

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:  <https://creativecommons.org/licenses/?lang=ca>

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:  <https://creativecommons.org/licenses/?lang=es>

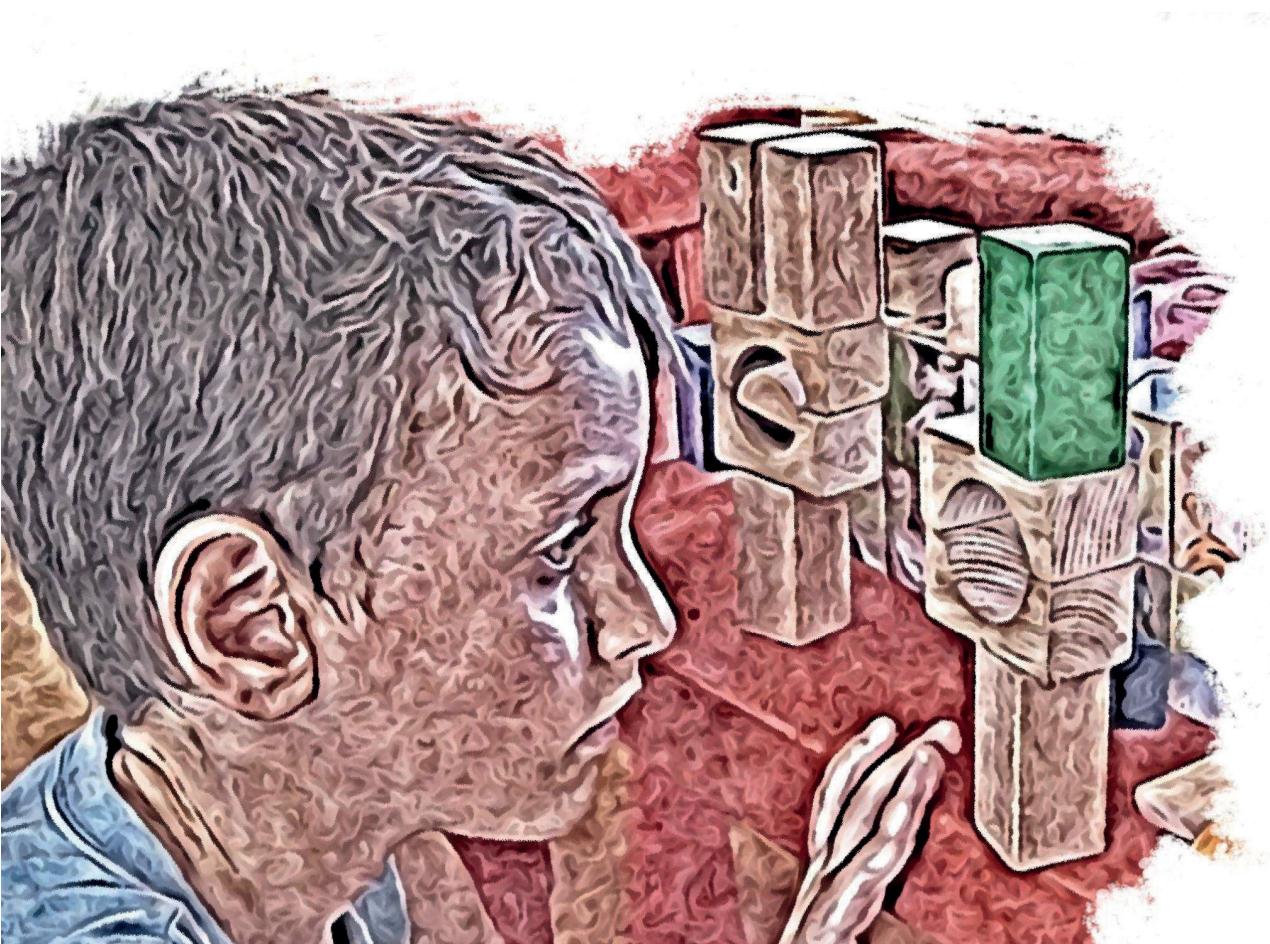
WARNING. The access to the contents of this doctoral thesis it is limited to the acceptance of the use conditions set by the following Creative Commons license:  <https://creativecommons.org/licenses/?lang=en>

TESIS DOCTORAL

**LAS ESTEREOTIPIAS MOTORAS EN AUTISMO Y SU
RELACIÓN CON LA ALTERACIÓN DEL
PROCESAMIENTO SENSORIAL Y LA
DESREGULACIÓN EMOCIONAL**

MARÍA GEMA HURTADO RUIZ

PROGRAMA DE DOCTORADO EN PSIQUIATRIA
DEPARTAMENTO DE PSIQUIATRIA Y DE MEDICINA LEGAL
UNIVERSIDAD AUTÓNOMA DE BARCELONA
BARCELONA 2023



TESIS DOCTORAL

LAS ESTEREOTIPIAS MOTORAS EN AUTISMO Y SU RELACIÓN
CON LA ALTERACIÓN DEL PROCESAMIENTO SENSORIAL
Y LA DESREGULACIÓN EMOCIONAL

Memoria presentada por **Maria Gema Hurtado Ruíz**
para optar al título de Doctor en Psiquiatría y Psicología Clínica.



Programa de Doctorado en psiquiatria
Departamento de Psiquiatría y de Medicina Legal
Universitat Autònoma de Barcelona

DIRECTORES: AMAIA HERVAS ZUÑIGA, MARIA JESUS ARRANZ CALDERON,
ANTONIO BULBENA VILARRASA

TUTOR: ANTONIO BULBENA VILARRASA

Barcelona 2023

Amaia Hervás Zúñiga, jefa del Servicio de Salud Mental Infanto-Juvenil de la Mútua de Terrassa, M^a Jesús Arranz Calderón, coordinadora del laboratorio de la Fundació Docència i Recerca de la Mútua de Terrassa y Antonio Bulbena Vilarrasa, Catedrático y director del Departamento de Psiquiatría y Medicina Legal de la Universitat Autònoma de Barcelona

HACEN CONSTAR:

Que la memoria presentada por **Maria Gema Hurtado Ruíz** con el título: “Las estereotipias motoras en autismo y su relación con la alteración del procesamiento sensorial y la desregulación emocional” ha sido realizada bajo su dirección y reúne las condiciones para ser presentada para optar al grado de Doctor.

Y para que conste a los efectos oportunos firman el presente certificado juntos en Barcelona, el 9 de enero de 2023.

Antonio Bulbena Vilarrasa

Amaia Hervás Zúñiga

M^a Jesús Arranz Calderón

“La vida te pondrá obstáculos, pero los límites los pones tú”

Anónimo

A las personas neurodiversas

A sus madres empoderadas

A sus familiares y amigos

AGRADECIMIENTOS

En primer lugar, me gustaría expresar mi más sincero agradecimiento a mis directores de tesis Amaia Hervás, M^a Jesús Arranz, Víctor Pérez y Antonio Bulbena. A Amaia Hervás por aportar la idea de este proyecto, por sus profundos conocimientos y experiencia en autismo, por lo que aporta a la comunidad TEA y por lo tanto que ha ayudado a pacientes y familiares. Mi agradecimiento por haberme enseñado y por lo que he aprendido de ella en estos años. A M^a Jesús Arranz por sus rápidas respuestas, su claridad y sinceridad, por su capacidad para orientarme y servirme de guía. A Víctor Pérez por haber alentado en mí el interés por la investigación, por haberme dado la oportunidad de conocer a Amaia y M^a Jesús, por su acompañamiento y por ayudarme siempre a simplificar las tareas. A Antonio Bulbena por confiar en el proyecto y facilitar su llegada a buen puerto.

Este proyecto no habría sido posible sin la colaboración de las personas con TEA y sus padres que, de manera altruista y con el anhelo puesto en el avance en el conocimiento de esta condición, han participado en este estudio, a pesar de sus complicadas vidas.

Gracias a Neus Payerol, Susi Cordón, Sandra Arellano y Ángela García, Ingrid Margaride y Adrià Mezquita, por haberme facilitado la puerta de entrada a Junts, Aprenem, Fasia Sarrià e Igain.

Gracias a los profesionales de los servicios de *Salud Mental* Infanto-Juvenil de la Mútua de Terrassa y Hospital Sant Joan de Déu, que durante años colaboraron en el reclutamiento y evaluación de la muestra que ha hecho posible esta investigación. Gracias a Mariona Prades por recopilar toda esta información.

Agradecer el soporte material y técnico por parte del IMIM, la Fundació Docència i Recerca de la Mútua de Terrassa y CAEML. Gracias a Pilar Arcusa por sus gestiones. Dar las gracias a Xavier Duran y Adrián Vizoso por su ayuda en el análisis estadístico y por su paciencia. A Laura Merino le agradezco su ayuda con las traducciones.

Un especial agradecimiento a Núria Pujol, por su inestimable ayuda, por haberme aportado

conocimiento en el ámbito de la psicología y por su incansable apoyo. También a Adriana Farré por sus prácticos consejos en el último tramo del camino.

Dar las gracias a todos mis compañeros de CAEML, por escuchar mis inquietudes y por sus palabras de aliento; en especial a mis compañeros de agudos Roberto, Clara, Maite y Alfons, por su cercanía y porque con su trabajo me han ayudado a avanzar en esta última etapa y a Antonio, que, aunque ahora disfruta de su retiro, siempre me animó a seguir adelante.

No me olvido de mi grupo de madres sabias, incondicionales, siempre dispuestas a ayudar. Gracias por la confianza, por la amistad, por vuestros consejos, por esa comprensión que sólo vosotras podéis dar y por ese sentido del humor que sana.

A mis amigas de siempre, porque me aceptáis tal como soy, me comprendéis y animáis, por los momentos que hemos compartido y por los que vendrán.

Agradecer a mis padres y hermanos la confianza que invariablemente han depositado en mí, por estar ahí desde la distancia, por ser el ejemplo a seguir y por tener la oportunidad de formar parte de una gran familia. Ana y Mónica, gracias por vuestros comentarios. Arantxa, gracias por la portada.

Gracias Oscar, compañero de vida, por dejarme espacio, por asumir mi compromiso con este trabajo. Gracias Joan y Mireia, por vuestra paciencia, por aceptar las cosas como vienen, por hacerme sentir viva cada día, por vuestro amor.

Finalmente, gracias, Martí, por ser la verdadera inspiración y motor de este proyecto, por tu cariño y compañía, por haber abierto mi mente a otras formas de ver el mundo, por ayudarme a ser más tolerante, paciente y empática, por haberme ayudado a descubrir las verdaderas prioridades de la vida.

INDICE DE CONTENIDOS

ABREVIATURAS	1
RESUMEN	5
RESUM	7
ABSTRACT	9
1. INTRODUCCION	12
1.1. Definición, prevalencia y etiología de TEA	12
1.2. Patrones de conducta e intereses restrictivos y repetitivos	16
1.2.1. Definición y prevalencia en TEA	16
1.2.2. Desencadenantes y Función de las CIRR	16
1.2.3. Tipos de CIRR	18
1.3. Las estereotipias motoras	20
1.3.1. Definición y prevalencia en TEA	20
1.3.2. Tipos de estereotipias motoras	21
1.3.3. Comparativa de EM en TEA y otros trastornos	21
1.3.4. Bases neurobiológicas de EM	22
1.3.4.1. Bases neuroanatómicas y moleculares de las EM	22
1.3.4.2. Bases genéticas de las EM	24
1.4. Alteración de la reactividad sensorial	24
1.4.1. Definición	24
1.4.2. Tipos de alteración de la reactividad sensorial	25
1.4.3. Bases neurobiológicas de SENS	
1.4.3.1. Bases psicofisiológicas de SENS	27
1.4.3.2. Bases neuroanatómicas y moleculares de SENS	27
1.4.3.3. Bases genéticas de SENS	
1.4.4. Hipótesis explicativas de SENS	28
1.5. Desregulación emocional	29
1.5.1. Definición y prevalencia en TEA	29
1.5.2. Condicionantes de DE en TEA	30
1.5.3. Manifestación de la DE en TEA	31
1.5.4. Bases neurobiológicas de la DE	32

1.5.4.1.	Bases neurofisiológicas	32
1.5.4.2.	Bases neuroanatómicas y moleculares	32
1.6.	Conducta repetitiva, desregulación emocional, y alteración de la reactividad sensorial en TEA	33
1.6.1.	Conducta repetitiva y desregulación emocional	37
1.6.2.	Conducta repetitiva y alteración de reactividad sensorial	38
1.6.3.	Desregulación emocional, y alteración de la reactividad sensorial	41
1.6.4.	Estereotipias motoras, desregulación emocional y alteración de la reactividad sensorial	41
1.7.	Otros factores que influyen sobre EM, DE, SENS	43
1.7.1.	Factores que influyen sobre CIRR	43
1.7.2.	Factores que influyen sobre SENS	44
1.7.3.	Factores que influyen sobre DE	45
2.	JUSTIFICACIÓN	47
3.	HIPOTESIS Y OBJETIVOS	49
4.	ESTUDIO 1. ASOCIACIÓN DE ESTEREOTIPIAS MOTORAS CON DESREGULACIÓN EMOCIONAL Y ANSIEDAD EN NIÑOS CON TRASTORNO DEL ESPECTRO AUTISTA	51
4.1.	Objetivos e hipótesis	51
4.2.	Materiales y Método	52
4.3.	Resultados	55
4.4.	Discusión	57
5.	ESTUDIO 2. ASOCIACIÓN DE LAS ESTEREOTIPIAS MOTORAS CON DESREGULACIÓN EMOCIONAL Y ALTERACIÓN EN LA REACTIVIDAD SENSORIAL EN ADOLESCENTES Y ADULTOS CON TRASTORNO DEL ESPECTRO AUTISTA	64
5.1.	Objetivos e hipótesis	64
5.2.	Material y Método	65
5.3.	Resultados	71
5.4.	Discusión	96
6.	CONCLUSIONES	113
7.	REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS	116
	ANEXOS	137

ABREVIATURAS

AI	Insula anterior, del inglés Anterior insula
5-HT	Serotonina
AASP	Adolescent/adult sensory profile
AASP-BS	Búsqueda sensorial de la escala AASP
AASP-ES	Evitación sensorial de la escala AASP
AASP-HOS	Hiporreactividad sensorial de la escala AASP
AASP-HRS	Hiperreactividad sensorial de la escala AASP
AASP-SS	Sensibilidad sensorial de la escala AASP
ABAS	Adaptative Behavior Assesment System
ABCL	Adult Behavior Checklist (ASEBA)
Ach	Acetilcolina
ADIR	Autism Diagnostic Interview-Revised
ADOS-2	Autism Disorder Observational Scale 2
AF-TEA	Autismo alto funcionamiento
AQ	Autism quotient
AR-TEA	Alto riesgo TEA
ASC-ASD	Anxiety Scale for Children-ASD
ASEBA	Achenbach System of Empirically Based Assessment
ASR	Adult Self-report (ASEBA)
BAI	Beck Anxiety Inventory
BASC	Behavioral Assessment System for Children
BDI	Beck Depression Inventory
BDSI	Behavioral Dysexecutive Syndrome Inventory
BF-TEA	Bajo funcionamiento TEA
BRIEF	Behavior Rating Inventory of Executive Function
BR-TEA	Bajo riesgo TEA
BS	Búsqueda sensorial
CAPS	Cardiff Anomalous Perception Scale
CARS	Childhood Autism Rating Scale
CBCL	Child behavior Checklist (ASEBA)
CBCL-DP	CBCL- Dysregulation Profile
CBCL-EDI	CBCL- Emotional Dysregulation Index
CDI	Children's Depression Inventory
CES-DE	Center for Epidemiological Studies—Depression Scale
CEV	cuerpo estriado ventral
CGBT	Circuito Cortical-Ganglios de la base-Tálamo
CI	Coficiente intelectual
CINV	Coficiente intelectual no verbal
CIRR	Patrones de conducta e intereses restrictivos y repetitivos
CNV	Variación en el número de copias
CRI	Childhood Routines Inventory

