospitalizados presentaron una mejor evolución.

- En el aislamiento social existe una tendencia global a la desvinculación de los pacientes a lo largo de los meses y empeoramiento en el estado de aislamiento.
- Los resultados muestran que cuando se realiza un tratamiento intensivo -hospitalización- la evolución del aislamiento social al cabo de un año es mejor, incluso en casos con características basales más desfavorables.
- En consecuencia, estos resultados sugieren que el tratamiento ideal de estos pacientes es su acceso domiciliario inicial, creación de vínculo y abordaje intensivo, a nivel domiciliario -si es posible- u hospitalario, prolongado en el tiempo, con un enfoque rehabilitador en habilidades sociales y reinserción social, que minimice el riesgo de recaída y empeoramiento. Creemos que las futuras investigaciones sobre su tratamiento deberían tener en cuenta estas consideraciones.
- Este trabajo de Tesis ha sido el primer estudio de seguimiento a 12 meses de sujetos con aislamiento social publicado. Sus resultados se beneficiarían de ser replicados en nuevas investigaciones internacionales.

8.5 Factores familiares relacionados con el aislamiento social

Objetivo 5: Determinar los factores familiares relacionados con la presencia del aislamiento social.

Hipótesis 5: Existe una asociación entre el aislamiento social y factores familiares. El aislamiento no está únicamente relacionado con factores culturales ligados a la sociedad japonesa.

Resultados 5: El análisis de correlación mostró asociación entre la gravedad del aislamiento y factores familiares como antecedentes psiquiátricos familiares, distocia familiar y abuso en la infancia.

- Este trabajo pone de manifiesto que el aislamiento social se asocia con elevada frecuencia a variables familiares negativas, tales como antecedentes psiquiátricos familiares, dinámicas familiares disfuncionales y antecedentes traumáticos en la infancia (maltrato familiar), estando todos estos factores altamente interrelacionados y asociados a variables de gravedad del aislamiento.
- Los trastornos psiquiátricos familiares más frecuentes asociados al aislamiento social son los trastornos de ansiedad y depresión, mayoritariamente en las madres, coincidiendo con la bibliografía previa. El estudio pionero específico de los antecedentes psicopatológicos paternos revela que en ellos son más frecuentes los trastornos psicóticos y de uso de sustancias.
- La elevada frecuencia de dinámicas familiares disfuncionales y familias con antecedentes de maltrato en la infancia, asociado a mayor gravedad del aislamiento, coincide con la escasa evidencia científica previa y destacaría la importancia del desarrollo de programas de psicoeducación y soporte familiar en el aislamiento social.
- Esta necesidad de programas psicoeducativos familiares se evidencia también en el caso de familias monoparentales, quienes, a pesar de características basales más favorables, presentan variables de dificultad de manejo en domicilio importantes.
- En conjunto, consideramos que los programas comunitarios dirigidos al aislamiento social deberían diseñarse para detectar y evaluar cada uno de estos factores familiares. Sería de gran utilidad la investigación en intervenciones dirigidas a estos factores familiares, las cuales serían más eficaces si ofrecen una intervención familiar global y no separada para cada factor, ya que puede ocurrir simultáneamente más de uno.

9 BIBLIOGRAFÍA

9 BIBLIOGRAFÍA

A

- Aleman, A., Lincoln, T. M., Bruggeman, R., Melle, I., Arends, J., Arango, C., & Knegtering, H. (2017). Treatment of negative symptoms: Where do we stand, and where do we go? *Schizophrenia Research*, 186, 55–62. <https://doi.org/10.1016/j.schres.2016.05.015>
- Alexander, C., & Zealberg, J. J. (1999). Mobile crisis: moving emergency psychiatry out of the hospital setting. *New Directions for Mental Health Services*, 82, 93–99. <https://doi.org/10.1002/yd.23319998212>
- American Psychiatric Association. (2000). *Diagnostic Criteria from DSM-IV-TR*. The Association. https://play.google.com/store/books/details?id=LBVks_xe994C

B

- Badcock, J. C., Shah, S., Mackinnon, A., Stain, H. J., Galletly, C., Jablensky, A., & Morgan, V. A. (2015). Loneliness in psychotic disorders and its association with cognitive function and symptom profile. *Schizophrenia Research*, 169(1-3), 268–273. <https://doi.org/10.1016/j.schres.2015.10.027>
- Baek, S.-B. (2014). Psychopathology of social isolation. *Journal of Exercise Rehabilitation*, 10(3), 143–147. <https://doi.org/10.12965/jer.140132>
- Bester, J., & Doi, T. (1973). *The anatomy of dependence* (Vol. 101). Kodansha International. http://www.nippon-foundation.or.jp/what/projects/book_donation/img/8f0j6k000001qvbh.pdf
- Bommersbach, T., & Millard, H. (2019). No longer culture-bound: Hikikomori outside of Japan. *The International Journal of Social Psychiatry*, 65(6), 539–540. <https://doi.org/10.1177/0020764019859379>
- Borge, L., Martinsen, E. W., Ruud, T., Watne, O., & Friis, S. (1999). Quality of life, loneliness, and social contact among long-term psychiatric patients. *Psychiatric Services*, 50(1), 81–84. <https://doi.org/10.1176/ps.50.1.81>
- Borovoy, A. (2008). Japan's hidden youths: mainstreaming the emotionally distressed in Japan. *Culture, Medicine and Psychiatry*, 32(4), 552–576. <https://doi.org/10.1007/s11013-008-9106-2>
- Brooks, S. K., Webster, R. K., Smith, L. E., Woodland, L., Wessely, S., Greenberg, N., & Rubin, G. J. (2020). The psychological impact of quarantine and how to reduce it: rapid review of the evidence. *The Lancet*, 395(10227), 912–920. [https://doi.org/10.1016/S0140-6736\(20\)30460-8](https://doi.org/10.1016/S0140-6736(20)30460-8)
- Brummett, B. H., Barefoot, J. C., Siegler, I. C., Clapp-Channing, N. E., Lytle, B. L., Bosworth, H. B., Williams, R. B., Jr, & Mark, D. B. (2001). Characteristics of socially isolated patients with coronary artery disease who are at elevated risk for mortality. *Psychosomatic Medicine*, 63(2), 267–272. <https://doi.org/10.1097/00006842-200103000-00010>

Burns, T., & Patrick, D. (2007). Social functioning as an outcome measure in schizophrenia studies. *Acta Psychiatrica Scandinavica*, 116(6), 403–418. <https://doi.org/10.1111/j.1600-0447.2007.01108.x>

C

Cabinet Office. (2016). *Wakamono No Seikatsu Ni Kansuru Chousa-Houkokusho [Investigation on Life of Youth]*. Cabinet Office. <https://www8.cao.go.jp/youth/kenkyu/hikikomori/h27/pdf-index.html>

Cacioppo, J. T., & Hawkley, L. C. (2003). Social isolation and health, with an emphasis on underlying mechanisms. *Perspectives in Biology and Medicine*, 46(3 Suppl), S39–S52. <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/14563073>

Campbell, A. J., Cumming, S. R., & Hughes, I. (2006). Internet use by the socially fearful: addiction or therapy? *Cyberpsychology & Behavior: The Impact of the Internet, Multimedia and Virtual Reality on Behavior and Society*, 9(1), 69–81. <https://doi.org/10.1089/cpb.2006.9.69>

Campbell, L. E., Hanlon, M.-C., Galletly, C. A., Harvey, C., Stain, H., Cohen, M., van Ravenzwaaij, D., & Brown, S. (2018). Severity of illness and adaptive functioning predict quality of care of children among parents with psychosis: A confirmatory factor analysis. *The Australian and New Zealand Journal of Psychiatry*, 52(5), 435–445. <https://doi.org/10.1177/0004867417731526>

Chan, G. H.-Y., & Lo, T. W. (2014). Hidden youth services: What Hong Kong can learn from Japan. *Children and Youth Services Review*, 42(C), 118–126. <https://doi.org/10.1016/j.childyouth.2014.03.021>

Chan, G. H.-Y., & Lo, T.-W. (2016). Family Relationships and the Self-Esteem of Hidden Youth: A Power Dynamics Perspective. *Journal of Family Issues*, 37(9), 1244–1266. <https://doi.org/10.1177/0192513X14537479>

Chan, H.-Y., & Lo, T.-W. (2014). Quality of Life of the Hidden Youth in Hong Kong. *Applied Research in Quality of Life*, 9(4), 951–969. <https://doi.org/10.1007/s11482-013-9279-x>

Chauliac, N., Couillet, A., Faivre, S., Brochard, N., & Terra, J.-L. (2017). Characteristics of socially withdrawn youth in France: A retrospective study. *The International Journal of Social Psychiatry*, 63(4), 339–344. <https://doi.org/10.1177/0020764017704474>

Chiu, T. L., & Primeau, C. (1991). A psychiatric mobile crisis unit in New York City: description and assessment, with implications for mental health care in the 1990s. *The International Journal of Social Psychiatry*, 37(4), 251–258. <https://doi.org/10.1177/002076409103700404>

Chong, S., & Chan, K.-M. (2012). A Case Study of a Chinese “Hikikomorian” in Canada-Theorizing the Process of HikikomORIZATION. *Journal of Special Education and Rehabilitation*, 13(3-4), 99–114. <http://eprints.jser.fon.edu.mk/63/>

Clinton, M., Lunney, P., Edwards, H., Weir, D., & Barr, J. (1998). Perceived social support and community adaptation in schizophrenia. *Journal of Advanced Nursing*, 27(5), 955–965. <https://doi.org/10.1046/j.1365-2648.1998.t01-1-00573.x>

Cohen, S., Doyle, W. J., Skoner, D. P., Rabin, B. S., & Gwaltney, J. M., Jr. (1997). Social ties and susceptibility to the common cold. *JAMA: The Journal of the American Medical Association*, 277(24), 1940–1944. <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/9200634>

- Cooper, P. J., Fearn, V., Willetts, L., Seabrook, H., & Parkinson, M. (2006). Affective disorder in the parents of a clinic sample of children with anxiety disorders. *Journal of Affective Disorders*, *93*(1-3), 205–212. <https://doi.org/10.1016/j.jad.2006.03.017>
- Cornwell, E. Y., & Waite, L. J. (2009). Social disconnectedness, perceived isolation, and health among older adults. *Journal of Health and Social Behavior*, *50*(1), 31–48. <https://doi.org/10.1177/002214650905000103>