CRSM	Conductas repetitivas sensoriomotoras
DA	Dopamina
DAWBA	Development and Well-Being Assessment
RD	Retraso del desarrollo
de	Desviación Estándar
DE	Desregulación Emocional
DI	Discapacidad intelectual
DP-3:	Developmental Profile-3
DT	Desarrollo típico
EDI	IEmotion Dysregulation Inventory
EDI-ID-A	Índice de disforia del EDI actual
EDI-ID-P	Índice de disforia del EDI en el pasado
EDI-ID-SC	Índice de disforia del EDI significación clínica
EDI-IR-A	Índice de reactividad emocional del EDI actual
EDI-IR-P	Índice de reactividad emocional del EDI en el pasado
EDI-IR-SC	Índice de reactividad emocional del EDI significación clínica
EFT	Embedded Figures Test
EM	Estereotipias Motoras
EMA	Estereotipias Motoras Ausentes u ocasionales
EMF	Estereotipias Motoras Frecuentes
EPOCAA	E´chelle Pour l'Observation des Comportements d'Adultes avec Autisme
ES	Evitación sensorial
F	Género femenino
FACE-HAB	Repeated stimulus to face
FE	Funciones ejecutivas
FI	Fear Inventory
GABA	Ácido Gamma-aminobutírico
GAD	Generalised anxiety disorder
GISIQ	Gastrointestinal symptom inventory questionnaire
Glu	Glutamato
Gpe	Globo pálido externo
Gpi	Globo pálido interno
GSQ	Glasgow sensory questionnaire
HA	Histamina
HOS	Hiporreactividad sensorial
HRS	Hiperreactividad sensorial
IC	intereses circunscritos
IC/II	Conducta repetitiva de alto nivel
II	Insistencia en la invarianza
IQR	Rango intercuartil, del inglés Interquartile Rank
ITSEA	Infant Toddler Social and Emotional Assessment
IU	Intolerancia a la Incertidumbre, del inglés Intolerance of Uncertainty
IUS	Intolerance of Uncertainty Scale
K-SADS-E	School-Age Children-Epidemiological Version

M	Masculino
mPFC	Cortex prefrontal medial, del inglés Medial Prefrontal Cortex
MSEL	Mullen Scales of Early Learning
mTOR	Mammalian Target Of Rapamicine. Es una vía de la cascada de señalización celular
Nac	Núcleo acumbens
noSENS	Sin alteración del procesamiento sensorial
NSSI-AT	Non suicidal Self Injury Assesment Tool
PAS	Preschool Anxiety Scale
PFC	Cortex prefrontal, del inglés Prefrontal Cortex
PRAS-ASD	Parent-Rated Anxiety Scale–Autism Spectrum Disorder.
RBQ-2	Repetitive Behaviours Questionnaire, Second edition
RBS-R	Repetitive Behaviour Scale-Revised
RCMAS	Revised Children's Manifest Anxiety Scale
RD	Retraso en el desarrollo
RE	Regulación emocional
RMN	Resonancia magnética
RMnf	Resonancia magnética funcional
SAS	Spence Anxiety Scales
SBC	Stereotyped behavior checklist
SBS	Stereotyped behavior Scale
SBS-EM-F-A	Frecuencia de EM de la escala SBS actual
SBS-EM-F-P	Frecuencia de EM de la escala SBS en el pasado
SBS-EM-G-A	Gravedad de EM de la escala SBS actual
SBS-EM-G-P	Gravedad de EM de la escala SBS en el pasado
SCAS	Spence Children's Anxiety Scale
SCQ	Social communication questionnaire
SDQ	Strengths and Difficulties Questionnaire
SENS	Alteración de la reactividad Sensorial
SEQ:	Sensory experiences Questinnnaire-version 2,1
SERS	Social-emotional rating scale de Leiter
SN	Sustancia negra
SNr	Sustancia negra pars reticulata
SNT	Núcleo subtalámico
SP	Sensory profile
SP-2CV	Sensory profile 2-child version
SPA-YC	Sensory Processing Assessment for Young Children
SPD	Sensory Processing Disorders
SPM-P:	Sensory Processing Measure–Preschool
SRS:	Social Responsiveness Scale
SSIMI	Stereotyped and Self-Injurious Movements Interview
SSP	Short sensory profile
STAI	State/Trait Anxiety Inventory (STAI)
TAS-20	Toronto alexitimia scale
TD	Desarrollo típico

TDAH	Trastorno por Déficit de Atención con Hiperactividad
TDDT	Light Touch to Arms and Hands
TEA	Trastorno del espectro autista
TEA-DI	Trastorno del espectro autista con discapacidad intelectual
TIP	Touch Inventory for Preschoolers
TOTASEBA	Total dimensión inventario ASEBA significación clínica
VABS	Vineland adaptive behavior scales
vmPFC	corteza prefrontal ventromedial, del inglés Ventromedial Prefrontal Cortex
VTA	Area tegmental ventral, del inglés Ventral Tegmental Area
Wnt	Wingless and Int-1. Es una vía de la cascada de señalización celular.

RESUMEN

Las Estereotipias Motoras (EM) son muy frecuentes en niños con Trastornos del Espectro Autista (TEA), pero tienden a disminuir con la edad. Se ha descrito la presencia de EM, Desregulación Emocional (DE) y Alteración de la Reactividad Sensorial (SENS) ya durante el primer año de vida. Diversos estudios han descrito por separado la asociación de DE y SENS con las EM. Nuestro objetivo principal ha sido investigar la relación de la DE con las EM en diferentes edades y estudiar la influencia conjunta de DE y los 3 patrones de SENS sobre la frecuencia y gravedad de las EM. Los objetivos secundarios han sido estudiar la asociación de otros Comportamientos e Intereses Repetitivos y Restringidos (CIRR) con la DE en niños con TEA, describir los tipos de EM, su evolución en el tiempo, su asociación con DE y SENS en adultos y adolescentes con TEA y estudiar la asociación entre DE y SENS.

Se llevaron a cabo 2 estudios, utilizando para su análisis estadístico modelos de regresión múltiple. En el primer estudio (N= 151) se compararon dos grupos de niños TEA con/sin EM frecuentes (EMF y EMA respectivamente), medidas con la Entrevista de Diagnóstico de Autismo-revisada (ADI-R), y se determinó una asociación significativa de DE y ansiedad/depresión con la presencia de EMF, medidas con la Child Behavior Checklist (CBCL). No se observó la influencia de la edad, el género y la discapacidad intelectual. Ninguna otra CIRR mostró asociación con EM en este estudio. El segundo estudio se realizó con una muestra de adolescentes y adultos con TEA (N=97) y se determinó la asociación de la frecuencia y gravedad de EM (SBS-EM-F-A y SBS-EM-G-A respectivamente), medida con la Escala de Conductas Estereotipadas (SBS), con la DE, utilizando el Inventario de Desregulación Emocional (EDI); y con la Hiporreactividad (AASP-HOS), Hiperreactividad (AASP-HRS) y Búsqueda sensorial (AASP-BS), medida con el Perfil Sensorial del Adolescente y Adulto (AASP). La DE dejó de ser una variable explicativa de EM cuando se introdujeron en el modelo la covariable de Comorbilidad Psiquiátrica (TOTASEBA) y los patrones SENS. AASP-HOS, AASP-HRS y AASP-BS mostraron diferente asociación con las SBS-EM-F-A y SBS-EM-G-A, siendo la AASP-HOS la que presentó una asociación más consistente. La edad se asoció a la SBS-EM-F-A, y TOTASEBA fue la única variable explicativa en el modelo de asociación de AASP-BS y SBS-EM-G-A. Se describió además el mantenimiento de algunas de las EM más

específicas de TEA (EM manos y dedos y pasearse). La AASP-HOS se asociaba a casi todos los tipos de EM.

Estos hallazgos dispares apoyan la conveniencia de analizar los subtipos de CIRR y los patrones de SENS por separado, para el estudio de las bases neurobiológicas subyacentes. Por otro lado, falta determinar si la tipología de EM, su frecuencia y gravedad, y su asociación con otras variables y contextos, pueden ayudar al diseño de tratamientos más específicos para las EM (si se requiere) y a la clasificación de subgrupos fenotípicos que faciliten la identificación de genes de riesgo.

PALABRAS CLAVE: estereotipias motoras, conductas repetitivas, desregulación emocional, ansiedad, reactividad sensorial, hiperreactividad sensorial, hiporreactividad sensorial, búsqueda sensorial.

RESUM

Les Estereotípies Motoras (EM) son molt freqüents en nens amb Trastorn de l'Espectre Autista (TEA), però tenen tendència a reduir-se amb l'edat. S'ha descrit la presència de EM, Desregulació Emocional (DE) i Alteració de la Reactivitat Sensorial (SENS) ja durant el primer any de vida. Diversos estudis han descrit per separat l'associació de DE i SENS amb les EM. El nostre objectiu principal fou investigar la relació de la DE amb les EM en diferents edats i estudiar la influència conjunta de la DE i els 3 patrons de SENS sobre la freqüència i la gravetat de les EM. Els objectius secundaris foren estudiar l'associació d'altres Comportaments i Interessos Repetitius i Restringits (CIRR) amb la DE en nens amb TEA, descriure els tipus d'EM, la seva evolució en el temps, la seva associació amb DE i SENS en adults i adolescents amb TEA i estudiar l'associació entre DE i SENS.

Es realitzaren 2 estudis, utilitzant per l'anàlisi estadístic els models de regressió múltiple. Al primer estudi (N= 151) es van comparar dos grups de nens amb TEA infantil amb/sense EM freqüents (EMF i EMA respectivament), mesurades amb l'Entrevista de Diagnòstic de Autisme-Revisada (ADI-R), i es va determinar l'associació significativa de DE i ansietat/depressió amb la presència d'EMF, mesurades amb la Child Behavior Checklist (CBCL). No es va observar la influència de l'edat, el gènere i la discapacitat intel·lectual. Cap altra CIRR va mostrar associació amb EM en este estudio. El segon estudi es va realitzar amb una mostra d'adolescents i adults amb TEA (N=97) i es va determinar la associació de la freqüència i gravetat de EM (SBS-EM-F-A i SBS-EM-G-A respectivament), mesurada amb l'escala de conductes estereotipades (SBS), amb el DE, utilitzant l'Inventari de Desregulació Emocional (EDI); i amb Hiporreactivitat (AASP-HOS), Hiperreactivitat (AASP-HRS) i Cerca sensorial (AASP-BS), mesurada amb el Perfil Sensorial de l'Adolescent i Adult (AASP). La DE va deixar de ser una variable explicativa de l'EM quan s'introduïren al model de les covariables de la Comorbiditat Psiquiàtrica (TOTASEBA) i els patrons SENS. HOS, HRS i BS mostraren una associació diferent amb SBS-EM-F-A i SBS-EM-G-A, sent AASP-HOS la que presenta una associació més consistent. L'edat s'associà SBS-EM-F-A, i TOTASEBA fou l'única variable explicativa en el model d'associació de AASP-BS i SBS-EM-G-A. Es va descriure a més, el manteniment d'algunes de les EM més específiques de TEA (EM mans i dits i passejar-se). AASP-HOS s'associà a quasi tots els tipus d'EM.

Aquestes troballes disperses recolzen la conveniència d'analitzar els subtipus de CIRR i els patrons de SENS per separat, per a l'estudi de les bases neurobiològiques subjacents. D'altra banda, queda per determinar si la tipologia de les ME, la seva freqüència i gravetat, la seva associació amb altres variables i contextos, poden ajudar a dissenyar tractaments més específics per les EM (si calen) i classificar subgrups fenotípics que facilitin la identificació de gens de risc.

PARAULES CLAU: Estereotípies motores, conductes repetitives, desregulació emocional, ansietat, reactivitat sensorial, hiperreactivitat sensorial, hiporreactivitat sensorial, cerca sensorial.

ABSTRACT

Motor stereotypies (EM) are very frequent in children with Autism Spectrum Disorders (TEA), but tend to decrease with age. The presence of EM, Emotional Dysregulation (DE) and Altered Sensory Reactivity (SENS) has been described as early as the first year of life. Several studies have separately described the association of DE and SENS with EM. Our primary objective was to investigate the relationship of DE with EM at different ages and to study the joint influence of DE and the 3 patterns of SENS on the frequency and severity of EM. The secondary objectives were to study the association of other Repetitive and Restricted Behaviors and Interests (RRBI) with DE in children with TEA, to describe the types of EM, their evolution over time, their association with DE and SENS in adults and adolescents with TEA, and to study the association between DE and SENS.

Two studies were conducted, using multiple regression models for statistical analysis. In the first study (N= 151), two groups of TEA children with/without frequent EM (EMF and EMA, respectively), measured by the Autism Diagnostic Interview-Revised (ADI-R), were compared. A significant association of DE and anxiety/depression with the presence of EMF, measured by the Child Behavior Checklist (CBCL), was determined. Non influence of age, gender and intellectual disability was observed. No other CIRR showed association with EM in this study. The second study was conducted with a sample of adolescents and adults with TEA (N=97). A EM frequency and severity (SBS-EM-F-A and SBS-EM-G-A respectively), measured with the Stereotypic Behavior Scale (SBS), association with DE, using the Emotional Dysregulation Inventory (EDI); and with Sensory Hyporreactivity (AASP-HOS), Hyperreactivity (AASP-HRS) and Seeking (AASP-BS), measured with the Adolescent and Adult Sensory Profile (AASP) was found. DE ceased to be an explanatory variable for EM when the covariate of Psychiatric Comorbidity (TOTASEBA) and SENS patterns were introduced into the model. AASP-HOS, AASP-HRS and AASP-BS showed different association with SBS-EM-F-A and SBS-EM-G-A, with AASP-HOS presenting the most consistent association. Age was associated with SBS- EM-F-A, and TOTASEBA was the only explanatory variable in the AASP-BS and BPS-EM-G-A association model. Maintenance of some of the more specific EM of TEA (EM with hands and fingers and pacing) was also described. AASP-HOS was associated with almost all types of EM.

These mixed findings support the need for separate analysis of CIRRI subtypes and SENS patterns, to the study of the underlying neurobiological basis. On the other hand, it remains to be determined whether EM typology, its frequency and severity, and its association with other variables and contexts, can aid in the design of more specific EM treatments (if required) and in the classification of phenotypic subgroups that facilitate the identification of risk genes.

KEY WORDS: motor stereotypies, repetitive behaviors, emotional dysregulation, anxiety, sensory reactivity, sensory hyperreactivity, sensory hyporeactivity, sensory seeking.

INTRODUCCIÓN

1 INTRODUCCIÓN

1.1 Definición, prevalencia y etiología de los TEA

Los Trastornos del espectro autista (TEA), según la definición del manual diagnóstico y estadístico de los trastornos mentales 5ª edición (DSM-5), son un grupo de trastornos del neurodesarrollo consistente en un déficit persistente de la comunicación social recíproca y la interacción social (Criterio A) y patrones de conducta, intereses o actividades restrictivos y repetitivos (Criterio B), que están presentes en las primeras fases del desarrollo y causan un deterioro clínicamente significativo en diferentes ámbitos de la funcionalidad diaria (American Psychiatric Association, 2013).

Los TEA tienen una prevalencia media mundial de un 1%, con una ratio hombre-mujer de 4.32:1. Se ha observado un incremento en la prevalencia en los últimos años (Zeidan et al., 2022). Las variaciones en las tasas de prevalencia están influenciadas por factores de género, geográficos, demográficos, raciales, socioeconómicos y sanitarios entre otros (Roman-Urrestarazu et al., 2021; Zeidan et al., 2022). En Cataluña se ha estimado una prevalencia del TEA del 1.23% con una ratio hombre-mujer de 4.5:1.(Pérez-Crespo et al., 2019).

La comorbilidad en TEA es muy frecuente, por lo que el DSM-5 incluye una serie de especificadores (American Psychiatric Association, 2013) :

- Con o sin déficit intelectual (DI) acompañante. La prevalencia es del 33 % (Zeidan et al., 2022)
- Con o sin deterioro del lenguaje acompañante. El 30% experimentan dificultades en el lenguaje verbal (Kasari et al., 2013)
- Asociado a una afección médica o genética, o a un factor ambiental conocidos comorbilidad médica (Al-Beltagi, 2021)
- Asociado a otro trastorno del desarrollo neurológico, mental o del comportamiento. 10-30% presenta epilepsia (Lai, Lombardo & Baron-Cohen, 2014) y un hasta un 70% presenta al menos un diagnóstico psiquiátrico y casi el 50% más de un diagnóstico (Simonoff et al., 2008) aunque el metaanálisis de Lai (2019) que incluye estudios a nivel mundial y muestras clínicas y no clínicas encontró una comorbilidad

psiquiátrica de 4-28%, (Lai et al., 2019)

- Con catatonía 10.4% (Vaquerizo-Serrano et al., 2022)

Además, el 30% de los casos de TEA sufren regresión entre los 18-24 meses (Shuid et al., 2020)

El DSM-5 describe 3 niveles de gravedad, considerando en nivel de funcionamiento y dependencia respecto a la comunicación y los comportamientos repetitivos y restringidos: Grado 3 “Necesita ayuda muy notable”, grado 2 “Necesita ayuda notable”, grado 1 “Necesita ayuda”.

Entre las teorías psicológicas explicativas del TEA, las más contrastadas son la teoría de la coherencia central débil, la teoría de la mente y la alteración en las funciones ejecutivas. (Baron-Cohen, et al., 2013; Ozonoff, et al., 1991; Frith, 2003).

La etiología del autismo es desconocida, pero se considera que tiene un origen multifactorial, donde factores genéticos, epigenéticos y la exposición a factores ambientales contribuyen a su aparición.(Eissa et al., 2018).

Existe una clara contribución genética a la etiología del TEA, pero los hallazgos son muy heterogéneos en cuanto a los mecanismos genéticos implicados: variaciones genéticas implicadas (variantes comunes, raras, muy raras), los patrones de herencia (dominante, recesiva, ligada a cromosoma a X, de novo) y el tipo de variante implicada (anomalías cromosómicas, variantes de número de copias (CNV), variantes de un único nucleótido (SNV), etc.). Estudios de gemelos y hermanos indican una heredabilidad en el TEA del 70-80% (con un riesgo de desarrollar TEA en hermanos de aproximadamente un 25%, aunque se estima de 3-10% para el autismo clásico) y una contribución en la prevalencia de TEA de las mutaciones de novo de entre un 15-25 % (Muhle et al., 2018; Ramaswami & Geschwind, 2018). Se cree que las variantes genéticas comunes de efecto aditivo contribuirían a un 40-60% de los casos de TEA, pero con un tamaño del efecto para cada variante muy bajo, a diferencia de las variantes genéticas raras que podrían explicar entre el 10-20 % de los casos (Shuid et al., 2020) y con una contribución individual a los casos de autismo que podría llegar al 1% para algunos de los síndromes congénitos (Chaste et al., 2017; De La Torre-Ubieta et al., 2016; Muhle et al., 2018; Ramaswami & Geschwind, 2018). Yoon et al. (2020) encontraron la presencia de variación en el número de copias (CNVs) de novo en el 7% de los casos de TEA estudiados (Yoon et al., 2020). El 90% de

los casos de TEA aún se tipifican como idiopáticos (Shuid et al., 2020). Se han detectado más de 1000 genes relacionados con el TEA, 200 de ellos considerados de alto riesgo para TEA. Muchos de estos genes se expresan en regiones específicas de la corteza cerebral durante el periodo prenatal desde el primer trimestre y sus funciones están asociadas mayoritariamente con la función cerebral (señalización neuronal, formación y función de la sinapsis) y regulación de la expresión genética (regulación de la transcripción y remodelación de la cromatina)(De La Torre-Ubieta et al., 2016; Muhle et al., 2018; Ramaswami & Geschwind, 2018). Los reguladores de la cromatina son necesarios para la renovación y diferenciación neuronal, la sinaptogénesis, la apoptosis y el desarrollo neurológico y cognitivo (Yoon et al., 2020). También se han identificado genes de riesgo de TEA relacionados con la función inmunitaria. (De La Torre-Ubieta et al., 2016). Estudios de gemelos aportan evidencias de que los síntomas nucleares interacción y comunicación social y las CIRR tienen distintas etiologías genéticas (Happé & Ronald, 2008), aunque existe controversia al respecto (Leekam, Prior & Uljarevic, 2011).

Los factores ambientales que intervienen en el riesgo de desarrollar TEA actuarían mayoritariamente en los periodos prenatal y perinatal. Se ha observado relación entre autismo y edad avanzada de los padres, intervalo breve entre dos embarazos, prematuridad, condiciones maternas durante el embarazo como infecciones víricas, patología autoinmune, desbalance hormonal, diabetes y obesidad materna, bajo peso y complicaciones al nacer (hipoxia, isquemia o traumatismo) y exposición prenatal a pesticidas, teratógenos, ácido valproico, $\beta 2$ bloqueantes, marihuana, etc. (Lu et al., 2022; Muhle et al., 2018; Yoon et al., 2020)

Se desconoce la etiopatogenia del TEA y en qué etapa del desarrollo se producen los cambios en TEA, pero los estudios genéticos, bioquímicos, anatomopatológicos postmortem, los estudios con células madre y modelos animales con ratones entre otros, apuntan a una asociación del TEA con una alteración a nivel celular y molecular, con la inflamación y desregulación del sistema inmunitario, la disfunción mitocondrial, la alteración en la regulación de la expresión génica, a una alteración en la cascada de señalización celular (como la alteración de la vía mTOR implicada en la formación, crecimiento y morfogénesis neuronal o la vía Wnt relacionada con la regulación del balance entre la renovación de la glía y la diferenciación neuronal) y a una disfunción sináptica (De La Torre-Ubieta et al., 2016; Shuid et al., 2020). Existen datos sobre la implicación en el TEA de una alteración en los sistemas de neurotransmisión cerebral de la dopamina (DA), serotonina

(5-HT), ácido gamma-amino butírico (GABA), acetilcolina (ACh), glutamato (Glu) e histamina (HA) (Eissa et al., 2018). Estos hallazgos han llevado a elaborar la hipótesis de que el desbalance excitatorio-inhibitorio contribuiría al desarrollo del TEA (sistemas GABA y glutamato) (De La Torre-Ubieta et al., 2016) (Shuid et al., 2020).

A la luz de los estudios de neuroimagen y anatomopatológicos se cree que existe un desarrollo cerebral anormal desde el periodo prenatal, en concordancia con la expresión de los genes de riesgo de TEA en esta fase, debido a un desbalance en el proceso de formación de sinapsis, crecimiento, migración, poda y apoptosis neuronal, que podría explicar los hallazgos en primera infancia de un aumento del volumen cerebral y un patrón de conectividad atípica (hipoconectividad a larga distancia de proyecciones corticocorticales e interhemisféricas e hiperconectividad de las conexiones locales a nivel subcortical (Muhle et al., 2018; Hiremath et al., 2021). En concreto, regiones relacionadas con la cognición social muestran hipoconectividad y las regiones sensoriomotoras y visuales del cerebro que muestran un exceso de conectividad en los TEA. Ambos circuitos se relacionan por separado con los déficits sociales y las conductas restringidas (Chen et al., 2018). Se observa una reducción del volumen del cuerpo caloso (Fournier et al., 2010). Se han observado además alteraciones estructurales en amígdala, hipocampo y cerebelo en estudios de neuroimagen y postmortem (Shuid et al., 2020). Recientemente se ha encontrado que estructuras fetales, como son la subplaca cortical fronto-temporo-parietal y la capa granular cerebelar externa, que tienden a desaparecer en el primer año de la vida en un desarrollo evolutivo cerebral normotípico, sin embargo, permanecen en el desarrollo del cerebro del bebe con TEA. Esto explicaría anomalías en el desarrollo de la corteza cerebral y sus conexiones, y que en los primeros meses de la vida las alteraciones evolutivas del TEA sean poco visibles y la neuroplasticidad cerebral sea máxima (Hadders-Algra, 2022). En modelos animales de autismo se ha descrito alteración en las regiones de la corteza parieto-temporal y frontal, cerebelo, hipotálamo y estriado (De La Torre-Ubieta et al., 2016). Los estudios de resonancia magnética funcional también han identificado una activación diferencial en áreas del cerebro relacionadas con el desempeño motor en niños con TEA, lo que sugiere una dependencia de vías alternativas (Verhoeven et al., 2010).

Existe una nueva línea de investigación en la patogénesis del TEA que estudia el efecto de la neuroinflamación inducida por citoquinas proinflamatorias. Esta hipótesis está basada en los cambios en la glía, en el perfil de citoquinas y en la disfunción del sistema inmune gastrointestinal observados en pacientes con TEA y en modelos animales y en las evidencias de interacción entre los sistemas inmunitario y nervioso en el TEA.(Matta et al., 2019). Sin embargo, se desconoce si se debe a una alteración primaria, o secundaria a la

disfunción sináptica (los astrocitos y la microglía regulan el desarrollo y poda sináptica) (De La Torre-Ubieta et al., 2016).

En función de todos estos hallazgos, el TEA puede tener su origen en diferentes factores etiológicos con mecanismos fisiopatológicos diferentes, pero también hay evidencias de diversos genes de riesgo que convergen en vías fisiopatológicas comunes a nivel molecular y celular (De La Torre-Ubieta et al., 2016; Vorstman et al., 2017). Por otro lado, la disfunción en cualquiera de los genes de riesgo de TEA que se expresan en el periodo fetal y están implicados en el desarrollo cerebral podría alterar varios procesos del desarrollo cortical (Blackmon et al., 2016).

1.2 Patrones de conducta e intereses restrictivos y repetitivos

1.2.1 Definición

Los patrones de conducta e intereses restrictivos y repetitivos (CIRR) constituyen un síntoma nuclear en TEA, cuya presencia es necesaria para el diagnóstico de TEA, y se refieren a un amplio y heterogéneo conjunto de acciones que tienen en común su repetición, con elevada frecuencia y similitud en cualquier contexto, rigidez, invariabilidad e inadecuación. (Kanner, 1943; Turner, 1999; Boyd et al., 2009).

El DSM-5 (American Psychiatric Association, 2013), en su criterio B, contempla 4 tipos de patrones restrictivos o repetitivos. Se requieren al menos dos de ellos para poder realizar el diagnóstico de TEA:

- B1.** Movimientos, utilización de objetos o habla estereotipados o repetitivos.
- B2.** Insistencia en la monotonía, excesiva inflexibilidad en las rutinas o patrones ritualizados de comportamiento verbal o no verbal.
- B3.** Intereses muy restringidos y fijos que son anormales en cuanto a su intensidad o foco de interés.
- B4.** Hiper o hiporeactividad a los estímulos sensoriales o interés inhabitual por aspectos sensoriales del entorno.

1.2.2 Desencadenantes y función de las CIRR

Se han estudiado como desencadenantes y mantenedores de las CIRR, factores de motivación intrínsecos (búsqueda sensorial y de excitación, reducción de ansiedad) y extrínsecos (búsqueda de atención, obtención de un objeto o escape), que funcionarían como refuerzos sociales y no sociales, tanto positivos como negativos, y que favorecerían la persistencia de estas conductas (Lovaas et al., 1987; Cunningham & Schreibman, 2008). Estos factores varían en función del desarrollo evolutivo del niño (Leekam et al., 2011), del

tipo de CIRR (Militeri et al., 2002; Shafer et al., 2017) y del tipo de patología de base.

En comparación con niños con discapacidad intelectual, Joosten, (2009) encontró que en niños TEA con DI (TEA-DI), los motivadores que precipitan la aparición de conductas repetitivas sensoriomotoras son la ansiedad, el escape y la búsqueda de obtención de un objeto (Joosten et al., 2009).

En niños neurotípicos (DT), las estereotipias motoras (EM) son desencadenadas por la excitación, la alegría, los pensamientos o imágenes intensas, el estrés, el ensimismamiento, el aburrimiento y el cansancio (Péter et al., 2017; Melo et al., 2019).

A su vez, el contexto, influye en la motivación para realizar CIRR. Así, Joosten,(2012) encontró que la motivación sensorial desencadenaba CIRR cuando el entorno no contenía factores externos (durante el tiempo libre, por ejemplo) y en cambio la ansiedad actuaba como desencadenante de CIRR en contexto de transición de actividades (Joosten et al., 2012). Se ha observado en animales y en humanos una tendencia a iniciar conductas estereotipadas como búsqueda sensorial en ausencia de ambientes estimulantes (Berkson & Tupa, 2000; Dantzer, 1986). En estas situaciones, se cree que los estímulos propioceptivos y otros estímulos sensoriales se refuerzan y aparecen las EM (Gal et al., 2002). Por otro lado, las CIRR y la ansiedad se reducen en ambientes predecibles y ricos en estímulos. Algunos estímulos sensoriales y algunas CIRR son experiencias positivas hasta que superan un umbral a partir del cual aparece sobrecarga sensorial y ansiedad. En contextos sociales las CRSM ayudan a mantener el foco y a reducir la ansiedad, debido a que se produce una dificultad para filtrar las numerosas distracciones sensoriales que aparecen en estas situaciones. Los pacientes adultos de alto funcionamiento, (sin discapacidad intelectual) sin embargo, evitan la realización de EM en estos ambientes por el estigma social que generan, lo que incrementa la ansiedad y reduce la capacidad de afrontamiento de sobrecarga sensorial (Williams et al., 2021).

Las CIRR pueden interferir en la adaptación social (por su inadecuación al contexto pueden ser socialmente estigmatizantes, pueden interrumpir las rutinas familiares o sociales, lo que supone una fuente de estrés para los cuidadores) (Boyd & McDonough, 2012; Harrop et al., 2016), reducir las oportunidades de aprendizaje (Cunningham & Schreibman, 2008; Gal, E., & Yirmiya, 2021; Leekam et al., 2011; Ray-Subramanian & Weismer, 2012) y afectar al funcionamiento a largo plazo (Miller et al., 2021; Troyb et al., 2016)

Por otro lado, experiencias descritas en primera persona por individuos con TEA y algunos estudios apuntan a una función reguladora de las CIRR. Las personas con TEA tienen la autopercepción de que las CIRR mejoran su regulación emocional y su capacidad para centrar la atención y la concentración. (Gal & Yirmiya, 2021). McCarty & Brumback (2021), plantean la hipótesis de que las estereotipias motoras contribuyen a mejorar el procesamiento sensorial y la atención mediante la regulación de los ritmos cerebrales a través del efecto directo o indirecto del movimiento repetitivo (McCarty & Brumback, 2021).

1.2.3 Tipos de CIRR

Clásicamente, se han dividido las conductas repetitivas y estereotipadas en conductas de bajo nivel y de alto nivel (Turner, 1999):

- Las **conductas de bajo nivel** consisten en movimientos repetitivos, manipulación de objetos (que se corresponden con el criterio B1 del DSM5) y conductas autolesivas repetitivas.
- Las **conductas de alto nivel** incluyen apego a objetos, insistencia en rutinas, lenguaje repetitivo e intereses restringidos (corresponden a los criterios B2, B1 respecto a lenguaje y B3 del DSM-5).

(Turner, 1999; American Psychiatric Association, 2013; Hervas, 2021).

En congruencia con esta clasificación, el análisis factorial de los ítems del dominio conductas e intereses repetitivos y estereotipados del ADIR-R y de otros cuestionarios específicos de CIRR, distinguen fundamentalmente dos factores: Insistencia en la Invarianza (II) y Conductas Repetitivas Sensoriomotoras (CRSM) (incluye además síntomas sensoriales, criterio B4 del DSM-5) (Barrett et al., 2018; Bishop et al., 2013; Cuccaro et al., 2003; Lidstone et al., 2014; Szatmari et al., 2006). Otros análisis factoriales, no obstante, han encontrado una estructura diferente (Bodfish et al., 2000; Esbensen et al., 2010; Murray & Healy, 2015; Uljarević et al., 2022). La variabilidad de la clasificación de los CIRR puede afectar la consistencia de los resultados en diferentes estudios, llevando a conclusiones erróneas (Tian et al., 2022).

Las dos categorías de CIRR (II y CRSM), presentan características diferenciadas a nivel clínico, neuroanatómico y genético, por lo que diversos autores proponen que deberían estudiarse por separado (Boyd et al., 2012; Kim, Lim & Kaang, 2016; Leekam, Prior & Uljarevic, 2011).

La observación de las características clínicas asociadas a las CIRR, evidencia una mayor prevalencia de CRSM en niños de menor edad y con presencia de discapacidad intelectual (Bishop et al., 2006, 2013; Boyd et al., 2013; Cannon et al., 2010; Hus et al., 2007; Kim & Lord, 2010; Lam, Bodfish & Piven, 2008; Richler et al., 2010; Szatmari et al., 2006), con una menor conducta adaptativa (Cuccaro et al., 2003; Szatmari et al., 2006) y una mayor severidad del TEA (Cannon et al., 2010; Hus et al., 2007; Szatmari et al., 2006). Por otro lado, los niños con TEA más mayores, con alto funcionamiento o con mayor nivel de ansiedad tendrían más tendencia a presentar preocupaciones e intereses restringidos, supuestamente porque las habilidades intelectuales y las adquiridas con el desarrollo ayudarían a reducir las CRSM (Leekam, Prior & Uljarevic, 2011; Lidstone et al., 2014).

A nivel neuroanatómico, se han relacionado los distintos tipos de CIRR con 3 subcircuitos de la vía Cortical-Ganglios basales-Tálamo (CGBT): circuito sensoriomotor (corteza motora y oculomotora), asociativo (corteza prefrontal dorsolateral), y límbico (corteza orbitofrontal lateral y cíngulo anterior), que median las funciones motoras (EM), las cognitivas (rigidez) y sensoriales, y las afectivas (conductas estereotipadas de alto nivel, como compulsiones), respectivamente (Abbott et al., 2018; Blackmon et al., 2016; Daly et al., 2014; H. Kim et al., 2016; Langen et al., 2011; Langen, et al., 2014; Muehlmann & Lewis, 2012; Subramanian et al., 2017; Whitehouse & Lewis, 2015). Así, por ejemplo, la disfunción del sistema de recompensa (corteza prefrontal ventromedial (vmPFC), cuerpo estriado ventral (VS), circuitos de la amígdala) podría ser la base neurobiológica de los intereses restringidos (Tian et al., 2022). McKinnon et al (2020), utilizando resonancia magnética funcional (RMNf) en estado de reposo en individuos de 2 años con alto riesgo de TEA (AR-TEA), hallaron una participación de las redes atencionales dorsales que tenía una conectividad funcional con las redes subcorticales en el comportamiento estereotipado y con la red neuronal por defecto en los comportamientos restringidos.(Mckinnon et al., 2020). Otro estudio con RMNf en TEA, encuentra que los Intereses Circunscritos (IC) y la insistencia en la invarianza (II) se asocian con dinámicas aberrantes del circuito de control cognitivo, mientras que las acciones motoras repetitivas se asocian con dinámicas aberrantes del circuito motor (Supekar et al., 2021).