D

- De Clercq, M., & Dubois, V. (2001). Crisis intervention models in the French-speaking countries. *Crisis*, *22*(1), 32–38. <https://doi.org/10.1027//0227-5910.22.1.32>
- de la Calle Real, M., & Muñoz Algar, M. J. (2018). Hikikomori: el síndrome de aislamiento social juvenil. *Revista de la Asociación Española de Neuropsiquiatría*, *38*(133). <http://www.revistaaen.es/index.php/aen/article/view/17036/16906>
- De Michele, F., Caredda, M., Delle Chiaie, R., Salviati, M., & Biondi, M. (2013). [Hikikomori (ひきこもり): a culture-bound syndrome in the web 2.0 era]. *Rivista di psichiatria*, *48*(4), 354–358. <https://doi.org/10.1708/1319.14633>
- de Sousa, P., Spray, A., Sellwood, W., & Bentall, R. P. (2015). “No man is an island”. Testing the specific role of social isolation in formal thought disorder. *Psychiatry Research*, *230*(2), 304–313. <https://doi.org/10.1016/j.psychres.2015.09.010>
- Domingues-Castro, M. S., & Torres, A. R. (2018). Hikikomori: revisão sobre um grave fenômeno de isolamento social. *Jornal brasileiro de psiquiatria*, *67*(4), 264–272. <https://doi.org/10.1590/0047-2085000000214>
- Dury, R. (2014). Social isolation and loneliness in the elderly: an exploration of some of the issues. *British Journal of Community Nursing*, *19*(3), 125–128. <https://doi.org/10.12968/bjcn.2014.19.3.125>

E

- Ertel, K. A., Glymour, M. M., & Berkman, L. F. (2008). Effects of social integration on preserving memory function in a nationally representative US elderly population. *American Journal of Public Health*, *98*(7), 1215–1220.
- Evans, I. E. M., Llewellyn, D. J., Matthews, F. E., Woods, R. T., Brayne, C., Clare, L., & CFAS-Wales research team. (2018). Social isolation, cognitive reserve, and cognition in healthy older people. *PLoS One*, *13*(8), e0201008. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0201008>

F

- Frankova, I. (2017). Does hikikomori exist in Ukraine? *European Psychiatry: The Journal of the Association of European Psychiatrists*, *41*, S228. <https://doi.org/10.1016/j.eurpsy.2017.01.2230>
- Frankova, I. (2019). Similar but Different: Psychological and Psychopathological Features of Primary and Secondary Hikikomori. *Frontiers in Psychiatry*, *10*, 558. <https://doi.org/10.3389/fpsy.2019.00558>

- Fratiglioni, L., Wang, H. X., Ericsson, K., Maytan, M., & Winblad, B. (2000). Influence of social network on occurrence of dementia: a community-based longitudinal study. *The Lancet*, 355(9212), 1315–1319. [https://doi.org/10.1016/S0140-6736\(00\)02113-9](https://doi.org/10.1016/S0140-6736(00)02113-9)
- Freedman, A., & Nicolle, J. (2020). Social isolation and loneliness: the new geriatric giants: Approach for primary care. *Canadian Family Physician Medecin de Famille Canadien*, 66(3), 176–182. <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/32165464>
- Funakoshi, A., & Miyamoto, Y. (2015). Significant factors in family difficulties for fathers and mothers who use support services for children with hikikomori. *Psychiatry and Clinical Neurosciences*, 69(4), 210–219. <https://doi.org/10.1111/pcn.12230>
- Furlong, A. (2008). The Japanese Hikikomori Phenomenon: Acute Social Withdrawal among Young People. *The Sociological Review*, 56(2), 309–325. <https://doi.org/10.1111/j.1467-954X.2008.00790.x>

G

- García-Campayo, J., Alda, M., Sobradie, N., & Sanz Abós, B. (2007). [A case report of hikikomori in Spain]. *Medicina clinica*, 129(8), 318–319. <https://doi.org/10.1157/13109125>
- Garety, P. A., Kuipers, E., Fowler, D., Freeman, D., & Bebbington, P. E. (2001). A cognitive model of the positive symptoms of psychosis. *Psychological Medicine*, 31(2), 189–195. <https://doi.org/10.1017/s0033291701003312>
- Gariup, M., Parellada, E., García, C., & Bernardo, M. (2008). [Hikikomori or simple schizophrenia?] [Review of *[Hikikomori or simple schizophrenia?]*]. *Medicina clinica*, 130(18), 718–719. <https://doi.org/10.1157/13120777>
- Gondim, F. A. A., Aragão, A. P., Holanda Filha, J. G., & Messias, E. L. M. (2017). Hikikomori in Brazil: 29 years of Voluntary social Withdrawal. *Asian Journal of Psychiatry*, 30, 163–164. <https://doi.org/10.1016/j.ajp.2017.10.009>
- Grant, B. F., Hasin, D. S., Stinson, F. S., Dawson, D. A., Patricia Chou, S., June Ruan, W., & Pickering, R. P. (2004). Prevalence, Correlates, and Disability of Personality Disorders in the United States. *The Journal of Clinical Psychiatry*, 65(7), 948–958. <https://doi.org/10.4088/jcp.v65n0711>
- Green, M. F., Horan, W. P., Lee, J., McCleery, A., Reddy, L. F., & Wynn, J. K. (2018). Social Disconnection in Schizophrenia and the General Community. *Schizophrenia Bulletin*, 44(2), 242–249. <https://doi.org/10.1093/schbul/sbx082>

H

- Hattori, Y. (2006). Social withdrawal in Japanese youth: a case study of thirty-five hikikomori clients. *Journal of Trauma Practice*. http://www.tandfonline.com/doi/abs/10.1300/J189v04n03_01
- Hayakawa, K., Kato, T. A., Watabe, M., Teo, A. R., Horikawa, H., Kuwano, N., Shimokawa, N., Sato-Kasai, M., Kubo, H., Ohgidani, M., Sagata, N., Toda, H., Tateno, M., Shinfuku, N., Kishimoto, J., & Kanba, S. (2018). Blood biomarkers of Hikikomori, a severe social withdrawal syndrome. *Scientific Reports*, 8(1), 2884. <https://doi.org/10.1038/s41598-018-21260-w>

- Heinze, U., & Thomas, P. (2014). Self and salvation: visions of hikikomori in Japanese manga. *Journal of the German Institute for Japanese Studies Tokyo*, 26(1), 151–169. http://www.degruyter.com/view/j/cj_cj.2014.26.issue-1_20140226101600/cj-2014-0007/cj-2014-0007.xml
- Hirashima, N. (2001). Psychopathology of social withdrawal in Japan. *Japan Medical Association Journal*, 44(6), 260–262. http://www.med.or.jp/english/pdf/2001_06/260_262.pdf
- Holt-Lunstad, J., Smith, T. B., & Layton, J. B. (2010). Social relationships and mortality risk: a meta-analytic review. *PLoS Medicine*, 7(7), e1000316. <https://doi.org/10.1371/journal.pmed.1000316>
- Holwerda, T. J., Beekman, A. T. F., Deeg, D. J. H., Stek, M. L., van Tilburg, T. G., Visser, P. J., Schmand, B., Jonker, C., & Schoevers, R. A. (2012). Increased risk of mortality associated with social isolation in older men: only when feeling lonely? Results from the Amsterdam Study of the Elderly (AMSTEL). *Psychological Medicine*, 42(4), 843–853. <https://doi.org/10.1017/S0033291711001772>
- House, J. S., Landis, K. R., & Umberson, D. (1988). Social relationships and health. *Science*, 241(4865), 540–545. <https://doi.org/10.1126/science.3399889>

I

- Ito, J. (2003). *Hikikomori No Taiou Gaido-Rain [Guideline for Response to Hikikomori]*. Ministry of Health, Labour and Welfare.
- Johnson, J. L., & Leff, M. (1999). Children of substance abusers: overview of research findings. *Pediatrics*, 103(5 Pt 2), 1085–1099. <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/10224196>

J

- Jones, M. (2006, January 15). Shutting Themselves In. *The New York Times*. <https://www.nytimes.com/2006/01/15/magazine/shutting-themselves-in.html>

K

- Kaneko, S. (2006). Japan's "Socially Withdrawn Youths" and Time Constraints in Japanese Society: Management and conceptualization of time in a support group for "hikikomori." *Time & Society*, 15(2-3), 233–249. <https://doi.org/10.1177/0961463X06067034>
- Kasahara, Y. (1978). Taikyaku shinkeishou withdrawal neurosis to iu shinkategorii no teishou (Proposal for a new category of withdrawal neurosis). In H. Nakai & Y. Yamanaka (Eds.), *Shishunki no seishinbyouri to chiryou (Psychopathology and treatment in the adolescent)* (pp. 287–319). Iwasaki Gakujutsu Shuppan.
- Kato, T. A., Hashimoto, R., Hayakawa, K., Kubo, H., Watabe, M., Teo, A. R., & Kanba, S. (2016). Multidimensional anatomy of "modern type depression" in Japan: A proposal for a different diagnostic approach to depression beyond the DSM-5. *Psychiatry and Clinical Neurosciences*, 70(1), 7–23. <https://doi.org/10.1111/pcn.12360>