Desde el punto de vista genético, diferentes variantes genéticas y regiones cromosómicas específicas se han asociado a cada tipo de CIRR (Cannon et al., 2010; Brune et al., 2006; Shao et al., 2003) y se observado que las CIRR de alto nivel presentan mayor transmisión familiar que las de bajo nivel (Boyd, McDonough & Bodfish, 2012; Lam, Bodfish & Piven,

2008; Shao et al., 2003; Szatmari et al., 2006; Uljarević et al., 2016a), aunque los hallazgos son controvertidos (Cannon et al., 2010; Ray-Subramanian & Weismer, 2012; Shao et al., 2003). Por otro lado, las EM están presentes en numerosos síndromes congénitos que cursan con autismo y discapacidad intelectual, y los modelos animales, que se sustentan en ellos, consiguen reproducir estas conductas (Leekam, Prior & Uljarevic, 2011).

1.3 Las estereotipias motoras

1.3.1 Definición

No existe una clara definición en la literatura de las estereotipias motoras (EM) y el tipo de conductas que se incluyen en su clasificación son variables (Edwards et al., 2012; Melo et al., 2019).

En el TEA, las EM se enmarcan dentro las CIRR de bajo nivel y están presentes ya desde la primera infancia (Hong & Matson, 2021; Péter et al., 2017). Melo et al (2019) proponen una definición de EM como “un tipo de trastorno del movimiento hiperkinético caracterizado por movimientos, posturas o expresiones involuntarias, que siguen un patrón, coordinados, sin un objetivo, ritualísticos, repetidos continuamente durante un periodo de tiempo de la misma manera o en múltiples ocasiones, que pueden cesar con distracción en la mayoría de los casos”. También se apunta a que los términos voluntario, suprimible o distraíble deben evitarse hasta que haya más evidencia disponible (Hervas, 2021; Melo et al., 2019). Algunos autores también describen que no se acompañan de una urgencia previa a realizar esa acción (McCarty & Brumback, 2021) y que los movimientos son predecibles en cuanto a forma, amplitud y ubicación (Singer, 2009). Respecto a la apreciación de que no tienen un propósito claro, otros autores han descrito que juegan un determinado papel, como se ha comentado en el apartado anterior 1.2.2. al hablar de las funciones de las CIRR.

Estas conductas se manifiestan con una elevada frecuencia en el TEA, con una mediana de 51,8%, (entre el 21,9% al 97,5%) y una odds ratio de 4.7, según el metanálisis de Melo (Melo et al., 2019).

Ejemplos de estereotipias motoras presentes en TEA serían balanceo del cuerpo, movimientos de la boca, movimientos repetitivos de las manos, chasquear los dedos, girar sobre uno mismo, caminar de puntillas, caminar de un lado a otro, agitar las manos y posturas repetitivas, entre otras (Chebli, Martin & Lanovaz, 2016).

1.3.2 Tipos de EM

Las estereotipias motoras se clasifican en primarias o secundarias en función de si aparecen en individuos con Desarrollo Típico (DT) o en el contexto de una patología (TEA, discapacidad intelectual, privación sensorial, síndromes congénitos, inducidas por sustancias, infecciones, tumores, patologías psiquiátricas, etc) (Singer, 2009; Péter et al., 2017).

A su vez, las estereotipias primarias se diferencian, en función de su presentación, en estereotipias simples o comunes (balanceo, retorcer el pelo, ...), movimientos de cabeza y estereotipias complejas (aleteo, agitar las manos, girar las muñecas...) (Singer, 2009).

1.3.3 Comparativa de EM en TEA y otros trastornos.

Las EM no son específicas del TEA. Están presentes en una amplia variedad de trastornos (síndromes congénitos, enfermedades neurológicas, trastornos psiquiátricos, trastornos del lenguaje, déficits sensoriales, discapacidad intelectual) (Leekam, Prior y Uljarevic, 2011), pueden ser inducidas por sustancias o por privación sensorial y también están presentes en niños neurotípicos.

Las EM son habituales durante los primeros 4 años de vida en niños neurotípicos, aunque a partir de los 2 años ya empiezan a disminuir. En estos, existe un incompleto control cortical y las conductas repetitivas probablemente tienen como función favorecer el desarrollo del sistema nervioso central y neuromuscular, el aprendizaje a través de la repetición y el aumento de la predictibilidad de una rutina, lo que reduce la ansiedad (Leekam, Prior & Uljarevic, 2011; Melo et al., 2019; Patterson et al., 2010; Thelen, 1979).

Sin embargo, el elevado nivel de EM en niños menores de 2 años con AR-TEA predicen el diagnóstico de autismo posterior y el nivel de desarrollo verbal y no verbal (Barber et al., 2012; Watt et al., 2008; Morgan et al., 2008). En los TEA, las EM persisten en niveles similares después de los dos años, y no existe un patrón característico en su presentación. Al contrario, las EM abarcan un amplio rango de conductas y localizaciones, a menudo son atípicas o inusuales y se presentan con mayor severidad y frecuencia que en otros trastornos, llegando a interferir en el funcionamiento del individuo (Cunningham & Schreibman, 2008; Bodfish et al., 2000; Melo et al., 2019; Chebli, Martin & Lanovaz, 2016;

Grossi et al., 2021). Así, las estereotipias motoras simples tienen más probabilidades de aparecer en niños con discapacidad intelectual y controles sanos, mientras que las estereotipias motoras complejas generalmente se asocian con el autismo (Goldman et al., 2009; Kumar et al., 2022). La odds ratio de prevalencia de EM en TEA respecto a Discapacidad Intelectual (DI) es de 4.7 (Melo et al., 2019)

Algunas EM aparecen casi exclusivamente en niños con TEA, en comparación con niños con DI o DT, como los movimientos de manos/dedos y estereotipias de la marcha (en el estudio de Kumar serían: caminar en círculos, girar sobre sí mismo, brincar) (Goldman et al., 2009; Kumar et al., 2022). Las estereotipias de cabeza/ tronco están más asociadas a tener un coeficiente intelectual no verbal (NVIQ) por debajo de 80 (Goldman et al., 2009).

1.3.4 Bases neurobiológicas de las EM

1.3.4.1 Bases neuroanatómicas y moleculares de las EM

Se han relacionado varias regiones y circuitos con las conductas repetitivas, pero la vía más destacada es el circuito CGBT (Kim, Lim & Lam, 2016; Blackmon et al., 2016). A nivel cortical estaría implicado el córtex frontal inferior y el cingulado (Daly et al., 2014). Estas son áreas clave que median la respuesta de inhibición motora y el aprendizaje de rutinas motoras (Daly et al., 2014; De La Torre-Ubieta et al., 2016).

El circuito CGBT, fundamentalmente consiste en una vía directa de expresión de receptores dopaminérgicos D1R y una vía indirecta de expresión de receptores dopaminérgicos D2R. En la vía directa, las neuronas GABAérgicas que expresan D1R inhiben el globo pálido interno (Gpi) y la sustancia negra pars reticulata (SNr). Secuencialmente el output GABAérgico del GPi a la SNr inhibe el tálamo y a su vez el tálamo activa el córtex motor. Aproximadamente la mitad de las neuronas del estriado expresan el neuropéptido dinorfina, así como D1R y receptores de adenosina A1 (A1R). La consecuencia final de la vía directa es la activación de movimientos. Por otro lado, en la vía indirecta las neuronas que expresan D2R inhiben el globo pálido externo (GPe) y GPe inhibe el núcleo subtalámico (STN). El STN activa el Gpi y la SNr, que inhibe el tálamo. Las neuronas estriatales expresan el neuropéptido encefalina, así como D2R y receptores de adenosina A2 (A2R). La consecuencia final de la vía indirecta es la inactivación del movimiento y posiblemente influye en las conductas repetitivas en modelos animales de autismo (Muehlmann & Lewis, 2012). La participación de este circuito en la patofisiología de las EM se ha evidenciado a través de estudios en modelos animales y de neuroimagen (Melo et al., 2019; Péter et al., 2017). Paralelamente, existe una vía "hiperdirecta" por la cual la corteza envía

proyecciones glutamatérgicas organizadas topográficamente directamente al STN, una región excitadora en los ganglios basales, que luego estimula el GPi directamente, sin pasar por el cuerpo estriado. Se cree que su función es desinhibir la vía directa para facilitar un movimiento específico (Vicente et al., 2020). Estudios de neuroimagen con RMN y RMNf han hallado evidencias de implicación de estas áreas cerebrales en las EM en general (Péter et al., 2017). Existen evidencias, en relación a las EM en general, a través de modelos animales y/o en humanos de una disfunción del sistema dopaminérgico en el circuito CGBT, bajos niveles de GABA en cíngulo anterior y en el estriado, una disminución de la acetilcolina asociada a aumento de dopamina y un aumento de glutamato y aspartato en el estriado (Harris et al., 2016; Péter et al., 2017).

Otras regiones que se han asociado a conductas estereotipadas (algunos hallazgos están basados en modelos animales) son el hipocampo (que tiene conexiones con diversas regiones del circuito CGBT, incluyendo estriado y amígdala) (Kim, Lim & Lam, 2016), el cerebelo (D'Mello & Stoodley, 2015; De La Torre-Ubieta et al., 2016), y otras áreas cerebrales pertenecientes a una red que asocia funcionalmente las conductas sociales y las conductas repetitivas como son la amígdala, (Kim, Lim & Lam, 2016; De La Torre-Ubieta et al., 2016), el Córtex Prefrontal (PFC), el Área Tegmental Ventral (VTA) y el Núcleo Accumbens (Nac) (áreas que participan en el sistema de recompensa) ((Kim, Lim & Lam, 2016). La activación anómala en TEA del córtex frontal inferior y el cíngulo se ha asociado a la severidad de las conductas repetitivas sensoriomotoras (Daly et al., 2014). Por otro lado, un estudio reciente detectó en niños neurotípicos con EM complejas una reducida conectividad entre el estriado y la corteza prefrontal (regiones asociadas con comportamientos dirigidos a objetivos), pero no con la corteza motora/premotora (asociada a acciones habituales), lo que sugiere que existe una alteración del equilibrio entre el control de la acción habitual y la dirigida a un objetivo en el origen de las EM (Augustine, 2021). Esto sería congruente con la hipótesis de que el refuerzo positivo de la estimulación sensorial que provocan las EM sobre los sistemas neuronales de control produce su sensibilización, de manera que finalmente la estereotipias motoras serían la expresión de la activación de las estructuras cerebrales de bajo nivel que controlan la conducta motora en ausencia del control inhibitorio de redes neuronales superiores (Dantzer, 1986). Hadders (2022) describe que la alteración de la disolución de las estructuras fetales como la subplaca cortical frontoparietal y la capa granular externa del cerebelo durante el primer año de vida, podría estar relacionada con el retraso en el desarrollo motor y en la aparición de secuencias motoras repetitivas (Hadders-Algra, 2022).

1.3.4.2 Genética de las EM

Existe una clara evidencia de la implicación genética en la presencia de estereotipias motoras en TEA, basada en modelos animales, en la presencia de estereotipias en un amplio rango de trastornos genéticos y en estudios de agregación familiar (Leekam et al., 2011).

La revisión de Péter et al. (2017) sobre EM, no encontró en personas neurotípicas variantes genéticas que aumenten el riesgo de estereotipias motoras. En cambio, algunos genes de riesgo de autismo, se manifiestan fenotípicamente, tanto en modelos animales como en humanos, con la presencia de estereotipias motoras (Robert et al., 2017). Diversos síndromes congénitos cursan con elevada frecuencia de autismo y de estereotipias motoras. El Síndrome de Rett (MECP2), Cornelia de Lange (Genes del complejo cohesina) y Potocki-Lupski (RAI 1), cuya alteración genética afecta a la transcripción y los Síndromes de Angelman (UBE3A) y Phelan-McDermid (SHANK3) cuyos genes implicados se relacionan con el funcionamiento sináptico (De La Torre-Ubieta et al., 2016; Sztainberg & Zoghbi, 2016a), son algunos ejemplos. Algunos genes de riesgo están asociados funcionalmente a las vías de neurotransmisión directa e indirecta del CGBT (Muehlmann & Lewis, 2012). Se incluyen genes dopaminérgicos (DRD1, DRD2, DRD3, DAT1, MAO-A, COMT) y otros genes que codifican receptores asociados a estas vías (GABRB3, GRIN2A, ADORA2A) u otras sustancias reguladoras del sistema dopaminérgico (SHANK3, NL3, DLG4, PPP1R1B, PARK2, CAPS2) (Nguyen et al., 2014). Otros genes implicados en TEA con manifestación de EM, son el gen SERT, que codifica el transportador de serotonina (Muller et al., 2016), y el gen NRXN1 que codifica una molécula de adhesión de la sinapsis (De La Torre-Ubieta et al., 2016; Robert et al., 2017).

1.4 Alteración de la reactividad sensorial (SENS)

1.4.1 Definición

Junto con las conductas estereotipadas, las alteraciones en la respuesta a estímulos sensoriales han sido incluidas en el DSM-5, dentro criterio B del diagnóstico de TEA (Criterio B4) (American Psychiatric Association, 2013).

La terminología empleada para referirse a los síntomas sensoriales en TEA es confusa. El trastorno en la modulación sensorial o reactividad sensorial, observada en los TEA, se

define como la dificultad en la regulación y organización del tipo e intensidad de respuesta a inputs sensoriales específicos (táctil, olfatorio, visual, auditivo, propioceptivo, y vestibular)(Ben-Sasson et al., 2009). Esta es la alteración sensorial que incluye el DSM-5; sin embargo, también se han identificado alteraciones en la percepción y en la integración sensorial en TEA. La percepción sensorial consiste en la habilidad de percibir e interpretar los estímulos sensoriales (Lane, 2021). La integración sensorial se refiere al procesamiento sensorial que implica el registro y modulación de la información sensorial y la organización interna de múltiples inputs sensoriales (Gal, Dyck & Passmore, 2010). He et al. (2022) proponen una taxonomía para los síntomas sensoriales donde se diferencian 5 niveles jerárquicos. Los 3 primeros niveles son medibles con métodos de laboratorio y paradigmas y los 2 últimos se evalúan con cuestionarios clínicos. Esos niveles son: Alteración sensorial relacionada con excitabilidad neuronal (actividad neuronal), Sensibilidad perceptual (percepción), Reactividad fisiológica al input sensorial (apreciación del estímulo), la Reactividad emocional al input sensorial (apreciación del estímulo) y la Respuesta conductual al input sensorial (conducta).

Se ha encontrado una elevada prevalencia de alteración en la reactividad sensorial en TEA (entre el 60 y el 90 % de los casos) (Leekam et al., 2007; De La Torre-Ubieta et al., 2016) y está presente ya a partir de los 6 meses (Robertson & Baron-Cohen, 2017).

Los síntomas sensoriales predicen el diagnóstico posterior de TEA y pueden afectar negativamente al funcionamiento de la vida diaria, llevando a conductas mal adaptativas, y a dificultades en el aprendizaje, que en adultos se manifiesta con problemas en la función cognitiva y social (Lane, 2021; Robertson & Baron-Cohen, 2017).

1.4.2 Tipos de alteración sensorial

Dunn (1997) propone un modelo de procesamiento sensorial basado en la interacción entre el umbral neurológico para iniciar una respuesta conductual (alto o bajo) y la autorregulación de la conducta (estilo activo o pasivo) frente al estímulo sensorial. Diferencia 4 cuadrantes: Búsqueda sensorial (BS) (umbral alto, estilo buscador), Bajo registro (HOS) (umbral alto, estilo espectador), Evitación sensorial (ES) (umbral bajo, estilo evitativo), Sensibilidad sensorial (SS) (umbral bajo, estilo sensitivo). Cada cuadrante es un continuum; la combinación de los 4 cuadrantes es la que determina el tipo de respuesta sensorial de un individuo (Dunn, 1997).

Según las definiciones de Miller (2007) (Miller et al., 2007):

- La **HOS** se refiere a la falta de conciencia o respuesta lenta respecto a los inputs sensoriales.
- La **HRS** describe reacciones de inicio rápido, exageradas, y/o prolongadas ante los estímulos sensoriales, habitualmente aversivos. Puede manifestarse en forma de evitación sensorial si la conducta es activa o sensibilidad sensorial si el estilo de conducta es pasivo (Dunn, 1997).
- La **BS** consiste en el deseo e interés por experiencias sensoriales que son prolongadas o intensas

En los niños con TEA, los patrones de respuesta sensorial (SENS) difieren de los de la población neurotípica, pudiendo coexistir en el mismo individuo varias alteraciones en dichos patrones y afectar a prácticamente todas las modalidades sensoriales (Bhat, Landa & Galloway, 2011; Ben-Sasson et al., 2009; Lane, 2021; Baranek et al., 2006; Hadders-Algra, 2022). Los patrones más descritos en autismo son la Hiperreactividad sensorial (HRS), la Hiporreactividad sensorial (HOS) y la búsqueda sensorial (BS) (Ben-Sasson et al., 2019; Boyd et al., 2010).

El metaanálisis de Ben-sasson 2019, describe que, respecto a los niños con DT, los niños con TEA, en general, tienen una mayor probabilidad de presentar elevación de la puntuación en los 3 patrones, (aunque con resultados heterogéneos) sobre todo para la HRS, que también es más frecuente con respecto a otros grupos de comparación (Ben-Sasson et al., 2019). También se encuentra que la HOS es más específica de TEA (Ben-Sasson et al., 2009; Boyd et al., 2010; Baranek et al., 2006; Baranek et al., 2013; Ausderau et al., 2016) y su aparición en edades muy tempranas predice la gravedad del TEA (Grzadzinski et al., 2020). La HOS se asocia a déficits en la atención conjunta sobre todo en edad mental más joven, lo que repercute inicialmente en la adquisición de habilidades y en el aprendizaje, pero a medida que aumenta la edad mental se pierde esta asociación (Baranek et al., 2013)

Respecto a las modalidades sensoriales, estudios comparativos de individuos TEA con individuos con otros trastornos o DT, describen en los primeros una mayor sensibilidad táctil, búsqueda de movimiento, evitación visual y baja respuesta a estímulos auditivos (sociales y no sociales), alteración de la sensibilidad táctil/olfativa (Tomchek & Dunn, 2007; Schoen et al., 2009; Joosten & Bundy, 2010). Existen comportamientos sensoriales

relacionados con las CIRR que, aunque no son muy frecuentes, son característicos de TEA en comparación con niños con DI o DT: cubrirse los ojos, mirar de cerca, mirada atípica a objetos o mirar las manos (Goldman et al., 2009; Kumar et al., 2022).

Los patrones sensoriales pueden variar según el contexto. En el estudio de Baranek et al (2006), los participantes con TEA, en comparación con los individuos DT, mostraron mayor hipersensibilidad e hiposensibilidad a los estímulos sensoriales en ambas situaciones sociales y no sociales (Baranek et al., 2006). Por otro lado, en un estudio realizado en niños TEA, en entorno natural (domicilio), los comportamientos hipersensibles se asociaron más con las actividades de la vida diaria y a estímulos iniciados por la familia, mientras que los comportamientos de búsqueda sensorial se asociaron con las actividades de juego libre y a estímulos iniciados por los niños. Los comportamientos asociados con múltiples modalidades sensoriales simultáneamente fueron habituales (Kirby et al., 2017b),

Existen diferentes modelos de clasificación de subgrupos homogéneos de pacientes con TEA en función de los síntomas sensoriales, medidos fundamentalmente con diferentes versiones de la escala Sensory Profile de Dunn (Dunn, 1999) , aunque también con otras escalas específicas. Estos grupos difieren en cuanto a severidad (intensidad y frecuencia) y modalidad sensorial, respuesta conductual al estímulo sensorial, nivel de funcionamiento, etc. Estos patrones van cambiando con la edad. La identificación de dichos patrones facilita el estudio de las bases neurobiológicas y la adecuación de tratamientos (Lane, 2021).

1.4.3 Bases neurobiológicas de la alteración sensorial

1.4.3.1 Bases psicofisiológicas

Los estudios de psicofisiología de los síntomas sensoriales a través del uso de paradigmas experimentales, han encontrado alteraciones que sugieren que en el TEA, la integración de la información sensorial se realiza en una ventana temporal más amplia y con mayor ruido (interferencia), con afectación de las modalidades de procesamiento visual, táctil, auditivo y multisensorial. (Robertson & Baron-Cohen, 2017; Webster et al., 2019).

1.4.3.2 Bases neuroanatómicas y moleculares

Las técnicas de neuroimagen han permitido observar cambios cerebrales relacionados con el procesamiento sensorial desde los 6 meses. Se ha descrito en niños AR-TEA de 6

meses, una alteración en la conectividad involucrada en el procesamiento sensorial de bajo nivel (Lewis et al., 2017) y una alteración en el patrón de sustancia blanca en el cuerpo calloso y cerebelo que predecía la alteración sensorial y las conductas repetitivas posteriores (Wolff et al., 2017). Con el uso de RMNf, se han observado en personas con TEA, en comparación a grupos DT, respuestas atípicas de las áreas de la corteza cerebral sensorial primaria durante el procesamiento sensorial de varias modalidades sensoriales y durante la percepción multimodal, así como activación de áreas cerebrales diferentes (Webster et al., 2019; Robertson & Baron-Cohen, 2017). También se ha descrito que las minicolumnas corticales son más anchas tanto en la corteza auditiva primaria como en las áreas de asociación en individuos con TEA (Robertson & Baron-Cohen, 2017). Green et al. (2015) encontraron que jóvenes con TEA e hiperrespuesta sensorial presentaban una atenuación de la habituación neuronal a estímulos en las cortezas sensoriales y en la amígdala en comparación con los controles (Green et al., 2015).

Existen evidencias a través de estudios genéticos, modelos animales, estudios con resonancia magnética espectroscópica y estudios anatomopatológicos de una alteración del sistema GABAérgico en el TEA, lo que generaría un desbalance inhibición/excitación compatible con las alteraciones sensoriales antes descritas (Robertson & Baron-Cohen, 2017).

1.4.3.3 Bases genéticas

Los estudios de agregación familiar sugieren un componente genético de estos síntomas: los padres y hermanos de las personas con autismo muestran niveles más altos de rasgos sensoriales en relación con la población general. Presentan un patrón sensorial más atípico las familias multiplex (con mayor predisposición genética para el autismo) que las familias con un solo individuo diagnosticado de TEA (familias simplex), en las que la base genética del autismo es probable que sea una mutación de novo (Robertson & Baron-Cohen, 2017).

1.4.4 Hipótesis explicativas

El hallazgo de una reducción en la conectividad de las fibras a larga distancia en el córtex cerebral y/o una falta de conexión funcional (Muhle et al., 2018; Hiremath et al., 2021), podría explicar la afectación global del procesamiento de la información sensorial y el aumento de los procesos de percepción de bajo nivel, como la atención focalizada en los detalles sensoriales (Martínez-Sanchis, 2014).

Baranek et al. (2006) plantean que en HOS podrían estar implicados los déficits en la desconexión y cambio de atención (se relacionaría con las funciones del cerebelo) y la falta de orientación a los estímulos sensoriales tanto sociales como no sociales (estaría relacionada con funciones de la amígdala y los sistemas fronto-estriatales) (Baranek et al., 2006).

Así mismo, la HRS podría explicarse por los déficits tempranos en la neuromodulación que afectan la organización cortical y que conducirían a un desbalance de excitación/inhibición en sistemas neuronales clave (Rubenstein & Merzenich, 2003) y por el hallazgo de una atenuación de la habituación neuronal a los estímulos en la amígdala y las cortezas sensoriales (Green et al., 2015).

Proff et al. (2022) han unificado diversas hipótesis sobre la alteración sensorial. Por un lado, habría una reducción de la sincronización neuronal y, en consecuencia, una reducción de la integración sensorial global de estímulos interoceptivos y exteroceptivos. Por otro, existiría una inferencia perceptual atípica en individuos TEA, de manera que éstos se basarían más en las señales sensoriales entrantes y menos en las creencias o predicciones previas. Ambas hipótesis podrían complementarse entre sí y describir las complejas diferencias del procesamiento de percepción de abajo hacia arriba y de arriba hacia abajo, respectivamente (Proff et al., 2022).

1.5 Desregulación emocional (DE)

1.5.1 Definición y prevalencia en TEA

La regulación emocional (RE) consiste en la variedad de habilidades cognitivas, fisiológicas y conductuales que permiten a un individuo monitorizar y modular la ocurrencia, duración, intensidad, expresión de emociones y activación de cada persona (Cole & Michel, 1994; Eisenberg & Spinrad, 2004), con la finalidad de cumplir con las demandas situacionales (Gross JJ, 2007), conseguir adaptación social o unos objetivos personales (Eisenberg & Spinrad, 2004).

Habitualmente, una RE saludable se caracteriza por la regulación al alza de las emociones positivas y una regulación a la baja de las emociones negativas. Una regulación a la baja de las emociones que utiliza habitualmente estrategias mal adaptativas (como la evitación, la supresión expresiva, la negación y la rumiación negativa), se asocia a emociones negativas. El uso habitual de estrategias como la reevaluación cognitiva, la resolución de

problemas y la aceptación es más adaptativo, y se relaciona con la reducción del afecto negativo. Por otro lado, la regulación de las emociones positivas a través de estrategias como la rumiación positiva, saborear experiencias positivas y compartir eventos positivos se asocia con un mayor afecto positivo (Cai et al., 2018). Los componentes de la regulación emocional son el componente reactivo (umbrales de reacción, latencia, intensidad y tiempo de recuperación) y el componente regulador (uso de estrategias de afrontamiento y de regulación conductual) (Keluskar et al., 2021; Mazefsky et al., 2013). Cuando el proceso de regulación emocional está alterado hablamos de desregulación emocional (DE).

En las personas con TEA la DE es habitual y está presente ya durante el primer año de vida (Mazefsky et al., 2013; Cai et al., 2018; Cibralic, et al., 2019). Existe una elevada frecuencia de DE en niños con TEA (entre 50 % y el 80 %) (Keluskar et al., 2021). Se ha descrito que la presencia de TEA en niños, incrementa la probabilidad de presentar un elevado grado de síntomas emocionales, observándose una odds ratio de 7.81 (Totsika et al., 2011; Conner et al., 2021).

La desregulación emocional en TEA puede contribuir al deterioro del funcionamiento psicosocial (Jahromi et al., 2013). En concreto, se ha asociado negativamente con el desempeño académico, las habilidades sociales, la participación social con iguales, el ajuste social, entre otros (Cai et al., 2018). Además, se ha asociado a una mayor probabilidad de presentar trastorno psiquiátrico (siendo frecuente la ansiedad) y hospitalizaciones (Cai et al., 2018; Conner et al., 2021).

1.5.2 Condicionantes de DE en TEA

Diversas características del TEA pueden condicionar la presencia de DE en TEA (Cibralic et al., 2019):

- Dificultad para entender, interpretar y manejar las emociones y estados mentales propios y de los demás (alexitimia y teoría de la mente), dificultad para reconocer sus percepciones e integrar la información proveniente de su mundo interno y externo (Hervás, 2017; Sofronoff et al., 2007).
- La alteración en las funciones ejecutivas y la dificultad para cambiar el foco de atención. (Sofronoff et al., 2007; Keluskar et al., 2021; Cai et al., 2018).
- Comorbilidad psiquiátrica y médica, alteración del sueño y la alimentación (Keluskar et al., 2021; Stark et al., 2015).
- Alteración funcional y estructural de la amígdala, que está asociada con el

reconocimiento y regulación de las emociones. (Sofronoff et al., 2007)

- Desarrollo de un apego atípico (Keluskar et al., 2021)
- Deficiencias en el lenguaje y la comunicación que interfieren con la capacidad de expresar estados biológicos (p. ej., hambre, dolor), estados emocionales (p. ej., ira, tristeza) y eventos/experiencias (Keluskar et al., 2021).
- Escasas habilidades sociales, cognitivas y motoras (Stark et al., 2015).
- Aumento del arousal que se relaciona con la ansiedad (Mazefsky et al., 2013).

1.5.3 Manifestación de la desregulación emocional en el TEA

Los individuos con TEA, presentan respuestas emocionales pobremente diferenciadas, exhiben afecto más negativo (ansiedad e ira) y menos positivo, experimentan las consecuencias fisiológicas de la emoción con insight limitado (Mazefsky et al., 2013) y les cuesta más volver a su estado emocional basal (Mazefsky et al., 2014).

La desregulación emocional desemboca en dificultades en el manejo del estrés y la ira, que puede manifestar como conductas disruptivas (28–62% de prevalencia) (agresividad, impulsividad, rabietas, arrebatos, agitación y conducta autolesiva), como irritabilidad, fluctuación anímica y ansiedad (prevalencia del 29–84%) (De Bruin et al., 2007; Keluskar et al., 2021; Samson et al., 2014), presencia y mayor gravedad de los síntomas de internalización y externalización (Cai et al., 2018). La relación entre DE y ansiedad ha sido ampliamente estudiada (Mazefsky et al., 2014; Swain et al., 2015; Bruggink et al., 2016; Cai et al., 2018; Conner et al., 2020). La ansiedad en el autismo puede estar favorecida además por los problemas de interacción social, las limitaciones cognitivas, la sobrecarga sensorial (Juijias et al., 2017; Joosten & Bundy, 2010), la intolerancia a la incertidumbre o los cambios en las rutinas, entre otros (Spiker et al., 2012; Wigham et al., 2015).

En cuanto al uso de estrategias de regulación emocional, la revisión de Cai et al. (2018) encuentra resultados contradictorios (probablemente debido a diferencias en cuanto a edad, género o CI). Sin embargo, la mayoría de los estudios describen en el TEA un mayor uso de estrategias desadaptativas y/o un menor uso de estrategias adaptativas, como un menor uso de la reevaluación cognitiva y mayor uso de la rumiación, supresión, resignación y evitación (Samson et al., 2012; Jahromi et al., 2013; Cai et al., 2018). Las personas con TEA también presentan dificultad en la regulación de emociones positivas, experimentan menos diversión y menos intentos de regularla (Samson et al., 2015). En cambio, en TEA, el uso de la evitación, que en principio es una estrategia desadaptativa, se correlaciona

negativamente con la presencia de depresión (Cai et al., 2018).

1.5.4 Bases neurobiológicas de la DE

1.5.4.1 Bases neurofisiológicas

La DE en TEA puede estar facilitada por un elevado nivel de arousal. Esta dificultad significativa en la modulación de la excitación (arousal) en TEA, ha sido hallada en algunos estudios que evidencian una mayor respuesta de sobresalto (basal, ante contextos amenazantes y ante procesamiento estímulos sociales y positivos), una mayor respuesta de la conductancia de la piel, menor arritmia del seno respiratorio y menor tono vagal basal (indica disminución de respuesta parasimpática en reposo). Los resultados en medidas de pupilometría y cortisol son contradictorios (Mazefsky et al., 2013) (Anzalone, & Williamson, 2000). Por otro lado, la revisión sistemática de Cibralic et al (2019) encuentra sólo 2 estudios de suficiente calidad sobre reactividad fisiológica durante el desempeño de una tarea de RE y no hayan relación entre respuestas de arousal y RE en niños con TEA (Cibralic et al., 2019).

1.5.4.2 Bases neuroanatómicas y moleculares.

El arousal está regulado por conexiones entre el sistema reticular ascendente del tronco encefálico y el sistema límbico, incluida la amígdala y el tálamo y lóbulos parietales, y hay evidencia de deficiencias en la conectividad funcional y estructural entre el tronco encefálico y el sistema límbico en TEA (White et al., 2014; Mazefsky et al., 2014).

La alteración en el procesamiento emocional en TEA implica además deficiencias en diversos circuitos incluido el córtex prefrontal medial (mPFC), corteza cingulada, corteza orbitofrontal, la ínsula, la amígdala y el estriado (media la recompensa); áreas que muestran diferencias respecto a grupos con DT en la activación neuronal durante la ejecución de tareas (White et al., 2014; Mazefsky et al., 2013; Hervás, 2017).

Los sistemas neuronales que rigen la RE, siguen un circuito bidireccional "de arriba hacia abajo" y "de abajo hacia arriba". El circuito de abajo hacia arriba se refiere al procesamiento de información desde la amígdala a los centros corticales, como la ínsula anterior (AI) y la corteza prefrontal (PFC). Este circuito media procesos relativamente automáticos asociados a estímulos. El miedo y la experiencia emocional negativa se procesarían por esta vía (mediado por la amígdala e ínsula respectivamente). La afectación de este circuito y la reducción de la habituación de la amígdala a estímulos, podría explicar la DE y también

la hiperreactividad sensorial a estímulos en TEA. El procesamiento de arriba hacia abajo se refiere a las señales que irían desde centros corticales como AI y PFC hacia la amígdala. Se relacionaría con una respuesta más controlada, independiente de los estímulos, como sucede con la ansiedad, la supresión de afecto negativo, la rumiación y la inflexibilidad cognitiva (Hervás, 2017).. Existen evidencias de un patrón atípico de estos circuitos en TEA (Kohn et al., 2014; Lim, 2020). Se ha observado en adolescentes o adultos TEA con alteraciones emocionales que, como mecanismo de regulación emocional, en lugar de activar las áreas dorsales del cíngulo anterior (AAC) (relacionadas con funciones ejecutivas más cognitivas), siguen activando las áreas ventrales del ACC (relacionadas con funciones ejecutivas más emocionales, que son las que se activarían en la infancia). Los múltiples hallazgos de alteración de la sustancia gris y blanca, también podría explicar los patrones anómalos en estas vías (Mazefsky et al., 2013; Hervás, 2017).