- Kato, T. A., & Kanba, S. (2016). Boundless syndromes in modern society: An interconnected world producing novel psychopathology in the 21st century [Review of *Boundless syndromes in modern society: An interconnected world producing novel psychopathology in the 21st century*]. *Psychiatry and Clinical Neurosciences*, 70(1), 1–2. <https://doi.org/10.1111/pcn.12368>
- Kato, T. A., & Kanba, S. (2017). Modern-Type Depression as an “Adjustment” Disorder in Japan: The Intersection of Collectivistic Society Encountering an Individualistic Performance-Based System. *The American Journal of Psychiatry*, 174(11), 1051–1053. <https://doi.org/10.1176/appi.ajp.2017.17010059>
- Kato, T. A., & Kanba, S. (2018). Is a Socio-Cultural Analysis of Depressive Disorders a Matter of Concern? Response to Kaiya [Review of *Is a Socio-Cultural Analysis of Depressive Disorders a Matter of Concern? Response to Kaiya*]. *The American Journal of Psychiatry*, 175(5), 483–484. <https://doi.org/10.1176/appi.ajp.2018.17121404r>
- Kato, T. A., Kanba, S., & Teo, A. R. (2018). Hikikomori: experience in Japan and international relevance. *World Psychiatry: Official Journal of the World Psychiatric Association*, 17(1), 105–106. <https://doi.org/10.1002/wps.20497>
- Kato, T. A., Kanba, S., & Teo, A. R. (2019). Hikikomori : Multidimensional understanding, assessment, and future international perspectives. *Psychiatry and Clinical Neurosciences*, 73(8), 427–440. <https://doi.org/10.1111/pcn.12895>
- Kato, T. A., Kanba, S., & Teo, A. R. (2020). Defining pathological social withdrawal: proposed diagnostic criteria for hikikomori. En *World Psychiatry* (Vol. 19, Número 1, pp. 116-117). Blackwell Publishing Ltd. <https://doi.org/10.1002/wps.20705>
- Kato, T. A., Sartorius, N., & Shinfuku, N. (2020). Forced social isolation due to COVID-19 and consequent mental health problems: lessons from hikikomori. *Psychiatry and Clinical Neurosciences*. <https://doi.org/10.1111/pcn.13112>
- Kato, T. A., Shinfuku, N., Fujisawa, D., Tateno, M., Ishida, T., Akiyama, T., Sartorius, N., Teo, A. R., Choi, T. Y., Wand, A. P. F., Balhara, Y. P. S., Chang, J. P.-C., Chang, R. Y.-F., Shadloo, B., Ahmed, H. U., Lerthattasilp, T., Umene-Nakano, W., Horikawa, H., Matsumoto, R., ... Kanba, S. (2011). Introducing the concept of modern depression in Japan; an international case vignette survey. *Journal of Affective Disorders*, 135(1-3), 66–76. <https://doi.org/10.1016/j.jad.2011.06.030>
- Kato, T. A., Shinfuku, N., Sartorius, N., & Kanba, S. (2011). Are Japan’s hikikomori and depression in young people spreading abroad? *The Lancet*, 378(9796), 1070. [https://doi.org/10.1016/S0140-6736\(11\)61475-X](https://doi.org/10.1016/S0140-6736(11)61475-X)
- Kato, T. A., Shinfuku, N., Sartorius, N., & Kanba, S. (2017). Loneliness and Single-Person Households: Issues of Kodokushi and Hikikomori in Japan. In N. Okkels, C. B. Kristiansen, & P. Munk-Jørgensen (Eds.), *Mental Health and Illness in the City*. Springer Singapore.
- Kato, T. A., Shinfuku, N., & Tateno, M. (2020). Internet society, internet addiction, and pathological social withdrawal: the chicken and egg dilemma for internet addiction and hikikomori. *Current Opinion in Psychiatry*, 33(3), 264–270. <https://doi.org/10.1097/YCO.0000000000000601>
- Kato, T. A., Tateno, M., Shinfuku, N., Fujisawa, D., Teo, A. R., Sartorius, N., Akiyama, T., Ishida, T., Choi, T. Y., Balhara, Y. P. S., Matsumoto, R., Umene-Nakano, W., Fujimura, Y., Wand, A., Chang, J. P.-C., Chang, R. Y.-F., Shadloo, B., Ahmed, H. U., Lerthattasilp, T., & Kanba, S. (2012). Does the “hikikomori” syndrome of social withdrawal exist

- outside Japan? A preliminary international investigation. *Social Psychiatry and Psychiatric Epidemiology*, 47(7), 1061–1075.
<https://doi.org/10.1007/s00127-011-0411-7>
- Kato, T. A., Teo, A. R., Tateno, M., Watabe, M., Kubo, H., & Kanba, S. (2017). Can Pokémon GO rescue shut-ins (hikikomori) from their isolated world? *Psychiatry and Clinical Neurosciences*, 71(1), 75–76.
<https://doi.org/10.1111/pcn.12481>
- Kato, T. A., Watabe, M., Tsuboi, S., Ishikawa, K., Hashiya, K., Monji, A., Utsumi, H., & Kanba, S. (2012). Minocycline modulates human social decision-making: possible impact of microglia on personality-oriented social behaviors. *PLoS One*, 7(7), e40461. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0040461>
- Kawanishi, Y. (2004). Japanese youth: the other half of the crisis. *Asian Affairs*, 35, 22–32.
- Kirmayer, L. J. (1991). The place of culture in psychiatric nosology: Taijin kyofusho and DSM-III-R. *The Journal of Nervous and Mental Disease*, 179(1), 19–28. <https://doi.org/10.1097/00005053-199101000-00005>
- Kitchener, B. A., & Jorm, A. F. (2002). Mental health first aid training for the public: evaluation of effects on knowledge, attitudes and helping behavior. *BMC Psychiatry*, 2, 10. <https://doi.org/10.1186/1471-244x-2-10>
- Kitchener, B. A., & Jorm, A. F. (2006). Mental health first aid training: review of evaluation studies. *The Australian and New Zealand Journal of Psychiatry*, 40(1), 6–8. <https://doi.org/10.1080/j.1440-1614.2006.01735.x>
- Kiyota, A., Usami, M., & Oosumi, H. (2008). Chiiki renkei shisutemu ni yoru hikikomori shien to ekigakuteki kentou (Support and epidemiological analysis of social withdrawal using a system of regional partnerships). (Japanese). *Kokoro No Kenkou Kagaku Kenkyuu*, 95–101.
- Kobayashi, S., Yoshida, K., Noguchi, H., Tsuchiya, T., & Ito, J. (2003). “Shakaiteki hikikomori” wo kakaeru kazoku ni kan suru jittai chousa (Research for parents of children with “social withdrawal”). *Seishin Igaku. Clinical Psychiatry*, 45(7), 749–756.
- Kondo, N. (1997). Hiseishinbyousei hikikomori no genzai (The present conditions of non-psychotic psycho-social withdrawal cases). *Rinshou Seishin Igaku (Japanese Journal of Clinical Psychiatry)*, 26(9), 1159–1167.
- Kondo N., Iwazaki H., Kobayashi M., & Miyazawa H. (2007). [Psychiatric background of social withdrawal in adolescence]. *Seishin shinkeigaku zasshi = Psychiatria et neurologia Japonica*, 109(9), 834–843.
<https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/18064873>
- Kondo N., Sakai M., Ishikawa S.-I., Niimuras J., & Tanoue M. (2008). [Home visits for social withdrawal cases in community mental health and child welfare services]. *Seishin shinkeigaku zasshi = Psychiatria et neurologia Japonica*, 110(7), 536–545. <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/18833902>
- Kondo, N., Sakai, M., Kuroda, Y., Kiyota, Y., Kitabata, Y., & Kurosawa, M. (2013). General condition of hikikomori (prolonged social withdrawal) in Japan: psychiatric diagnosis and outcome in mental health welfare centres. *The International Journal of Social Psychiatry*, 59(1), 79–86. <https://doi.org/10.1177/0020764011423611>
- Koyama, A., Miyake, Y., Kawakami, N., Tsuchiya, M., Tachimori, H., Takeshima, T., & World Mental Health Japan Survey Group, 2002-2006. (2010). Lifetime prevalence, psychiatric comorbidity and demographic correlates of “hikikomori”

- in a community population in Japan. *Psychiatry Research*, 176(1), 69–74.
<https://doi.org/10.1016/j.psychres.2008.10.019>
- Krieg, A., & Dickie, J. R. (2013). Attachment and hikikomori: a psychosocial developmental model. *The International Journal of Social Psychiatry*, 59(1), 61–72. <https://doi.org/10.1177/0020764011423182>
- Krysinska, D. (2007). *Hikikomori (Social Withdrawal) in Japan: Discourses of Media and Scholars; Multicausal Explanations of the Phenomenon* [Thesis, University of Pittsburgh]. <http://d-scholarship.pitt.edu/9520/>
- Kubo, H., Urata, H., Sakai, M., Nonaka, S., Saito, K., Tateno, M., Kobara, K., Hashimoto, N., Fujisawa, D., Suzuki, Y., Otsuka, K., Kamimae, H., Muto, Y., Usami, T., Honda, Y., Kishimoto, J., Kuroki, T., Kanba, S., & Kato, T. A. (2020). Development of 5-day hikikomori intervention program for family members: A single-arm pilot trial. *Heliyon*, 6(1), e03011. <https://doi.org/10.1016/j.heliyon.2019.e03011>
- Kumazaki, H., Warren, Z., Swanson, A., Yoshikawa, Y., Matsumoto, Y., Takahashi, H., Sarkar, N., Ishiguro, H., Mimura, M., Minabe, Y., & Kikuchi, M. (2018). Can Robotic Systems Promote Self-Disclosure in Adolescents with Autism Spectrum Disorder? A Pilot Study. *Frontiers in Psychiatry / Frontiers Research Foundation*, 9, 36. <https://doi.org/10.3389/fpsy.2018.00036>
- Kumazaki, H., Yoshikawa, Y., Yoshimura, Y., Ikeda, T., Hasegawa, C., Saito, D. N., Tomiyama, S., An, K.-M., Shimaya, J., Ishiguro, H., Matsumoto, Y., Minabe, Y., & Kikuchi, M. (2018). The impact of robotic intervention on joint attention in children with autism spectrum disorders. *Molecular Autism*, 9, 46. <https://doi.org/10.1186/s13229-018-0230-8>
- Kuramoto, H. (2003). Hikikomori no yogo (Prognosis of social withdrawal). *Seishin Igaku. Clinical Psychiatry*, 45(3), 241–245.