Se han observado niveles más bajos de GABA en la corteza cíngula anterior (ACC), que como se describe arriba, es una región del cerebro responsable de la regulación emocional (Péter et al., 2017).

1.6 Conducta repetitiva, desregulación emocional y alteración de la reactividad sensorial

En la tabla I se recoge un resumen de los artículos que revisan la asociación de EM, DE y alteración sensorial.

Tabla I. Estudios de asociación de estereotipias motoras, desregulación emocional y alteración de la respuesta sensorial

Estudios que relacionan EM y DE							
AUTOR	N	GENERO	EDAD	GRUPOS	MEDIDA	HALLAZGO EM	OTRO HALLAZGO
Martinez et al. 2021	239	57 F	niños y adolescentes	TEA (cualquier CI)	RBS-R, SCQ-B, SERS	CRSM no se asocia a DE	CRSM se asocia a comunicación social
Estudios que relacionan EM y SENS							
AUTOR	N	GENERO	EDAD	GRUPOS	MEDIDA	HALLAZGO EM	OTRO HALLAZGO
Baranek et al. 1997	28	3 F	7 a 14 años	DI y TEA	SBC, TDDT, FACE-HAB TIP	HRS táctil no se asocia a EM	HRS táctil se asocia a IC/III y no a estereotipias con objetos

Boyd et al. 2009	61 vs 64	4 F	6 a 17 años	AF-TEA vs TD	SEQ, RBS-R, BRIEF	CRSM se asocia a SENS, no a FE	SENS se asocia a compulsiones. SENS no se relaciona con FE. Subescala de FE se asocia a con CIRR.
Gal et al. 2010	221	92 F	6 a 13 años	TEA vs déficit visual vs déficit auditivo vs TD	SSP, SSIMI	SENS predice N° EM en todos los grupos. El diagnóstico TEA predice prevalencia EM. TEA+SENS+ bajo CI predice aumento EM. En TEA, HOS predice 17% varianza EM	
Boyd et al. 2010	67 vs 42	11 F	niños	TEA vs RD	RBS-R SEQ SP SPA TDDT-R	HOS, HRS relación con CRSM.	HRS predice CIRR. HRS relación con compulsión y II. BS relación con IS. HOS y BS no se asocia a CIRR.
Schulz et al. 2018	49 vs 65	41 F	6 a 20 años	TEA vs TD	SP-2 RBQ-2	HRS se asocia y predice EM	HRS total y por modalidad sensorial se asocia a CIRR total y por subdominios de CIRR. HRS predice CIRR. Diagnóstico TEA no predice CIRR. CI es predictor de todas las CIRR.
Fetta et al. 2021	50	11 F	3 a 15 años	TEA cualquier CI	SSP RBS-R	HRS visual/auditiva e BS y total SSP se asocia a CRSM	HRS visual/auditiva se asocia a II. Total SSP se asocia a total RBS-R. CI y género influyen en SSP y RBS-R

Púrpura et al. 2022	25 vs 18	6 F/2F	2 a 5 años	TEA vs SPD	DP-3, SPM-P, RBS-R	CRSM se asocia a SENS total, SENS Visión, oído y tacto.	Asociación entre SENS y II y IC. Ambos grupos muestran asociación entre SEN y CIRR, aunque es más severo en TEA. SENS afecta al desarrollo.
---------------------	----------	--------	------------	------------	--------------------	---	---

Estudios que relacionan DE y SENS

AUTOR	N	GENERO	EDAD	GRUPOS	MEDIDA	HALLAZGO DE	OTRO HALLAZGO
Feldman et al. 2020	50/50	13 F/13 F	8 a 18 años	TEA vs TD	RBS-R SP SRS BASC	Internalización se asocia a HRS. Ansiedad, depresión se asocia a HOS, HRS, BS	Lenguaje se asocia a BS. CIRR se asocia a HOS, HRS, BS
Tseng et al. 2011	67	23 F	Niños	TEA	CBCL SP-2	Internalización se asocia a HRS, ES, BS, HOS. Externalización se asocia a HRS, ES, BS.	
Gonthier et al. 2016	148 vs 148	33 F	19 a 59 años	DI-TEA vs TD	AASP, BDSI, EPOCAA	Cluster HRS e HOS: menos labilidad y euforia. Cluster BS: más ansiedad, trast. emocional, irritabilidad agresividad, expresión de afectividad.	HOS, HRS y ES se asocia a CIRR. Cluster noSENS tiene menos CIRR

Estudios que relacionan EM, DE y SENS

AUTOR	N	GENERO	EDAD	GRUPOS	MEDIDA	HALLAZGO EM	OTRO HALLAZGO
-------	---	--------	------	--------	--------	-------------	---------------

Samson et al. 2014	56 vs 38	9 F	6 a 16 años	TEA (cualquier CI) vs TD	SRS RBS-R SSP CBCL-EDI	TEA tienen más DE y severidad de CRSM que TD. DE se asocia a CRSM	En TEA la DE se asocia a CIRR total y con cada subescala CIRR. CIRR total son las únicas que predicen DE. La DE se asocia a BS y filtro auditivo
Tillman et al. 2020	332	95 F	6 a 31 a	TEA (cualquier CI)	SSP, ADOS, SRS, RBS-R, DAWBA, DSM-5 rating scale (TDAH), VABS	Grupos SEN severo y moderado presentan más CRSM que el leve	Grupo SEN severo, moderado y leve difieren entre algunos grupos en otras CIRR compulsiva y rituales/II

Estudios que relacionan EM, ansiedad y SEN

AUTOR	N	GENERO	EDAD	GRUPOS	INSTRUMENTO	HALLAZGO EM	OTRO HALLAZGO
Lidstone et al. 2014	49	4 F	3 a 17 años	TEA con ansiedad vs TEA sin ansiedad	RBQ-2 (EM/II) SCQ SAS SP	EM se asocia a ES y BS. Grupo con ansiedad/sin ansiedad no difieren en EM. EM no se asocia a ansiedad.	II se asocia a todos los cuadrantes SENs. Asociación II-ES-HRS-ansiedad
Wigham et al. 2015	53	6 F	8 a 16 años	AF-TEA	SRS SSP SCAS IUS RBQ	HOS predice CRSM (efecto directo). HOS e HRS predicen CRSM (efecto indirecto de IU + ansiedad)	HRS e HOS se asocian a II.
Glod et al. 2019	19 vs 16	3 F	4 a 9 años	TEA y Williams	SP, SCAS, PAS, ASC-ASD, RBQ, SRS-2	HRS se asocia a CRSM (efecto directo). HRS se asocia a CRSM (efecto indirecto de IU+ansiedad)	SENS asociación directa CIRR sólo en TEA. HOS asociación con II (efecto indirecto de ansiedad e IU + ansiedad)

Hwang et al. 2020	176 vs 116	109 F	Adultos	TEA vs TD (sólo 8 con DI)	IUS-12, GSQ, GAD, RBQ-2	CRSM se asocia a ansiedad, IU (débil), HOS (débil), HRS. IU no media la relación entre ansiedad y CRSM	CIRR y II se asocian a ansiedad, IU, HOS, HRS. IU media relación ansiedad y II.
-------------------	------------	-------	---------	---------------------------	-------------------------	--	---

Ver apartado de abreviaturas.

1.6.1 Conducta repetitiva y regulación emocional

En los individuos con TEA, la DE se ha relacionado con todos los síntomas nucleares del autismo, pero la asociación más potente se observa con las CIRR, siendo el único factor predictor significativo de desregulación emocional según el estudio de Samson et al. (2014). En este estudio, las CRSM correlacionaban positivamente con la DE (también el resto de CIRR) (Samson et al., 2014). En el estudio de Martínez et al. 2021, en cambio, se observa que la DE no está asociada a CRSM, pero sí a las autolesiones. No obstante, demuestran que las CRSM influyen moderadamente en la relación entre la RE y la comunicación social. Existen otras publicaciones que describen relación entre la DE con CIRR en general pero no estudian las EM (Joshi et al., 2018; Tsai et al., 2020; Greenlee et al., 2021) y otros, como Conner et al. (2020), no encuentran asociación de DE con CIRR (Conner et al., 2020).

La ansiedad se ha asociado a la desregulación emocional, como se ha descrito en el punto 1.5.3. Numerosos estudios demuestran asociación entre ansiedad y CIRR en general (Sukhodolsky et al., 2008; Gotham et al., 2013; Lidstone et al., 2014; Rodgers et al., 2012; Conner et al., 2020; Joyce et al., 2017) y con EM en particular (Sukhodolsky et al., 2008; Joosten et al., 2009; Samson et al., 2014; Joyce et al., 2017; Wigham et al., 2015). Otros autores, en cambio, no encuentran asociación entre EM y ansiedad (Lidstone et al., 2014) o encuentran una asociación con ansiedad sólo en el grupo de pacientes no ansiosos y no en el grupo de pacientes con criterios de trastorno de ansiedad (Rodgers et al., 2012). También se ha encontrado asociación de ansiedad con otros tipos de CIRR de alto nivel (Gotham et al., 2013; Joyce et al., 2017; Rodgers et al., 2012; Samson et al., 2014; Lidstone et al., 2014; Wigham et al., 2015).

La naturaleza de esta asociación puede entenderse desde una base neurobiológica que apunta a que puede existir una vulnerabilidad genética común que contribuya tanto a la expresión emocional de la ansiedad como a los comportamientos repetitivos dentro del mismo fenotipo clínico de TEA (Gadow et al., 2010) y a una alteración en los circuitos cerebrales que sería responsable de la aparición de ambas manifestaciones. Por ejemplo, la afectación de la amígdala se ha asociado tanto a las respuestas emocionales como al comportamiento repetitivo en el autismo (Boyd et al., 2010). Además existen estudios que describen una alteración en el eje hipotálamo-hipofisario-adrenal en niños con TEA y se ha observado una asociación entre conductas estereotipadas y un aumento del nivel de cortisol, como medida de estrés (Bitsika et al., 2015; Bitsika et al., 2018; Lewandowska et al., 2021)

Por otro lado, la presencia más allá de los 6 años de las conductas estereotipadas, en niños con TEA, podría entenderse como respuestas inmaduras mantenidas en el repertorio conductual, como un mecanismo de adaptación, de regulación emocional o de la ansiedad (Boyd et al., 2010; Hervás, 2017), dado que otras capacidades cognitivas tardarán más en aparecer (Leekam, Prior & Uljarevic, 2011; Ray-Subramanian & Weismer, 2012). Las conductas estereotipadas tendrían como objetivo favorecer un cierto control sobre el ambiente, haciendo el mundo más previsible (Wigham et al., 2015; Kargas et al., 2015; Joosten et al., 2009; Jiuujias et al., 2017). Se ha descrito una asociación entre CIRRR de alto nivel con la ansiedad mediada por la intolerancia a la incertidumbre (Joosten & Bundy, 2010; Wigham et al., 2015; Lidstone et al., 2014; Neil et al., 2016), pero también se ha encontrado esta asociación con EM (Wigham et al., 2015).

1.6.2 Alteración sensorial y conducta repetitiva

La literatura científica muestra que las alteraciones sensoriales y las conductas estereotipadas coexisten (Kargas et al., 2015; Gabriels et al., 2008; Feldman et al., 2020; Fetta et al., 2021; Boyd et al., 2010).

Se ha encontrado una relación positiva entre diferentes tipos de conductas repetitivas y cada uno de los patrones sensoriales en autismo: HRS, HOS, BS y ES pero los resultados son mixtos (Glod et al., 2015).

Así, la HRS se ha asociado con todos los tipos de conducta repetitiva. Varios autores

encuentran asociación de HRS tanto con EM como con CIRR de alto nivel (Boyd et al., 2010; Wigham et al., 2015; Schulz & Stevenson, 2018; Fetta et al., 2021). Otros estudios relacionan también la HRS con CIRR de alto nivel (Chen, Rodgers & McConachie, 2009; Zetler et al., 2022).

Diversos autores describen una asociación directa de la HOS a un incremento de EM (Wigham et al., 2015; Gal et al., 2010; Fetta et al., 2021) y también a II (Wigham et al., 2015). Otros, en cambio, no encontraron relación entre EM y HOS (Boyd et al., 2010).

Los resultados de la asociación entre BS y EM son controvertidos. Un estudio encuentra relación (Fetta et al., 2021) y otro describe resultados negativos (Boyd et al., 2010).

Además, en un mismo individuo pueden coexistir diversos patrones sensoriales y conductas repetitivas (Anzalone & Williamson, 2000). Por otro lado, el tipo de expresión de comportamientos sensoriales y estereotipados depende del contexto. Así, se han observado diferencias en la frecuencia de aparición de EM en individuos con TEA en función de la exposición a estímulos aversivos, atractivos o neutros (Gal et al., 2002). Baranek et al. (2013) describieron que los comportamientos de HOS eran más frecuentes en respuesta a estímulos sociales (Baranek et al., 2013). Kirby et al. (2017) observaron en el contexto natural del hogar, que las respuestas HRS estaban más asociadas con las actividades de la vida diaria y estímulos iniciados por la familia, mientras que las conductas de BS (algunas de ellas con EM) se asociaron con actividades de juego libre y estímulos iniciados por los propios niños. En estas últimas conductas intervenían múltiples modalidades sensoriales simultáneamente (Kirby et al., 2017b).

Estudios en niños con alto riesgo de TEA (HR-TEA) y con TEA en edad preescolar indican que la asociación entre la mayoría de tipos de alteraciones sensoriales y EM (y otras CIRR) ya se detectan en la primera infancia en niños con TEA (Purpura et al., 2022; Wolff et al., 2019). La presencia de HRS y HOS en estadios precoces en niños HR-TEA, predice la severidad de CIRR en primera infancia (Grzadzinski et al., 2020).

Diversos hallazgos neurobiológicos pueden sustentar esta asociación. Se ha identificado ya a los 6 meses de vida, una alteración en sustancia blanca a nivel del cuerpo calloso y cerebelo, que predice la aparición posterior tanto de CIRR como de síntomas sensoriales

(Wolff et al., 2017). Shafer et al. (2017) consideran que las EM se mantienen en el tiempo debido a una pobre integración de la información sensoriomotora que impide el desarrollo de los movimientos complejos que en un desarrollo típico, con la maduración y la experiencia, sustituirían a estas conductas (Shafer et al., 2017). Además, el hecho de que la alteración en la respuesta sensorial y las EM sean más prevalentes y severas en el TEA que en personas con discapacidad intelectual o déficits sensoriales, parece indicar que en el TEA la alteración en la integración sensorial representa sólo una faceta de un problema más global de integración de la información (Gal et al., 2010; Robertson & Baron-Cohen, 2017). Por otro lado, McCarty & Brumback (2021) observaron que las personas con TEA tienen una sincronía anormal entre las señales rítmicas cerebrales sensorial y motora, tanto en reposo, como durante la actividad. y plantearon la hipótesis de que las EM contribuirían a mejorar el procesamiento sensorial y la atención mediante la regulación de los ritmos cerebrales a través del efecto directo o indirecto (feedback sensorial) del movimiento repetitivo (McCarty & Brumback, 2021) Dantzer et al. (1986) y Boyd et al. (2010) proponían una ausencia de control inhibitorio normal por parte de las funciones nerviosas superiores, de manera que las EM pueden reflejar la actividad de estructuras cerebrales inferiores (Boyd et al., 2010; Dantzer, 1986). Un estudio de respuesta motora y verbal ante ejecución de tareas observó una baja capacidad de inhibición de la respuesta en reacción a la información visual presentada y una baja capacidad de cambio de tarea ante la información auditiva que fue predictiva de CRSM en TEA. (Mostert-Kerckhoffs et al., 2015)

La hiporreactividad sensorial favorecería la aparición de EM como mecanismo de autoestimulación o búsqueda sensorial (BS) (Dunn, 1997; Joosten et al., 2009), ya que el feedback positivo de la estimulación sensorial generada por las EM llevaría a la sensibilización de estructuras cerebrales inferiores y a alcanzar un nivel de arousal más óptimo (cuando el arousal está reducido) (Dantzer, 1986). Por otro lado, las conductas estereotipadas funcionarían como un mecanismo compensatorio en respuesta a determinados estados de elevado arousal provocados por la HRS (Boyd y McDonough, 2012; Schulz & Stevenson, 2018).