L

- Lauder, W., Sharkey, S., & Mummery, K. (2004). A community survey of loneliness. *Journal of Advanced Nursing*, 46(1), 88–94. <https://doi.org/10.1111/j.1365-2648.2003.02968.x>
- Lee, Y. S., Lee, J. Y., Choi, T. Y., & Choi, J. T. (2013). Home visitation program for detecting, evaluating and treating socially withdrawn youth in Korea. *Psychiatry and Clinical Neurosciences*, 67(4), 193–202. <https://doi.org/10.1111/pcn.12043>
- Leigh-Hunt, N., Bagguley, D., Bash, K., Turner, V., Turnbull, S., Valtorta, N., & Caan, W. (2017). An overview of systematic reviews on the public health consequences of social isolation and loneliness. *Public Health*, 152, 157–171. <https://doi.org/10.1016/j.puhe.2017.07.035>
- Lewis, G. (1996). DSM-IV. Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders, 4th edn. By the American Psychiatric Association. (Pp. 886; £34.95.) APA: Washington, DC.1994. *Psychological Medicine*, 26(3), 651–652. <https://doi.org/10.1017/S0033291700035765>
- Lieberman, D. Z. (2000). Children of alcoholics: an update. *Current Opinion in Pediatrics*, 12(4), 336–340. <https://doi.org/10.1097/00008480-200008000-00009>

- Li, M., D'Arcy, C., & Meng, X. (2016). Maltreatment in childhood substantially increases the risk of adult depression and anxiety in prospective cohort studies: systematic review, meta-analysis, and proportional attributable fractions. *Psychological Medicine*, *46*(4), 717–730. <https://doi.org/10.1017/S0033291715002743>
- Li, T. M. H., & Wong, P. W. C. (2015a). Youth social withdrawal behavior (hikikomori): A systematic review of qualitative and quantitative studies. *The Australian and New Zealand Journal of Psychiatry*, *49*(7), 595–609. <https://doi.org/10.1177/0004867415581179>
- Li, T. M. H., & Wong, P. W. C. (2015b). Editorial Perspective: Pathological social withdrawal during in adolescence: a culture-specific or a global phenomenon? *Journal of Child Psychology and Psychiatry, and Allied Disciplines*, *56*(10), 1039–1041. <https://doi.org/10.1111/jcpp.12440>
- Liu, L. L., Li, T. M., Teo, A. R., Kato, T. A., & Wong, P. W. (2018). Harnessing Social Media to Explore Youth Social Withdrawal in Three Major Cities in China: Cross-Sectional Web Survey. *JMIR Mental Health*, *5*(2), e34. <https://doi.org/10.2196/mental.8509>

M

- Malagón, A., Alvaro, P., Córcoles, D., Martín-López, L. M., & Bulbena, A. (2010). “Hikikomori”: a new diagnosis or a syndrome associated with a psychiatric diagnosis? *The International Journal of Social Psychiatry*, *56*(5), 558–559. <https://doi.org/10.1177/0020764009376612>
- Malagón-Amor, Á., Córcoles-Martínez, D., Martín-López, L. M., & Pérez-Solà, V. (2015). Hikikomori in Spain: A descriptive study. *The International Journal of Social Psychiatry*, *61*(5), 475–483. <https://doi.org/10.1177/0020764014553003>
- Malagón-Amor, Á., Martín-López, L. M., Córcoles, D., González, A., Bellsolà, M., Teo, A. R., Bulbena, A., Pérez, V., & Bergé, D. (2020). Family Features of Social Withdrawal Syndrome (Hikikomori). *Frontiers in Psychiatry*, *11*, 138. <https://doi.org/10.3389/fpsy.2020.00138>
- Malagón-Amor, Á., Martín-López, L. M., Córcoles, D., González, A., Bellsolà, M., Teo, A. R., Pérez, V., Bulbena, A., & Bergé, D. (2018). A 12-month study of the hikikomori syndrome of social withdrawal: Clinical characterization and different subtypes proposal. *Psychiatry Research*, *270*(December 2018), 1039–1046. <https://doi.org/10.1016/j.psychres.2018.03.060>
- Malcolm, M., Frost, H., & Cowie, J. (2019). Loneliness and social isolation causal association with health-related lifestyle risk in older adults: a systematic review and meta-analysis protocol. *Systematic Reviews*, *8*(1), 48. <https://doi.org/10.1186/s13643-019-0968-x>
- Mann, J. J., Apter, A., Bertolote, J., Beautrais, A., Currier, D., Haas, A., Hegerl, U., Lonnqvist, J., Malone, K., Marusic, A., Mehlum, L., Patton, G., Phillips, M., Rutz, W., Rihmer, Z., Schmidtke, A., Shaffer, D., Silverman, M., Takahashi, Y., ... Hendin, H. (2005). Suicide prevention strategies: a systematic review. *JAMA: The Journal of the American Medical Association*, *294*(16), 2064–2074. <https://doi.org/10.1001/jama.294.16.2064>

- Martin, C., Cabrol, S., Bouvard, M. P., Lepine, J. P., & Mouren-Siméoni, M. C. (1999). Anxiety and depressive disorders in fathers and mothers of anxious school-refusing children. *Journal of the American Academy of Child and Adolescent Psychiatry*, 38(7), 916–922. <https://doi.org/10.1097/00004583-199907000-00023>
- Meyers, R. J., Miller, W. R., Hill, D. E., & Tonigan, J. S. (1998). Community reinforcement and family training (CRAFT): engaging unmotivated drug users in treatment. *Journal of Substance Abuse*, 10(3), 291–308. [https://doi.org/10.1016/s0899-3289\(99\)00003-6](https://doi.org/10.1016/s0899-3289(99)00003-6)
- Meyers, R. J., Miller, W. R., Smith, J. E., & Tonigan, J. S. (2002). A randomized trial of two methods for engaging treatment-refusing drug users through concerned significant others. *Journal of Consulting and Clinical Psychology*, 70(5), 1182–1185. <https://doi.org/10.1037/0022-006X.70.5.1182>
- Mgutshini, T. (2010). Risk factors for psychiatric re-hospitalization: an exploration. *International Journal of Mental Health Nursing*, 19(4), 257–267. <https://doi.org/10.1111/j.1447-0349.2009.00664.x>
- Ministry of Health, L. A. W. (2003). *Shakaiteki Hikikomori Wo Meguru Tūiki Seisin Hoken Katudou No Guide-line (Guideline on Mental Health Activities in Communities for Social Withdrawal)*".
- Morese, R., Palermo, S., Torello, C., & Sechi, F. (2020). Social Withdrawal and Mental Health: An Interdisciplinary Approach. In R. Morese, S. Palermo, & R. Fiorella (Eds.), *Social Isolation - An Interdisciplinary View*. IntechOpen. <https://doi.org/10.5772/intechopen.90735>
- Murakami, R. (2000). *Kyouseichuu (Parasites)* (Kondansha (ed.)).

N

- Nagata, T., Yamada, H., Teo, A. R., Yoshimura, C., Nakajima, T., & van Vliet, I. (2013). Comorbid social withdrawal (hikikomori) in outpatients with social anxiety disorder: clinical characteristics and treatment response in a case series. *The International Journal of Social Psychiatry*, 59(1), 73–78. <https://doi.org/10.1177/0020764011423184>
- Nakagami, Y., Ii, T., Russ, T. C., Marques, J. G., Riese, F., Sönmez, E., Hopwood, M., & Akiyama, T. (2017). Taijin kyofusho: A culture-bound diagnosis discussed by Japanese and international early career psychiatrists. *Psychiatry and Clinical Neuroscience*, 71(2), 146. <https://doi.org/10.1111/pcn.12482>
- Nakamura, K., & Shioji, R. (1997). Taijin kyofusho to hikikomori (Taijin-kyofusho and withdrawal). *Rinsho Seishin Igaku (Clinical Psychiatry)*, 26(9), 1169–1176.
- Nicholson, N. R., Jr. (2009). Social isolation in older adults: an evolutionary concept analysis. *Journal of Advanced Nursing*, 65(6), 1342–1352. <https://doi.org/10.1111/j.1365-2648.2008.04959.x>
- Niya, Y., Ellsworth, P. C., & Yamaguchi, S. (2006). Amae in Japan and the United States: An exploration of a “culturally unique” emotion. *Emotion*, 6(2), 279. <https://psycnet.apa.org/record/2006-07383-011>
- Nishida, M., Kikuchi, S., Fukuda, K., & Kato, S. (2016). Jogging Therapy for Hikikomori Social Withdrawal and Increased Cerebral Hemodynamics: A Case Report. *Clinical Practice and Epidemiology in Mental Health: CP & EMH*, 12, 38–42. <https://doi.org/10.2174/1745017901612010038>

Nonaka, S., Shimada, H., & Sakai, M. (2019). Family Behavioral Repertoires and Family Interaction Influence the Adaptive Behaviors of Individuals With Hikikomori. *Frontiers in Psychiatry / Frontiers Research Foundation*, *10*, 977. <https://doi.org/10.3389/fpsyt.2019.00977>

O

Ogino, T. (2004). Managing Categorization and Social Withdrawal in Japan: Rehabilitation Process in a Private Support Group for Hikikomori. *International Journal of Japanese Sociology*, *13*(1), 120–133. <https://doi.org/10.1111/j.1475-6781.2004.00057.x>

Ovejero, S., Caro-Cañizares, I., de León-Martínez, V., & Baca-García, E. (2014). Prolonged social withdrawal disorder: a hikikomori case in Spain. *The International Journal of Social Psychiatry*, *60*(6), 562–565. <https://doi.org/10.1177/0020764013504560>

P

Palmier-Claus, J. E., Berry, K., Bucci, S., Mansell, W., & Varese, F. (2016). Relationship between childhood adversity and bipolar affective disorder: systematic review and meta-analysis. *The British Journal of Psychiatry: The Journal of Mental Science*, *209*(6), 454–459. <https://doi.org/10.1192/bjp.bp.115.179655>

Palumbo, C., Volpe, U., Matanov, A., Priebe, S., & Giacco, D. (2015). Social networks of patients with psychosis: a systematic review. *BMC Research Notes*, *8*, 560. <https://doi.org/10.1186/s13104-015-1528-7>

Pantell, M., Rehkopf, D., Jutte, D., Syme, S. L., Balmes, J., & Adler, N. (2013). Social isolation: a predictor of mortality comparable to traditional clinical risk factors. *American Journal of Public Health*, *103*(11), 2056–2062. <https://doi.org/10.2105/AJPH.2013.301261>