1.6.3 Desregulación emocional y alteración de la respuesta sensorial

Existen pocos estudios que describen algunas de las expresiones de la desregulación emocional en su relación con cada tipo de la respuesta sensorial.

Se ha observado una asociación tanto de la HRS como de la HOS con la internalización, con la ansiedad/depresión, con una menor labilidad y euforia. La HRS también se relaciona con la externalización. La HOS se asocia a algunas dimensiones del temperamento (capacidad de adaptación, distraibilidad, reactividad) y a desregulación emocional. La BS se asocia a mayor internalización, externalización, ansiedad/depresión, trastorno emocional, irritabilidad, agresividad y mayor expresión de la afectividad. La ES se asocia a la internalización y externalización. Sin embargo, estos hallazgos difieren según los estudios (Feldman et al., 2020; Tseng et al., 2011; Gonthier et al., 2016; Glod et al., 2015; Istvan et al., 2020). Existen numerosos estudios que relacionan la HRS con un aumento de los síntomas de ansiedad (Pfeiffer et al., 2005; Ben-Sasson et al., 2009; Joosten & Bundy, 2010; Green, Ben-Sasson & Soto TW, 2012; Mazurek et al., 2013; Horder et al., 2014; Neil et al., 2016; MacLennan et al., 2020). Se ha observado que la HRS predice la ansiedad (Green, Ben-Sasson & Soto, 2012; Wigham et al., 2015) y también las CRSM por mediación de la ansiedad y la intolerancia a la incertidumbre (Wigham et al., 2015).

La asociación entre DE y la HRS se podría explicar por una falta de habituación a estímulos por parte de la amígdala. (Lim, 2020). Además, se ha encontrado una fuerte relación entre el procesamiento interoceptivo y los estados emocionales (alexitimia, ansiedad y depresión). Esto puede conducir en última instancia a una regulación emocional atípica en TEA (Proff et al., 2022).

1.6.4 Estereotipias motoras, desregulación emocional y alteración en la respuesta sensorial

Sólo dos publicaciones estudian conjuntamente estas 3 manifestaciones. Samson et al, 2014, en niños y adolescentes TEA, en un análisis de regresión múltiple, encuentran que sólo las CIRR en general, y no la sensibilidad sensorial, predicen la DE. Sin embargo, encuentra, por separado, que las CRSM se asocian a DE, a BS y a filtro auditivo. Tillman et al. (2020) encuentra que los grupos con una alteración de respuesta sensorial leve tienen una menor prevalencia de CRSM, inatención y ansiedad (Tillmann et al., 2020).

Hay otros estudios que relacionan los problemas emocionales, la alteración de la respuesta sensorial y las CIRR en general y describen una mayor prevalencia de CIRR en relación con la presencia de HRS, ES, HOS y BS (Gonthier et al., 2016; Feldman et al., 2020).

La asociación entre alteración de la reactividad sensorial, las CRSM y la ansiedad ha sido descrita también en diversos estudios. Se ha observado asociación entre ansiedad y

ambos patrones de HRS e HOS (Lidstone, et al., 2014; Hwang et al., 2020). Lidstone et al. (2014) no encuentran asociación entre ansiedad y CRSM (Lidstone, et al., 2014) a diferencia de otros autores (Wigham et al., 2015; Hwang et al., 2020). Tanto la HOS como la HRS se pueden asociar directamente con CRSM. A su vez, la HRS también se asocia indirectamente a CRSM por mediación de la IU y ansiedad (Wigham et al., 2015; Glod & Riby, 2019). Hwang et al. (2020), en cambio no encuentran que la IU medie la relación entre ansiedad y CRSM (Hwang et al., 2020).

La asociación de las CRSM y la ansiedad podría explicarse a nivel neurobiológico por la implicación de circuitos cerebrales comunes como la amígdala, los ganglios basales, el núcleo accumbens, el córtex prefrontal (Ben-Sasson & Stephenson, 2021). Por otro lado, la HRS se relaciona con una mayor activación de la corteza primaria sensorial, pero también con la activación de la amígdala, el hipocampo y córtex orbitofrontal (circuitos implicados en la regulación emocional). La reducción en la habituación de la amígdala ante estímulos aversivos podría estar en el origen de la HRS. La amígdala se ha asociado tanto a las respuestas emocionales como al comportamiento repetitivo en el autismo (Boyd et al., 2010; Green et al., 2015; Lim, 2020). Otros mecanismos de vulnerabilidad común descritos son los genéticos; en concreto, los genes que expresan el receptor de la adenosina A2A (ADORA2A), el factor neurotrófico cerebral (BDNF), transportador de glutamato (SCL1A1), se han encontrado asociados a ansiedad y CRSM (Ben-Sasson, & Stephenson, 2021).

El contexto social y el ambiente imprevisible, que resulta confuso por los problemas de integración sensorial, genera ansiedad. Tanto esta ansiedad secundaria, como la ansiedad basal aumentan el nivel arousal, lo que impide una regulación emocional efectiva, favorece la atención selectiva y la focalización de la atención en estímulos negativos. Esto genera experiencias sensoriales aversivas que se traducen en HRS, lo que dispara más aún la ansiedad. Además, a través del condicionamiento, un estímulo condicionado impredecible, que inicialmente era neutro, causará ansiedad en ausencia del estímulo inicial (Ben-Sasson & Stephenson, 2021). Secundariamente (al menos en individuos con TEA-DI) aparecen las CRSM, que funcionan como estrategia efectiva de evitación de la sobrecarga sensorial y la ansiedad, en un intento de aumentar la sensación de control sobre el cuerpo y el espacio físico inmediato, en ausencia de otras estrategias de afrontamiento más efectivas, con lo que se consigue regular el arousal y reducir la ansiedad (Williams et al., 2021; Ben-Sasson, & Stephenson, 2021). El hallazgo de Lidstone et al (2014), que encuentra relación de EM

con la evitación sensorial y no con la ansiedad, podría ser consecuencia de este mecanismo homeostático (Lidstone, et al., 2014). En cambio, la insistencia en la invarianza (II) sería una estrategia desadaptativa que mantiene la ansiedad por refuerzo negativo.

1.7 Otros factores que influyen en las conductas estereotipadas

La presencia de EM en relación a la DE y la ansiedad y alteración sensorial puede estar modulada por factores clínicos y sociodemográficos, como la edad, el nivel de inteligencia, el género y las funciones ejecutivas (Williams et al., 2018).

Tanto las CIRR como la alteración en la capacidad de respuesta sensorial y las dificultades en la regulación emocional se detectan ya desde edad preescolar (parecen estar desde entonces estrechamente asociados) y puede persistir en la adolescencia o edad adulta en personas con TEA (Leekam, Prior & Uljarevic, 2011; Esbensen et al., 2009; Feldman et al., 2020; Garon et al., 2016; Cibralic, et al., 2019; Mazefsky et al., 2014). Sin embargo, sus formas de presentación van variando con la edad y en función de otros factores.

1.7.1 Factores que influyen sobre las CIRR

Se ha observado que las CIRR de bajo nivel son más frecuentes en individuos cronológicamente más jóvenes, con mayor retraso en el desarrollo, menor capacidad motora y mayor severidad de TEA, un deterioro más grave de la comunicación y socialización, mientras que los CIRR de alto nivel se encuentran con mayor frecuencia en personas más mayores, más sofisticadas cognitivamente y motrizmente (Berry et al., 2018; Grossi et al., 2021; Melo et al., 2019; Goldman et al., 2009) y que en cambio exhiben mayores niveles de ansiedad (Williams et al., 2021). La odds ratio para estereotipias motoras en individuos con TEA-DE respecto a TEA sin DI fue 2.5 (Melo et al., 2019). Aun así, las CIRR de bajo nivel aún se observan en individuos mayores con TEA cognitivamente capaces (Leekam, Prior & Uljarevic, 2011). Este patrón de reducción se debe, probablemente, al aumento de insight sobre la inadecuación social o a las terapias dirigidas a enmascarar estos comportamientos, o a que con el tiempo cambian a otras actividades que cubren sus necesidades de repetición (Hwang et al., 2020). Los resultados sobre la influencia del género respecto a las EM son mixtos, el metaanálisis de Melo no encuentra diferencias (Melo et al., 2019). La relación entre EM y Funciones Ejecutivas (FE) arroja resultados mixtos, posiblemente porque esta asociación se da ante demandas situacionales que implican la participación simultánea de varios componentes de las FE. La falta de control inhibitorio y de flexibilidad cognitiva simultáneamente se ha asociado a

CIRR en general y a CIRR de alto nivel (Cissne et al., 2022).

1.7.2 Factores que influyen sobre la reactividad sensorial

Respecto a alteración de la reactividad sensorial, el metaanálisis de Ben-Sasson et al. (2019) encontró una relación con la edad para HOS, HRS y BS. Destaca que la BS se va incrementando hasta los 6-8 años y luego decrece. La clasificación de individuos con TEA en subgrupos sensoriales también varía con la edad (Lane, 2021). No hubo relación de SENS con la capacidad intelectual, excepto para la BS (Ben-Sasson et al., 2019). En el metaanálisis de Werkman et al. (2022) tampoco se observó relación del CI con medidas globales de alteración de respuesta sensorial, pero algunos estudios encontraron relación entre DI y HOS, BS (Werkman et al., 2022) y HRS (Baranek et al., 2006). Otro estudio muestra que las personas con autismo con DI severa a profunda que presentan HOS, tienen más probabilidad de mostrar irritabilidad, agresión y autolesiones (Gonthier et al., 2016). Respecto al género, Ben-Sasson et al. (2019) no pudo realizar un metaanálisis debido a la falta de datos sobre mujeres y la proporción heterogénea de mujeres en los diversos estudios. (Ben-Sasson et al., 2019). El estudio de Bitsika et al. (2018) encontró una mínima diferencia entre hombres y mujeres (los hombres presentaban mayor flexibilidad de movimiento) (Bitsika et al., 2018). La gravedad de SENS parece estar directamente relacionada con la gravedad del TEA (y en concreto la HOS), el menor nivel de funcional, la disminución de conductas adaptativas y el deterioro de la comunicación social (Ben-Sasson et al., 2009; Lane et al., 2010; Williams et al., 2018; Grzadzinski et al., 2020). HOS y sobretodo BS, mostraron asociación significativa con la capacidad lingüística (Watson et al., 2011).

Tanto la HRS como la HOS, presentes ya desde primera infancia, pueden afectar directamente la coordinación motora y el control postural de los niños con TEA, que son necesarios, a su vez, para mejorar la capacidad para percibir información de su entorno. Los niños con TEA que tienen una sensibilidad al movimiento atípica generalmente responden demasiado a la información propioceptiva y vestibular, mientras que los niños con poca energía y respuestas motoras débiles tienen habilidades motoras finas y gruesas deficientes. Esto contribuirá a la aparición de problemas motores que se observarán en niños más mayores y en adultos (Bhat et al., 2011)

1.7.3 Factores que influyen sobre la desregulación emocional

.En población general la RE se va desarrollando y modificando desde la infancia a la edad adulta, aunque con un cambio desadaptativo durante la adolescencia (entre los 12 y 15

años) (Cai et al., 2018). En el caso del TEA, los niños expresan la DE en forma de CIRR de bajo nivel (Gal et al., 2002; Hervás Zúñiga, 2017; Sukhodolsky et al., 2008) mientras que, con la edad, en personas con TEA de alto funcionamiento, sin discapacidad intelectual, estas conductas se sustituyen por pensamientos rumiativos, repetitivos, de alto contenido emocional, conductas disruptivas, trastornos afectivos mayores y ansiedad (Hervás, 2017; Estes et al., 2007; Joshi et al., 2018). La influencia del género sobre las manifestaciones de la DE son controvertidos existiendo estudios en contra (Samson et al., 2015; Carter et al., 2007; Lai et al., 2011; Herring et al., 2006; Sukhodolsky et al., 2008) y otros a favor de diferencias entre ambos sexos (Markiewicz, Kaczmarek & Filipiak, 2020; Mandy et al., 2012; Szatmari et al., 2012; Hartley & Sikora, 2009; McLennan et al., 1993;). La discapacidad intelectual y las habilidades del lenguaje expresivo no parece influir en la prevalencia de DE en el TEA, según la revisión de Cibralic et al. (2019), pero sí puede influir en la manera de manifestarse. Así, se ha observado que puntuaciones más bajas de CI en niños con TEA se asocian con el uso de más estrategias de evitación (Cibralic et al., 2019) y las personas TEA-DI presentan mayores niveles de hiperactividad, irritabilidad y conductas estereotipadas (Estes et al., 2007) con respecto a los niños con mayor CI y habilidades del lenguaje, que manifiestan niveles más altos de ansiedad y depresión (Sukhodolsky et al., 2008; Witwer & Lecavalier, 2010; Estes et al., 2007; Weisbrot et al., 2005). La DE está claramente relacionada con la gravedad de los síntomas del TEA, cuando se mide con cuestionarios completados por cuidadores, pero los resultados son mixtos cuando se usan medidas observacionales (Cibralic et al., 2019). El nivel de ansiedad también aumenta con la severidad del autismo (Melo et al., 2019). En la explicación psicológica sobre la dificultad para regular las emociones en TEA, se han implicado los déficits en la teoría de la mente y la alteración de las funciones ejecutivas (dificultad para generar soluciones a problemas o afrontar demandas excesivas, desinhibición, impulsividad y falta de insight) y la alexitimia (Sofronoff, Attwood y Hinton, 2005; Hervás, 2017). Se ha observado que las personas con TEA con dificultades de control inhibitorio recurren a estrategias de RE menos adaptativas (Cibralic et al., 2019). La ansiedad se asocia con una dificultad en el control atencional y en la inhibición de respuesta, lo que conduce a CIRR (Williams et al., 2021).

JUSTIFICACIÓN

2 JUSTIFICACIÓN

Algunas publicaciones analizan globalmente la relación entre las CIRR y la alteración sensorial, pero la literatura revisada orienta a la conveniencia de estudiar los subtipos de cada constructo por separado. Además, los hallazgos de los diversos estudios revisados arrojan resultados contradictorios.

Sólo dos estudios relacionan simultáneamente CRSM, DE y alteración de la reactividad sensorial. En uno de ellos, la población de estudio son niños con TEA (Samson et al., 2014) y el otro no discrimina los diferentes cuadrantes sensoriales e incluye en la muestra niños y adultos (Tillmann et al., 2020). Los estudios revisados utilizan escalas o subescalas de conducta estereotipada, algunas de las cuales miden CRSM incluyendo ítems sensoriales, por lo que la asociación de estas conductas con los tipos de respuesta sensorial puede estar sobredimensionada.

Aunque el análisis factorial de las CIRR de la mayoría de los estudios separa dos grupos, siendo el de CRSM bastante consistente, las EM son las conductas más básicas que se pueden estudiar, con similitudes con modelos animales y síndromes genéticos, fenotipo más próximo a las alteraciones genéticas que puedan subyacer. Las EM son fácilmente observables y objetivables a nivel clínico, con una red neuronal identificable y reproducibles en modelos animales salvando las diferencias en cuando a funciones cognitivas superiores presentes en humanos (Keller et al., 2021). El mejor reconocimiento, descripción y clasificación de estereotipias es relevante para la planificación de la intervención y mejorar la investigación sobre localizaciones neuroanatómicas y mecanismos biológicos (Melo et al., 2019). Estudiar específicamente las estereotipias motoras permite, además, subsanar los problemas de clasificación de las CIRR (Young & Lim, 2021).

Se llevarán a cabo dos estudios en poblaciones de diferente edad. En un primer estudio describiremos la relación entre estereotipias motoras y desregulación emocional en una muestra de niños menores de 12 años. En un segundo estudio se analizará, en una muestra de adolescentes y adultos, la asociación entre las estereotipias motoras (en frecuencia y gravedad), la desregulación emocional y la alteración de la reactividad sensorial, en sus 3 patrones principales: HOS, HRS y BS.

HIPOTESIS Y OBJETIVOS

3 HIPÓTESIS Y OBJETIVOS

3.1 Objetivos

- Identificar la relación entre EM y DE.
- Identificar la relación entre EM y SENS.
- Describir la cualidad clínica de las EM.
- Describir las modalidades sensoriales más afectadas en cada cuadrante sensorial.
- Describir la evolución de las EM y DE con el tiempo.

3.2 Hipótesis

- Los sujetos TEA que presentan EM tendrán mayor DE que los que no presentan EM.
- Los sujetos TEA que presentan más gravedad y frecuencia de EM tendrán más SENS.
- Los sujetos TEA que presentan mayor SENS presentarán mayor DE.
- Las EM pueden ser explicadas conjuntamente por una mayor DE y una mayor SENS.
- Las EM son frecuentes y afectan diversas topografías.
- Las modalidades sensoriales más afectadas será la de nivel de actividad y movimiento.
- Las EM y la DE disminuyen con el tiempo.