Pelletier-Baldelli, A., Ives, L., & Mittal, V. A. (2015). Increased internet use and poorer ability to manage emotions in youth at high-risk for psychosis. *Schizophrenia Research. Cognition*, *2*(4), 220–226. <https://doi.org/10.1016/j.scog.2015.08.002>

Pies, R. (2009). Should DSM-V Designate “Internet Addiction” a Mental Disorder? *Psychiatry*, *6*(2), 31–37. <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/19724746>

Pozza, A., Coluccia, A., Kato, T., Gaetani, M., & Ferretti, F. (2019). The “Hikikomori” syndrome: worldwide prevalence and co-occurring major psychiatric disorders: a systematic review and meta-analysis protocol. *BMJ Open*, *9*(9), e025213. <https://doi.org/10.1136/bmjopen-2018-025213>

Pressman, S. D., Cohen, S., Miller, G. E., Barkin, A., Rabin, B. S., & Treanor, J. J. (2005). Loneliness, social network size, and immune response to influenza vaccination in college freshmen. *Health Psychology: Official Journal of the Division of Health Psychology, American Psychological Association*, *24*(3), 297–306. <https://doi.org/10.1037/0278-6133.24.3.297>

R

- Ranieri, F. (2018). Psychoanalytic Psychotherapy for Hikikomori Young Adults and Adolescents. *British Journal of Psychotherapy*, 34(4), 623–642. <https://doi.org/10.1111/bjp.12398>
- Rubin, G. J., & Wessely, S. (2020). The psychological effects of quarantining a city. *BMJ*, 368, m313. <https://doi.org/10.1136/bmj.m313>

S

- Saito, K. (2010a). Hikikomori no hyouka-shien Ni kansuru gaido-rain [guideline of hikikomori for their evaluations and supports]. *Ministry of Health, Labour and Welfare* (http://www.Ncgmkobmodai.Go.jp/pdf/jidouseishin/22ncgm_bikikomori.Pdf), Tokyo.
- Saito, K. (2010b). *Shishunki No Hikikomori Wo Motarasu Seishinkashikikan No Jittaihaaku to Seishin-Igakuteki Chiryu/Enjo Shitemu No Kouchiku Ni Kansuru Kenkyu* [Research on Actual Conditions of Psychiatric Disorder in Adolescent Hikikomori and on Establishment of Psychiatric Treatment/supporting System]. Ministry of Health, Labour and Welfare Japan. <http://mhlw-grants.niph.go.jp/niph/search/NIDD00.do?resrchNum/4200935010A>.
- Saito, T. (1998). *Shakaiteki Hikikomori: Owaranai Shishunki* [Social withdrawal: a never ending adolescence]. PHP Kenkyujo.
- Sakamoto, N., Martin, R. G., Kumano, H., Kuboki, T., & Al-Adawi, S. (2005). Hikikomori, is it a culture-reactive or culture-bound syndrome? Nidotherapy and a clinical vignette from Oman. *International Journal of Psychiatry in Medicine*, 35(2), 191–198. <https://doi.org/10.2190/7WEQ-216D-TVNH-PQJ1>
- Seeman, T. E. (2000). Health promoting effects of friends and family on health outcomes in older adults. *American Journal of Health Promotion: AJHP*, 14(6), 362–370. <https://doi.org/10.4278/0890-1171-14.6.362>
- Shankar, A., Hamer, M., McMunn, A., & Steptoe, A. (2013). Social isolation and loneliness: relationships with cognitive function during 4 years of follow-up in the English Longitudinal Study of Ageing. *Psychosomatic Medicine*, 75(2), 161–170. <https://doi.org/10.1097/PSY.0b013e31827f09cd>
- Sher L. (2020). The impact of the COVID-19 pandemic on suicide rates. *QJM: monthly journal of the Association of Physicians*, hcaa202. Advance online publication. <https://doi.org/10.1093/qjmed/hcaa202>
- Siegenthaler, E., Munder, T., & Egger, M. (2012). Effect of preventive interventions in mentally ill parents on the mental health of the offspring: systematic review and meta-analysis. *Journal of the American Academy of Child and Adolescent Psychiatry*, 51(1), 8–17.e8. <https://doi.org/10.1016/j.jaac.2011.10.018>
- Silić, A., Vukojević, J., Čulo, I., & Falak, H. (2019). Hikikomori silent epidemic: a case study. *Research in Psychotherapy: Psychopathology, Process and Outcome*, 22(2), 317–322. <https://doi.org/10.4081/ripppo.2019.377>
- Solis, J. M., Shadur, J. M., Burns, A. R., & Hussong, A. M. (2012). Understanding the diverse needs of children whose parents abuse substances. *Current Drug Abuse Reviews*, 5(2), 135–147. <https://doi.org/10.2174/1874473711205020135>

- Stephoe, A., Shankar, A., Demakakos, P., & Wardle, J. (2013). Social isolation, loneliness, and all-cause mortality in older men and women. *Proceedings of the National Academy of Sciences of the United States of America*, *110*(15), 5797–5801. <https://doi.org/10.1073/pnas.1219686110>
- Stip, E., Thibault, A., Beauchamp-Chatel, A., & Kisely, S. (2016). Internet Addiction, Hikikomori Syndrome, and the Prodromal Phase of Psychosis. *Frontiers in Psychiatry / Frontiers Research Foundation*, *7*, 6. <https://doi.org/10.3389/fpsyt.2016.00006>
- Suwa, M., & Hara, K. (2003). Hikikomori among Young Adults in Japan : The importance of differential diagnosis between primary Hikikomori and Hikikomori with High-functioning Pervasive Developmental Disorders. *Medical and Welfare Research*. <http://aska-r.aasa.ac.jp/dspace/bitstream/10638/956/1/0026-003-200703-094-101.pdf>
- Suwa, M., & Suzuki, K. (2013). The phenomenon of “hikikomori” (social withdrawal) and the socio-cultural situation in Japan today. *Journal of Psychopathology and Behavioral Assessment*, *19*, 191–198. <http://www.jpsychopathol.it/issues/2013/vol19-3/01b-Suwa.pdf>
- Suwa, M., Suzuki, K., Hara, K., Watanabe, H., & Takahashi, T. (2003). Family features in primary social withdrawal among young adults. *Psychiatry and Clinical Neurosciences*, *57*(6), 586–594. <https://doi.org/10.1046/j.1440-1819.2003.01172.x>

T

- Takahata, T. (2003). Saitama-ken ni okeru “hikikomori” no jittai (A survey of withdrawal syndrome in Saitama Prefecture). *Seishin Igaku. Clinical Psychiatry*, *45*(3), 299–302.
- Tamura, T., Yonemitsu, S., Itoh, A., Oikawa, D., Kawakami, A., Higashi, Y., Fujimooto, T., & Nakajima, K. (2004). Is an entertainment robot useful in the care of elderly people with severe dementia? *The Journals of Gerontology. Series A, Biological Sciences and Medical Sciences*, *59*(1), 83–85. <https://doi.org/10.1093/gerona/59.1.m83>
- Tan, M. P. J., Lee, W., & Kato, T. A. (2020). International experience of hikikomori (prolonged social withdrawal) and its relevance to psychiatric research. *BJPsych International*, 1-3. <https://doi.org/10.1192/bji.2020.20>
- Tateno, M., Park, T. W., Kato, T. A., Umene-Nakano, W., & Saito, T. (2012). Hikikomori as a possible clinical term in psychiatry: a questionnaire survey. *BMC Psychiatry*, *12*, 169. <https://doi.org/10.1186/1471-244X-12-169>
- Tateno, M., Skokauskas, N., Kato, T. A., Teo, A. R., & Guerrero, A. P. S. (2016). New game software (Pokémon Go) may help youth with severe social withdrawal, hikikomori. *Psychiatry Research*, *246*, 848–849. <https://doi.org/10.1016/j.psychres.2016.10.038>
- Tateno, M., Teo, A. R., Shiraishi, M., Tayama, M., Kawanishi, C., & Kato, T. A. (2018). Prevalence rate of Internet addiction among Japanese college students: Two cross-sectional studies and reconsideration of cut-off points of Young’s Internet Addiction Test in Japan. *Psychiatry and Clinical Neurosciences*, *72*(9), 723–730. <https://doi.org/10.1111/pcn.12686>

- Tateno, M., Teo, A. R., Shirasaka, T., Tayama, M., Watabe, M., & Kato, T. A. (2016). Internet addiction and self-evaluated attention-deficit hyperactivity disorder traits among Japanese college students. *Psychiatry and Clinical Neurosciences*, 70(12), 567–572. <https://doi.org/10.1111/pcn.12454>
- Tateno, M., Teo, A. R., Ukai, W., Kanazawa, J., Katsuki, R., Kubo, H., & Kato, T. A. (2019). Internet Addiction, Smartphone Addiction, and Hikikomori Trait in Japanese Young Adult: Social Isolation and Social Network. *Frontiers in Psychiatry / Frontiers Research Foundation*, 10, 455. <https://doi.org/10.3389/fpsy.2019.00455>
- Teo, A. R. (2010). A new form of social withdrawal in Japan: a review of hikikomori. *The International Journal of Social Psychiatry*, 56(2), 178–185. <https://doi.org/10.1177/0020764008100629>
- Teo, A. R. (2013). Social isolation associated with depression: a case report of hikikomori. *The International Journal of Social Psychiatry*, 59(4), 339–341. <https://doi.org/10.1177/0020764012437128>
- Teo, A. R., Chen, J. I., Kubo, H., Katsuki, R., Sato-Kasai, M., Shimokawa, N., Hayakawa, K., Umene-Nakano, W., Aikens, J. E., Kanba, S., & Kato, T. A. (2018). Development and validation of the 25-item Hikikomori Questionnaire (HQ-25). *Psychiatry and Clinical Neurosciences*, 72(10), 780–788. <https://doi.org/10.1111/pcn.12691>
- Teo, A. R., Choi, H., & Valenstein, M. (2013). Social relationships and depression: ten-year follow-up from a nationally representative study. *PLoS One*, 8(4), e62396. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0062396>
- Teo, A. R., Fetters, M. D., Stufflebam, K., Tateno, M., Balhara, Y., Choi, T. Y., Kanba, S., Mathews, C. A., & Kato, T. A. (2015). Identification of the hikikomori syndrome of social withdrawal: Psychosocial features and treatment preferences in four countries. *The International Journal of Social Psychiatry*, 61(1), 64–72. <https://doi.org/10.1177/0020764014535758>
- Teo, A. R., & Gaw, A. C. (2010). Hikikomori, a Japanese culture-bound syndrome of social withdrawal?: A proposal for DSM-5. *The Journal of Nervous and Mental Disease*, 198(6), 444–449. <https://doi.org/10.1097/NMD.0b013e3181e086b1>
- Teo, A. R., Lerrigo, R., & Rogers, M. A. M. (2013). The role of social isolation in social anxiety disorder: a systematic review and meta-analysis. *Journal of Anxiety Disorders*, 27(4), 353–364. <https://doi.org/10.1016/j.janxdis.2013.03.010>
- Teo, A. R., Stufflebam, K., Saha, S., Fetters, M. D., Tateno, M., Kanba, S., & Kato, T. A. (2015). Psychopathology associated with social withdrawal: Idiopathic and comorbid presentations. *Psychiatry Research*, 228(1), 182–183. <https://doi.org/10.1016/j.psychres.2015.04.033>
- Todd, K. H. L. (2011). Hikikomani: Existential horror or national malaise. *Southeast Review of Asian Studies*, 33, 135–147. http://www.uky.edu/Centers/Asia/SECAAS/Seras/2011/12_Hikikomani.pdf
- Toivonen, T., Norasakkunkit, V., & Uchida, Y. (2011). Unable to conform, unwilling to rebel? Youth, culture, and motivation in globalizing Japan. *Frontiers in Psychology*, 2, 207. <https://doi.org/10.3389/fpsyg.2011.00207>
- Tsuda H. (2012). [On the edge of the public space--an existentialistic contribution to the understanding and treatment of people with hikikomori]. *Seishin shinkeigaku zasshi = Psychiatria et neurologia Japonica*, 114(10), 1158–1166. <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/23234195>

U

- Uchida, C. (2010). Apathetic and withdrawing students in Japanese universities—with regard to Hikikomori and student apathy. *Journal of Medical and Dental Sciences*, *57*(1), 95–108. <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/20437770>
- Uchida, Y., & Norasakkunkit, V. (2015). The NEET and Hikikomori spectrum: Assessing the risks and consequences of becoming culturally marginalized. *Frontiers in Psychology*, *6*, 1117. <https://doi.org/10.3389/fpsyg.2015.01117>
- Uchino, B. N., Cacioppo, J. T., & Kiecolt-Glaser, J. K. (1996). The relationship between social support and physiological processes: a review with emphasis on underlying mechanisms and implications for health. *Psychological Bulletin*, *119*(3), 488–531. <https://doi.org/10.1037/0033-2909.119.3.488>
- Umberson, D., & Montez, J. K. (2010). Social relationships and health: a flashpoint for health policy. *Journal of Health and Social Behavior*, *51 Suppl*, S54–S66. <https://doi.org/10.1177/0022146510383501>
- Umeda, M., Kawakami, N., & World Mental Health Japan Survey Group 2002-2006. (2012). Association of childhood family environments with the risk of social withdrawal ('hikikomori') in the community population in Japan. *Psychiatry and Clinical Neurosciences*, *66*(2), 121–129. <https://doi.org/10.1111/j.1440-1819.2011.02292.x>
- Usher, A. M., McShane, K. E., & Dwyer, C. (2015). A realist review of family-based interventions for children of substance abusing parents. *Systematic Reviews*, *4*, 177. <https://doi.org/10.1186/s13643-015-0158-4>
- Ushijima, S., & Sato, J. (1997). Hiseishinbyousei no hikikomori no seishin ryokudou (Psychodynamics of nonpsychotic withdrawal conditions). *Rinshou Seishin Igaku (Japanese Journal of Clinical Psychiatry)*, *26*(9), 1151–1156.

V

- Valtorta, N. K., Kanaan, M., Gilbody, S., Ronzi, S., & Hanratty, B. (2016). Loneliness and social isolation as risk factors for coronary heart disease and stroke: systematic review and meta-analysis of longitudinal observational studies. *Heart*, *102*(13), 1009–1016. <https://doi.org/10.1136/heartjnl-2015-308790>
- van den Brink, R. H. S., Schutter, N., Hanssen, D. J. C., Elzinga, B. M., Rabeling-Keus, I. M., Stek, M. L., Comijs, H. C., Penninx, B. W. J. H., & Oude Voshaar, R. C. (2018). Prognostic significance of social network, social support and loneliness for course of major depressive disorder in adulthood and old age. *Epidemiology and Psychiatric Sciences*, *27*(3), 266–277. <https://doi.org/10.1017/S2045796017000014>

W

- Wang, J., Lloyd-Evans, B., Giacco, D., Forsyth, R., Nebo, C., Mann, F., & Johnson, S. (2017). Social isolation in mental health: a conceptual and methodological review. *Social Psychiatry and Psychiatric Epidemiology*, *52*(12), 1451–1461. <https://doi.org/10.1007/s00127-017-1446-1>

- Wang, J., Mann, F., Lloyd-Evans, B., Ma, R., & Johnson, S. (2018). Associations between loneliness and perceived social support and outcomes of mental health problems: a systematic review. *BMC Psychiatry*, *18*(1), 156. <https://doi.org/10.1186/s12888-018-1736-5>
- Watabe, M., Kato, T. A., Monji, A., Horikawa, H., & Kanba, S. (2012). Does minocycline, an antibiotic with inhibitory effects on microglial activation, sharpen a sense of trust in social interaction? *Psychopharmacology*, *220*(3), 551–557. <https://doi.org/10.1007/s00213-011-2509-8>
- Watabe, M., Kato, T. A., Teo, A. R., Horikawa, H., Tateno, M., Hayakawa, K., Shimokawa, N., & Kanba, S. (2015). Relationship between trusting behaviors and psychometrics associated with social network and depression among young generation: a pilot study. *PLoS One*, *10*(3), e0120183. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0120183>
- Watabe, M., Kato, T. A., Tsuboi, S., Ishikawa, K., Hashiya, K., Monji, A., Utsumi, H., & Kanba, S. (2013). Minocycline, a microglial inhibitor, reduces “honey trap” risk in human economic exchange. *Scientific Reports*, *3*, 1685. <https://doi.org/10.1038/srep01685>
- Watts, J. (2002). Public health experts concerned about “hikikomori.” *The Lancet*, *359*(9312), 1131. [https://doi.org/10.1016/s0140-6736\(02\)08186-2](https://doi.org/10.1016/s0140-6736(02)08186-2)
- Wheeler, C., Lloyd-Evans, B., Churchard, A., Fitzgerald, C., Fullarton, K., Mosse, L., Paterson, B., Zugaro, C. G., & Johnson, S. (2015). Implementation of the Crisis Resolution Team model in adult mental health settings: a systematic review. *BMC Psychiatry*, *15*, 74. <https://doi.org/10.1186/s12888-015-0441-x>
- White, R., Bebbington, P., Pearson, J., Johnson, S., & Ellis, D. (2000). The social context of insight in schizophrenia. *Social Psychiatry and Psychiatric Epidemiology*, *35*(11), 500–507. <https://doi.org/10.1007/s001270050271>
- Whitfield, W. (1993). Book Reviews : The ICD-10 Classification of Mental and Behavioural Disorders: Clinical Descriptions & Diagnostic Guidelines by World Health Organisation. Published by WHO, 1992. 362pp, SwFr 50, paperback. ISBN: 92-4-154422-8. *The Journal of the Royal Society for the Promotion of Health*, *113*(1), 49–49. <https://doi.org/10.1177/146642409311300118>
- Wilson, C. A., & Koenig, J. I. (2014). Social interaction and social withdrawal in rodents as readouts for investigating the negative symptoms of schizophrenia. *European Neuropsychopharmacology: The Journal of the European College of Neuropsychopharmacology*, *24*(5), 759–773. <https://doi.org/10.1016/j.euroneuro.2013.11.008>
- Wong, J. C., Wan, M. J., Kroneman, L. M., Kato, T. A., Lo, W. T., Wong, P. W., & Gloria, C. H. (2019). Hikikomori phenomenon in East Asia: Regional perspectives, challenges and opportunities for social health agencies. *Frontiers in Psychiatry*, *10*(JUN), 512. <https://doi.org/10.3389/fpsy.2019.00512>
- Wong, P. W. C., Li, T. M. H., Chan, M., Law, Y. W., Chau, M., Cheng, C., Fu, K. W., Bacon-Shone, J., & Yip, P. S. F. (2015). The prevalence and correlates of severe social withdrawal (hikikomori) in Hong Kong: A cross-sectional telephone-based survey study. *The International Journal of Social Psychiatry*, *61*(4), 330–342. <https://doi.org/10.1177/0020764014543711>

- Wong, P. W. C., Liu, L. L., Li, T. M. H., Kato, T. A., & Teo, A. R. (2017). Does hikikomori (severe social withdrawal) exist among young people in urban areas of China? *Asian Journal of Psychiatry*, *30*, 175–176. <https://doi.org/10.1016/j.ajp.2017.10.026>
- Wong, P. W. C., Yu, R. W. M., Li, T. M. H., Lai, S. L. H., & Fan, W. T. W. (2017). Efficacy of a Multicomponent Intervention with Animal-Assisted Therapy for Socially Withdrawn Youth in Hong Kong. *Society and Animals*. <https://doi.org/10.1163/15685306-12341462>
- Wong, P. W. C., Yu, R. W. M., Li, T. M. H., Lai, S. L. H., Ng, H. Y. H., & Fan, W. T. W. (2019). Efficacy of a Multicomponent Intervention with Animal-Assisted Therapy for Socially Withdrawn Youth in Hong Kong. *Society & Animals: Social Scientific Studies of the Human Experience of Other Animals*, *27*(5-6), 614–627. <https://doi.org/10.1163/15685306-12341462>
- Wong, V. (2009). Youth locked in time and space? Defining features of social withdrawal and practice implications. *Journal of Social Work Practice in the Addictions*, *23*(3), 337–352. <https://doi.org/10.1080/02650530903102692>
- Wong, V. (2012). Social withdrawal as invisible youth disengagement: Government inaction and NGO responses in Hong Kong. *The International Journal of Sociology and Social Policy*, *32*(7/8), 415–430. <https://doi.org/10.1108/01443331211249057>
- Wu, A. F. W., Ooi, J., Wong, P. W. C., Catmur, C., & Lau, J. Y. F. (2019). Evidence of pathological social withdrawal in non-Asian countries: a global health problem? *The Lancet. Psychiatry*, *6*(3), 195–196. [https://doi.org/10.1016/S2215-0366\(18\)30428-0](https://doi.org/10.1016/S2215-0366(18)30428-0)

X

- Xiang, Y.-T., Yang, Y., Li, W., Zhang, L., Zhang, Q., Cheung, T., & Ng, C. H. (2020). Timely mental health care for the 2019 novel coronavirus outbreak is urgently needed. *The Lancet. Psychiatry*, *7*(3), 228–229. [https://doi.org/10.1016/S2215-0366\(20\)30046-8](https://doi.org/10.1016/S2215-0366(20)30046-8)

Y

- Yamamoto, K. (2005). The background and types of social withdrawal. *Bull. Faculty of Health and Welfare Osaka Univ. of Health and Sport Sciences*, *2*, 23–37.
- Yang, Y. C., McClintock, M. K., Kozloski, M., & Li, T. (2013). Social isolation and adult mortality: the role of chronic inflammation and sex differences. *Journal of Health and Social Behavior*, *54*(2), 183–203. <https://doi.org/10.1177/0022146513485244>
- Yao, H., Chen, J.-H., & Xu, Y.-F. (2020). Patients with mental health disorders in the COVID-19 epidemic. *The Lancet. Psychiatry*, *7*(4), e21. [https://doi.org/10.1016/S2215-0366\(20\)30090-0](https://doi.org/10.1016/S2215-0366(20)30090-0)

Yong, R., & Nomura, K. (2019). Hikikomori Is Most Associated With Interpersonal Relationships, Followed by Suicide Risks: A Secondary Analysis of a National Cross-Sectional Study. *Frontiers in Psychiatry / Frontiers Research Foundation*, 10, 247. <https://doi.org/10.3389/fpsyt.2019.00247>

Z

Zavaleta, D., Samuel, K., & Mills, C. (2014). *Social isolation : a conceptual and measurement proposal*. Oxford Poverty & Human Development Initiative (OPHI). <https://ora.ox.ac.uk/objects/uuid:71379222-a0da-4e1a-aec6-248d437e0914>

Zielenziger, M. (2006). Shutting out the sun: How Japan created its own lost generation. . Random House LLC.

10 ANEXO

ANEXO

Artículo: Hikikomori: A new diagnosis or a syndrome associated with a psychiatric diagnosis?

Malagón, A., Alvaro, P., Córcoles, D., Martín-López, L. M., & Bulbena, A. (2010). “Hikikomori”: a new diagnosis or a syndrome associated with a psychiatric diagnosis? *The International Journal of Social Psychiatry*, 56(5), 558–559.

<https://doi.org/10.1177/0020764009376612>

Esta carta al editor supone el inicio de todo el proyecto de investigación realizado.

En ella, se describe un caso clínico de aislamiento social de más de 25 años de evolución, en el que se observó una comorbilidad con trastorno obsesivo compulsivo grave. Se inició un tratamiento domiciliario, pero ante el empeoramiento y aparición de riesgo autolítico elevado, se procedió a hospitalización, con una mejoría clínica significativa.

A su vez, en este artículo se plantea la duda inicial, que originó el objetivo e hipótesis de la investigación sobre si el aislamiento social constituye una nueva entidad diagnóstica o un síndrome asociado a otros diagnósticos, así como la importancia de la detección y tratamiento precoz de estos casos.

* NOTA. Según normativa y debido a que la publicación no se encuentra disponible en Open Access, se adjunta la última versión previa a la concesión de los derechos de autor a la revista *International Journal of Social Psychiatry*. Reproducido con permiso de SAGE Publications.

<https://doi.org/10.1177/0020764009376612>

‘*Hikikomori*’: a new diagnosis or a syndrome associated with a psychiatric diagnosis?

Angeles Malagón¹, Patricia Alvaro¹, David Córcoles¹, Luis M. Martín-López¹ And A. Bulbena¹

¹ Institute Neuropsychiatric and Addictions (INAD), Hospital del Mar, Barcelona

Dear Editor

In the March issue Dr. Alan R. Teo (2010) reviewed the syndrome of ‘*hikikomori*’ described in Japan. The interest of the paper is provided by the impact of the problem, the controversy in the diagnosis and the fact that this subject has never before been reviewed in the English medical literature.

In our country there has recently been published a case that has also motivated controversies: hikikomori is a new diagnosis (Garcia-Campayo et al., 2007) or a syndrome associated with a psychiatric diagnosis (Gariup et al., 2008).

We agree with Teo (2010) that the limited number of case studies is due to underdetection and also, in our opinion, the symptom of isolation and the difficulties families have in asking for help. This argument is made from our experience in implementing a specialized psychiatric mobile unit: over four years of practice and 475 cases, social isolation has been the third most common reason for consultation.

We now report a severe case of social isolation which demonstrates the seriousness of the problem, the difficulty of access and management of these patients and the diagnostic difficulties.

The case concerns a 46-year-old male, who remained at home alone for 25 years, with no psychiatric history. When he was 20 years old he suffered from a sexual assault. Since then he has refused to go outside and remains locked in his room, listening to the radio or reading. During the reclusion he has completely neglected his personal hygiene and keeps a hoard of newspaper clip-pings. After the death of his mother, his father asked for help from hospital psychiatry services and the specialized mobile unit was activated. After several home visits, a first diagnostic approach was made of obsessive compulsive disorder (OCD) and an unspecified depressive disorder. We planned follow-up home visits and prescribed treatment with fluoxetine

20 mg/day. In the course of follow-up, the patient was less cooperative and he left the drug treatment. He expressed ideation of death and autolysis and displayed life-threatening behaviours (such as going several days without eating or sleeping). This prompted admission to an acute unit. In a mental status examination, the patient presented obsessive symptoms, rituals concerning personal hygiene and daily activities, mainly related to clothes (folding clothes and making the bed sheets) and putting things in order.

Neuropsychological testing revealed no cognitive abnormalities. Personality testing, Minnesota Multiphasic Personality Inventory (MMPI-2) and SCID-II revealed personality traits characterized by a threatening and negative perception of the media, low frustration tolerance, social inhibition and hypersensitivity to negative evaluation – profiles consistent with a pattern of cluster C, according to DSM-IV-TR.

Clinical interviews and the Yale-Brow Obsessive–Compulsive Scale (Y-BOCS) also revealed the existence of symptoms of obsessive rituals related to both personal care and daily activities. Therefore, the diagnostic approach was OCD. In this period he did not meet the diagnostic criteria for post-traumatic stress disorder.

During hospital admission the patient was treated with fluvoxamine and risperidone at low doses. He began to leave the hospital, which showed progression and also led to sharing different activities with his father. At discharge he was referred to day hospital with the idea to normalize his habits and behaviour.

In this case the isolation syndrome supports the argument that social isolation is a symptom associated with a variant of psychiatric diagnoses (OCD, schizophrenia, personality disorder).

Independent of the controversy, the need for research in this area is of great importance (Watts, 2002). It is a very serious medical condition for which the patient cannot always be properly assessed. Without treatment the disorder can evolve to become more refractory, causing further deterioration.

References

- Garcia Campayo, J., Alda, M., Sobradie, N. and Sanz Abós, B. (2007) A Case Report of Hikikomori in Spain. *Medicina Clinica (Barc)* 129(8), 318–319.
- Gariup, M., Parellada, E., Garcia, C. and Bernardo, M. (2008) Hikikomori or Simple Schizophrenia? *Medicina Clinica (Barc)* 130(18), 718–719.
- Teo, A.R. (2010) A New Form of Social Withdrawal in Japan: A Review of Hikikomori. *International Journal of Social Psychiatry* 56(2), 178–185.
- Watts, J. (2002) Public Health Experts Concerned about 'Hikikomori'. *The Lancet* 30(359), 113.

Póster: Hikikomori y adicción a Internet.

Presentado en el XIII Congreso Nacional de Psiquiatría, Santiago de Compostela, 2015.

En relación al **primer objetivo** de caracterización clínica del aislamiento social, se analizó específicamente la conducta de adicción a internet en los casos atendidos por aislamiento social por el EMSE, observando que en el 31% de los sujetos existía un uso de internet y ordenador patológico. Estos pacientes eran significativamente más jóvenes, con un tiempo de aislamiento menor que aquellos sin adicción a internet. En función del diagnóstico psiquiátrico comórbido al aislamiento social, se objetivó un menor número de casos con adicción a internet en aquellos con trastornos psicóticos y afectivos, y similar en aquellos con trastorno de personalidad. No se observaron diferencias significativas en variables sociales ni de tratamiento, así como en las escalas de evaluación de gravedad ni discapacidad.

HIKIKOMORI Y ADICCIÓN A INTERNET

Ángeles Malagón^{1,2}, David Córcoles¹, Jordi León¹, Víctor Chavarría¹, Daniel Bergé^{1,2}, Anna Gonzalez¹, Magda Bellsolà¹, Luis Miguel Martín^{1,2}, Antoni Bulbena^{1,2}, Víctor Pérez^{1,2,3}.

¹ Hospital del Mar, Institut de Neuropsiquiatria i Adiccions, Parc de Salut Mar, Barcelona.

² Departament de Psiquiatria i Medicina Legal, Universitat Autònoma de Barcelona.

³ Centro de Investigación Biomédica en Red de Salud Mental (CIBERSAM)

INTRODUCCIÓN

El “Síndrome de *Hikikomori*”, descrito por primera vez en Japón, es un fenómeno psicopatológico y sociológico en el que las personas, especialmente jóvenes, se aíslan en sus hogares evitando diversas situaciones sociales (asistir a la escuela, trabajar, tener interacciones sociales fuera de la casa, etc.) durante al menos seis meses. Se ha relacionado el uso de internet patológico en estos pacientes con el cuadro de aislamiento. Desde la creación en Barcelona del Equipo Multidisciplinar de Soporte Especializado (EMSE) en 2004, nuestro equipo ha podido evidenciar que el aislamiento social es un motivo de alerta frecuente, habiendo demostrado su existencia en nuestro ámbito.

OBJETIVOS

Describir la presencia de adicción a internet en pacientes con aislamiento social atendidos en domicilio por el EMSE.

METODOLOGÍA

Los participantes fueron 1619 personas atendidas en domicilio por el EMSE entre los años 2008 y 2013. En 200 casos, el motivo de consulta fue aislamiento social. Se realizó análisis descriptivo de variables socio-demográficas, clínicas, sociales y de tratamiento, así como escalas de gravedad y discapacidad EEAG, WHO/DAS y GEP.

RESULTADOS

Variable	Aislamiento social (n=107)	Aislamiento social y Adicción a internet (n=50)	p
Edad media (SD)	46.5 (17.6)	24.6 (7.8)	<0.000
Sexo Hombre/Mujer (%)	70/30	75/25	
Tiempo de aislamiento, media meses	46	29	0.029
Diagnóstico (%)			
- Tr. Psicótico	77	23	
- Tr. Afectivo	80	20	
-Tr. Ansiedad	60	40	
-Tr. Personalidad	45	55	
GEP total, media	12.7	11.4	0.134
WHO/DAS, media	12.8	12.0	0.201
CGI Global, media	4.2	3.9	0.069
EEAG, media	41	40.9	0.977

CONCLUSIONES

Este es el primer estudio en nuestro medio que evalúa la relación entre *hikikomori* y adicción a internet.

La adicción a internet en pacientes con aislamiento social es menos frecuente de lo que usualmente se considera.

Los pacientes con aislamiento social y adicción a internet son más jóvenes, con un menor periodo de aislamiento, asociándose de forma más frecuente a trastornos de personalidad.

Son necesarios más estudios para evaluar su incidencia y características clínicas, así como el tratamiento específico.

BIBLIOGRAFÍA

- De Michele F, Caredda M, Delle Chiaie R, Salvati M, Biondi M. [Hikikomori (引きこもり): a culture-bound syndrome in the web 2.0 era]. Riv Psichiatr. 2013;48: 354-358.
- Lee YS, Lee JY, Choi TY, Choi JT. Home visitation program for detecting, evaluating and treating socially withdrawn youth in Korea. Psychiatry Clin Neurosci. 2013;67: 193-202.
- Malagón-Amor A, Córcoles-Martínez D, Martín-López LM, Pérez-Sola V. Hikikomori in Spain: A descriptive study. Int J Soc Psychiatry. 2014. doi:10.1177/0020764014553003



Póster: Social withdrawal and suicide risk: a descriptive study

Presentado en el 24 Congreso Europeo de Psiquiatría, Madrid, 2016.

Este estudio en formato póster ha sido el primero en aportar datos sobre el riesgo autolítico y el aislamiento social. En relación al primer objetivo de caracterización clínica del aislamiento social, se realizó en 184 casos atendidos por el EMSE afectos de aislamiento social. Se analizaron variables sociodemográficas, clínicas y de gravedad. Los datos mostraron que los casos con riesgo autolítico comparados con los casos aislados sin riesgo, fueron más jóvenes, con un periodo de aislamiento menor, requiriendo más frecuentemente tratamiento en régimen hospitalario, y con puntuaciones que mostraban mayor gravedad y discapacidad en las escalas administradas. Pese a las posibles limitaciones de la escasa muestra y su publicación únicamente en formato póster, estos datos destacarían la importancia de detectar de forma precoz en sujetos jóvenes el aislamiento, así como de investigar cual es el abordaje más idóneo para ellos.

SOCIAL WITHDRAWAL AND SUICIDE RISK: A DESCRIPTIVE STUDY

Ángeles Malagón^(1,2), David Córcoles^(1,3), Ezequiel Pérez⁽¹⁾, Laia Mollà⁽¹⁾, Daniel Bergé^(1,2,3), Anna Gonzalez⁽¹⁾, Magda Belloà⁽¹⁾, Luis Miguel Martín^(1,2), Antoni Bulbena^(1,2), Víctor Pérez^(1,2,3)

⁽¹⁾ Institute of Neuropsychiatry and Addictions, Parc de Salut Mar, Barcelona, Spain

⁽²⁾ Department of Psychiatry and Forensic Medicine, Universitat Autònoma de Barcelona, Barcelona, Spain

⁽³⁾ Centro de Investigación Biomédica En Red de Salud Mental (CIBERSAM), Barcelona, Spain

INTRODUCTION

Social withdrawal is a major health problem that has been related with higher morbidity and mortality rates. There are few studies about the relationship between suicidal behavior and social isolation.

AIM

To describe the existence of suicidal risk in subjects with social isolation.

METHOD

Participants were 184 subjects referred to a Crisis Resolution Home Treatment (CRHT) because of social isolation. The definition of social withdrawal, also defined as *hikikomori*, was the state of avoiding social engagement with generally persistent withdrawal into one's residence for at least 6 months. Suicide risk was assessed by the item of the Severity of Psychiatric Illness (SPI), dividing in four groups (from absence to high suicide risk). Socio-demographic and clinical data were also analysed. Due to the limited number of subjects, statistical analysis was also performed by dividing in two groups: no autolytic risk (SPI score of 0) and autolytic risk (SPI score of 1, 2 and 3).

RESULTS

Table 1. Sociodemographic and clinical characteristics of socially isolated cases.

Variables	No suicide risk (SPI=0) (N=128)	Low suicide risk (SPI=1) (N=40)	Mild suicide risk (SPI=2) (N=11)	High suicide risk (SPI=3) (N=5)	p
Age, mean (SD)	38,42 (18,21)	43,25 (18,42)	41,00 (19,48)	33,20 (13,18)	0,23**
Gender, Male, N (%)	96 (75)	27 (67,5)	7 (63,6)	4 (80,0)	0,316*
Socially withdrawn period, months mean (SD)	42,69 (56,28)	26,3 (25,99)	45 (85,67)	34,8 (19,16)	0,16**
Age at onset of social isolation, mean (SD)	34,9 (17,66)	41,9 (18,82)	34,13 (19,4)	32 (13,34)	0,13**
Child abuse history, N (%)	25 (22,1)	8 (22,2)	2 (22,2)	0 (0)	0,761*
Psychiatric history, N (%)	81 (63,3)	28 (70)	6 (54,5)	3 (60)	0,717*
Suicide attempt history, N (%)	9 (7)	6 (15)	3 (27,3)	1 (20)	0,026*
Previous psychiatric hospitalization, N (%)	46 (35,9)	21 (52,5)	4 (36,4)	1 (20)	0,18*
Diagnosis, N (%)					0,226*
• Drug use disorder	5 (3,9%)	3 (7,5)	0 (0)	0 (0)	
• Psychotic disorder	50 (39,1)	14 (35)	7 (63,6)	3 (60)	
• Affective disorder	16 (12,5)	9 (22,5)	2 (18,2)	1 (20)	
• Anxiety disorder	23 (18)	9 (22,5)	1 (9,1)	1 (20)	
• Personality disorder	25 (19,5)	5 (12,5)	1 (9,1)	0 (0)	
• Other	8 (6,3)	0 (0)	0 (0)	0 (0)	
• No diagnosis	1 (,8)	0 (0)	0 (0)	0 (0)	
Referred service by the CRHT, N (%)					0,073*
• Medical outpatient team	20 (17,9)	6 (18,2)	0 (0)	0 (0)	
• Psychiatric outpatient team	44 (39,3)	15 (45,5)	2 (25)	1 (25)	
• Hospitalization	29 (25,9)	10 (30,3)	6 (75)	3 (75)	
• Other	19 (17)	2 (6,1)	0 (0)	0 (0)	
SPI total score, mean (SD)	11,26 (4,48)	13,70 (4,6)	16 (2,88)	22,75 (8,34)	<0,001**
GAF score, mean (SD)	43,8 (14,71)	35,83 (12,7)	32,73 (14,6)	18 (8,37)	<0,001**
CGIS score, mean (SD)	3,91 (1,1)	4,64 (0,99)	5,11 (1,05)	5,4 (0,89)	<0,001**
WHODAS score, mean (SD)	12,35 (3,8)	13,58 (3,34)	14,73 (3,9)	15,2 (3,9)	0,008**

* Chi-squared test; ** t-test; SD: Standard Deviation. SPI: Severity of Psychiatric Illness Scale; GAF: Global Assessment of Functioning Scale; CGIS: Clinical Global Impression Severity Scale; WHO/DAS: World Health Organization Disability Assessment Scale; CRHT: Crisis Resolution Home Treatment.

CONCLUSIONS

- This is, to our knowledge, the first study about suicide risk in hikikomori patients.
- These patients, overall, do not have high frequency of suicide risk.
- Cases with higher suicide risk are younger and have a shorter period of isolation. This group had also lower rates of child abuse history.
- The more frequent diagnosis in all groups were psychotic, affective and anxiety disorders. Those cases with mild and high suicide risk needed more frequently hospitalization.
- Patients with suicide risk had statistically significant higher severity scores in SPI, GAF, CGIS and WHO / DAS scales, as well as higher frequency of suicide attempt history.
- These data can be influenced by the characteristics of functioning of CRHT and the small sample size.

REFERENCES

- Kato, T. A., Tateno, M., Shinfuku, N., Fujisawa, D., Teo, A. R., Sartorius, N., ... Kanba, S. (2012). Does the "hikikomori" syndrome of social withdrawal exist outside Japan? A preliminary international investigation. *Social Psychiatry and Psychiatric Epidemiology*, 47(7), 1061-1075.
- Teo, A. R., Stufflebam, K., Saha, S., Fetters, M. D., Tateno, M., Kanba, S., & Kato, T. A. (2015). Psychopathology associated with social withdrawal: Idiopathic and comorbid presentations. *Psychiatry Research*. <http://doi.org/10.1016/j.psychres.2015.04.033>
- Wong, P. W., Li, T. M., Chan, M., Law, Y., Chau, M., Cheng, C., ... Yip, P. S. (2014). The prevalence and correlates of severe social withdrawal (hikikomori) in Hong Kong: A cross-sectional telephone-based survey study. *The International Journal of Social Psychiatry*. <http://doi.org/10.1177/0020764014543711>