**ESTUDIO 1. ASOCIACIÓN DE LAS ESTEREOTIPIAS MOTORAS
CON LA DESREGULACIÓN EMOCIONAL Y LA ANSIEDAD EN
NIÑOS CON TRASTORNO DEL ESPECTRO AUTISTA**

4 ESTUDIO 1. ASOCIACIÓN DE LAS ESTEREOTIPIAS MOTORAS CON LA DESREGULACIÓN EMOCIONAL Y LA ANSIEDAD EN NIÑOS CON TRASTORNO DEL ESPECTRO AUTISTA.

4.1 Objetivos e hipótesis

4.1.1 Objetivos

4.1.1.1 Objetivo principal

- Describir de la asociación entre EM y DE en niños TEA menores de 12 años, susceptibles de presentar conductas estereotipadas.

4.1.1.2 Objetivos secundarios

- Evaluar la relación de las EM con la ansiedad/depresión, inatención y conducta agresiva
- Investigar la relación entre otras CIRR y la DE en niños con TEA.

4.1.2 Hipótesis

4.1.2.1 Hipótesis principal

- El grupo de niños con TEA con EM frecuentes (EMF) tendrá más prevalencia de DE y ansiedad que aquellos niños con EM ocasionales o ausentes (EMA).

4.1.3 Hipótesis secundarias

- La ansiedad/depresión, la inatención y la conducta agresiva estarán asociados a EM en niños con TEA.
- Otras CIRR estarán asociadas a DE.

Este estudio puede proporcionar información útil para la definición de subtipos que faciliten el desarrollo y mejora de terapias específicas para el tratamiento del EM.

4.2 Materiales y métodos

4.2.1 Muestra y procedimientos

Un total de N=151 niños con TEA menores de 12 años (Edad media 7,14 \pm 2,12, 83,5% varones) fueron reclutados en el Servicio de Psiquiatría Infantil y Adolescente entre 2003 y 2017. Todos los participantes tenían un diagnóstico de TEA según el DSM-5 (Asociación Americana de Psiquiatría, 2013) y la Entrevista de Diagnóstico del Autismo Revisada (ADI-R) (Le Couteur, Lord & Rutter, 2006). La discapacidad intelectual se determinó mediante diagnóstico recogido de las historias clínicas de los pacientes, según criterios DSM-IV-TR ($CI \leq 70$) y cuantificado mediante las siguientes escalas: Pruebas de inteligencia para niños WISC-III y WISC-IV. (Wechsler, 1997; Corral, Arribas & Santamaría, 2005), escalas de aptitud y psicomotricidad McCarthy para niños (McCarthy, 2013), y escalas de evaluación de Kaufman para niños (K-ABC) (Conde & Seisdedos, 1997). El 18,8% de los participantes tenía discapacidad intelectual, el 39,7% presentaba retraso del lenguaje y el 29% tenía escasas habilidades lingüísticas (evaluadas mediante las pruebas psicométricas de CI, la ADI-R, y la entrevista clínica estructurada). Se excluyeron del estudio los niños con traumatismo craneal grave o discapacidades sensoriales graves relacionadas con el TEA (véase la tabla 1).

Se comparó la presencia de DE en un grupo de niños TEA con EM frecuente (EMF) con la de un grupo de niños TEA con EM ocasional o ausente (EMA).

Tabla 1. Descripción general de la muestra

Total muestra	
N=151	
Características sociodemográficas:	
Nivel social (Hollingshead, 1975)	
N(%) Alta/Media alta/media baja/trabajadora/baja	1(0.7)/23(16.9)/89 (65.4)/22(16.2)/1(0.7)
Edad	
Media (de)	7.14 (2.12)
Género	
N (%) Hombre/mujer	128(83.7)/25(16.3)
Características clínicas: N (%)	
Discapacidad intelectual ($IQ \leq 70$)	
Si/no	29(20.1)/115 (79.9)
Retraso en el lenguaje	
Si/no	60(39.7)/91(60.3)
Nivel del lenguaje expresivo	
No verbal o palabras /Frases simples/ Habla fluida	14(9.1)/30(19.8)/107(71)
Clasificación TEA según su funcionamiento:	
BF, AFRL, AFSRL, AFRLD, Otros TEA	26(16.9)/30(19.7)/65(43)/6(4.2)/24(16.2)

BF: Bajo funcionamiento, AFRL: Alto funcionamiento con retraso del lenguaje, AFSRL: Alto funcionamiento con retraso del lenguaje, AFRLD: Alto funcionamiento con retraso del lenguaje desconocido

4.2.2 Medidas:

Se utilizaron datos retrospectivos obtenidos en un estudio anterior para medir el EM, la DE y la ansiedad.

4.2.2.1 Instrumentos de medida:

Entrevista diagnóstica del autismo (ADI-R) versión española (Le Couteur, Lord & Rutter, 2006) es una entrevista semiestructurada de 93 preguntas dirigidas a los padres o cuidadores, cuyos resultados se organizan en 4 dominios que exploran el lenguaje/comunicación, las interacciones sociales recíprocas, las conductas restringidas, repetitivas y estereotipadas y los intereses y el desarrollo. El algoritmo de diagnóstico se utiliza para establecer puntos de corte para el autismo y los trastornos del espectro autista. *Child Behaviour Checklist (CBCL 4-18) versión española* (Sardinero & Pedreira, 1997) es una escala dirigida a los padres del sujeto a evaluar, con 113 ítems. Existen puntos de corte para considerar una conducta clínicamente significativa en cada una de las 8 subescalas (ansiedad/depresión, retraimiento/depresión, quejas somáticas, problemas sociales, problemas de pensamiento, problemas de atención, problemas de conducta y conducta agresiva) y de las 3 dimensiones superiores (internalización, externalización y total).

4.2.2.2 Variables del estudio:

Comportamiento restrictivo y estereotipado. La evaluación de la conducta restrictiva y estereotipada se realizó utilizando el algoritmo de diagnóstico de la puntuación del dominio C de la entrevista ADI-R (patrones de conducta restringidos, repetitivos y estereotipados). Las estereotipias motoras se evaluaron utilizando el valor C3 del algoritmo diagnóstico del ADI-R (Manierismos motores estereotipados y repetitivos). Se consideró que los niños TEA con valores de C3 ≥ 2 tenían EM frecuentes, mientras que los niños con C3 de 0 a 1 tenían EM ocasionales o ausentes. Este punto de corte se justifica por la necesidad de diferenciar una posible anomalía (puntuación 1) de una anomalía clara y frecuente (puntuación 2). El 32% de los pacientes presentaban estereotipias motoras frecuentes (EMF) y el 68% estereotipias motoras ausentes u ocasionales (EMA). Conductas motoras sensoriales repetitivas (CRSM) se evaluaron añadiendo los ítems del ADIR "preocupaciones inusuales", "uso repetitivo de objetos", "manierismos de manos y dedos", "otros manierismos complejos" e "intereses sensoriales inusuales", tal y como describen Richler et al. en su análisis factorial del dominio C del ADIR (Richler et al., 2007). Otros comportamientos repetitivos evaluados incluían patrones circunscritos de interés (C1),

compulsiones y rituales (C2) y preocupación por los objetos (C4), tal y como se describen en las subescalas ADIR. (Véase la tabla 2)

Tabla 2. Resultados ADI-R: Algoritmo diagnóstico, dominio C, ítems de estereotipias motoras y conductas repetitivas sensoriomotoras (CRSM).

Dominios ADI-R. Media (de)	Total muestra N=151
A. Alteraciones cualitativas de la interacción social recíproca (Punto de corte: 10)	15.44 (5.38)
B. Alteraciones cualitativas de la comunicación en sujetos verbales (Punto de corte: 8)	11.90 (3.96)
B. Alteraciones cualitativas de la comunicación en sujetos no verbales (Punto de corte: 7)	8.63 (4.03)
C. Patrones de conducta restringidos, repetitivos y estereotipados (Punto de corte: 3)	4.42(2.24)
D.Alteraciones en el desarrollo evidentes a los 36 meses o antes (Punto de corte: 1)	2.85(1.44)
Subdominios C e ítems C3 ADI-R	
C3. Manierismos motores estereotipados y repetitivos N (%)Frecuente/ocasional/ausente Media (de)	49(32)/36(23.5)/68(44.4) 0.87 (0.87)
77. Manierismos de manos y dedos N (%) Frecuente/ocasional/ausente	25(16.8)/16(10.7)/110(72.5)
78. Otros manierismos complejos o movimientos estereotipados del cuerpo N (%)Frecuente/ocasional/ausente	20(13.5)/33(21.6)/98(64.9)
C1. Preocupación absorbente o patrón de intereses circunscrito Media (de)	1.44 (1.02)
C2. Adhesión aparentemente compulsiva a rutinas o rituales no funcionales Media (de)	0.94 (1.11)
C4. Preocupaciones por partes de objetos o elementos no funcionales de los materiales Media (de)	1.27 (0.77)
Conductas repetitivas sensoriomotoras Media (de)	3.14(1.78)

ADI-R: Entrevista para el diagnóstico de autismo revisada.

Desregulación emocional (DE). El nivel de Desregulación emocional se obtuvo a partir de la suma de las subescalas de ansiedad/depresión, agresión e inatención del CBCL (CBCL-DP). Una puntuación CBCL-DP ≥ 180 se consideró el umbral de DE (Joshi et al., 2018; Biederman et al., 2009). Este perfil se ha utilizado en otros estudios de DE en TEA y otros trastornos (Keluskar et al., 2021; Mick et al. , 2011; Keefer et al., 2020). Según este criterio, el 57% de los participantes presentaban desregulación emocional (Véase Tabla 3).

Tabla 3. Resultados CBCL: puntuación y significación clínica de las subescalas AAA y total

CBCL significación clínica y puntuación	Total muestra N=151
Conducta agresiva	
N (%) Clínicamente significativo Si/No	16(10.6)/135(89.4)
Media (de)	58.75(8.62)
Ansiedad/depresión	
N (%) Clínicamente significativo Si/No	26(17.2)/125(82.8)
Media (de)	60.49(8.5)
Inatención	
N (%) Clínicamente significativo Si/No	60(39.1)/91(60.9)
Media (de)	66.99(10.05)
Desregulación emocional (CBCL-DP)	
N (%) Con DE/Sin DE*	86(57)/65(43)
Media (de)	186.23 (20.08)
Total	
N (%) Clínicamente significativo Si/No	64(42.4)/87(57.6)
Media (de)	61.77(8.47)

*CBCL-DP \geq 180: con DE; CBCL-DP $<$ 180: sin DE; DE: desregulación emocional; CBCL-DP: Child Behavior Checklist perfil desregulación. Subescalas AAA de la CBCL-DP: conducta agresiva, ansiedad/depresión, inatención.

Gravedad del TEA. El dominio A del ADI-R (Deterioro cualitativo en las interacciones sociales recíprocas) y el dominio B (Deterioro cualitativo en las comunicaciones) se utilizaron para evaluar la gravedad del TEA (Lefort-Besnard et al., 2020). Sólo se utilizaron las escalas no verbales del dominio B del ADI-R para evaluar a toda la cohorte (Véase la tabla 2).

Todas las evaluaciones fueron realizadas por psicólogos y psiquiatras experimentados con formación clínica y de investigación en el uso de la entrevista ADI-R. Se obtuvo el consentimiento informado para participar en el estudio de todos los cuidadores de los participantes. Este estudio fue aprobado por el Comité de Ética del Hospital Universitario Mútua de Terrassa.

4.2.3 Análisis estadístico

Se realizaron análisis de regresión considerando las estereotipias motoras o de otro tipo como variable dependiente y las subescalas ED y CBCL-DP como predictores, ajustando por edad, sexo, discapacidad intelectual y gravedad del TEA. Todos los análisis se realizaron utilizando el paquete estadístico SPSS (IBM, versión 22).

4.3 Resultados

4.3.1 Estereotipias motoras y desregulación emocional

Los análisis de regresión logística considerando EM como variable dependiente y DE, habilidades sociales y no verbales (gravedad del TEA), edad, género y discapacidad intelectual como variables independientes mostraron una asociación positiva entre EM y DE ($\beta = 0,92$, $p < 0,02$, OR = 2,52, 1,13 - 5,62). El género, la edad y la discapacidad intelectual no tuvieron impacto en la asociación. Se observó un efecto marginal de la reciprocidad social (dominio ADIR A) ($\beta = 0,08$, $p = 0,05$, OR= 1,09; 1-1.19) y no se encontró ningún impacto de la comunicación no verbal (dominio no verbal ADIR B) en este modelo, (Ver tabla 4), aunque el análisis de regresión logística univariante de estas medidas de severidad de TEA sobre EMF y EMA fueron significativas ($\chi^2 = 8,18$ $p = 0,04$ y $\chi^2 = 8,09$ $p = 0,04$, respectivamente).

Tabla 4. Regresión logística de la asociación estereotipias motoras frecuentes vs ausentes/ocasionales con la desregulación emocional (CBCL-DP).

Variables explicativas (n = 151)	β	Wald χ^2	Odds ratio Exp(B)	95% CI
Edad	-0.06	0.36	0.94	0.78-1.14
Género	0.52	0.84	1.68	0.55-5.16
Discapacidad intelectual	0.11	0.05	1.11	0.43-2.87
CBCL-DP (con/sin DE)	0.92	5.08*	2.52	1.13-5.62
Dominio ADIR A	0.08	3.68	1.09	1-1.19
Dominio ADIR B no verbal	0.04	0.29	1.04	0.90-1.20

* $p < 0.05$ CBCL-DP ≥ 180 : con DE; CBCL-DP < 180 : sin DE; DE: desregulación emocional; CBCL-DP: Child Behavior Checklist perfil desregulación

4.3.2 Estereotipias motoras y ansiedad, falta de atención y agresividad

La regresión logística considerando el SM como variable dependiente y las puntuaciones en el CBCL de ansiedad/depresión, inatención, agresividad y en los dominios no verbales ADIR A y B, la edad, el sexo y la discapacidad intelectual como variables independientes mostró una asociación positiva entre la presencia de SM y la ansiedad/depresión ($\beta = 1,11$, $p = 0,03$, OR = 3,03; 1,10-8,31) y la inatención ($\beta = 0,85$, $p = 0,04$, OR = 2,33; 1,05-5,16). No se detectó ninguna otra asociación significativa con este modelo (Véase la tabla 5).

Tabla 5. Regresión logística de la asociación estereotipias motoras frecuentes vs ausentes/ocasionales con las subescalas que conforman la CBCL-DP.

Variables explicativas (n = 151)	β	Wald χ^2	Odds ratio Exp (B)	95% CI
Edad	-0.11	1.01	0.89	0.73-1.11
Género	0.51	0.77	1.66	0.54-5.15
Discapacidad intelectual	0.12	0.06	1.13	0.43-2.97
Ansiedad/depresión CBCL	1.11	4.62*	3.03	1.10-8.31
Conducta agresiva CBCL	-0.59	0.77	0.55	0.15-2.08
Inatención CBCL	0.85	4.37*	2.33	1.05-5.16
Dominio ADIR A	0.08	2.92	1.08	0.99-1.18
Dominio ADIR B no verbal	0.04	0.21	1.04	0.89-1.21

* p<0.05; CBCL: Child behaviour Checklist.

4.3.3 Otros comportamientos estereotipados y desregulación emocional.

No se detectaron asociaciones significativas entre la DE y otros patrones de conducta restringidos, repetitivos y estereotipados (dominio C del ADIR y sus subescalas y CRSM) mediante análisis de regresión lineal (véase tabla 6).

Tabla 6. Regresión lineal univariante de la asociación de conductas repetitivas y restringidas total y de cada subtipo con la desregulación emocional (CBCL-DP).

Variables explicativas (n = 151)	B	Wald χ^2	p
C. Patrones de conducta restringidos, repetitivos y estereotipados	0.13	0.13	0.72
C1. Preocupación absorbente o patrón de intereses circunscrito	0.02	0.02	0.88
C2. Adhesión aparentemente compulsiva a rutinas o rituales no funcionales	0.03	0.03	0.86
C4. Preocupaciones por partes de objetos o elementos no funcionales de los materiales	-0.05	0.17	0.68
Conductas repetitivas y sensoriomotoras (CRSM)	0.17	0.34	0.56

4.4 Discusión

El objetivo del estudio era investigar la relación entre la presencia de estereotipias motoras o de otro tipo y la desregulación emocional en niños con TEA. Los resultados sugieren una asociación positiva entre la presencia de estereotipias motoras frecuentes (EMF) - y la desregulación emocional. No se detectó ninguna asociación con otras conductas estereotipadas y restrictivas. La edad, el sexo, la discapacidad intelectual y la gravedad del autismo no contribuyeron a las asociaciones observadas.

La desregulación emocional estaba presente en el 57% de los niños con TEA de nuestra cohorte, y el 14,65% presentaba DE grave. Se trata de un porcentaje inferior al observado por Joshi et al. (2018) (Joshi et al., 2018). Estos autores observaron DE en el 82% (44% grave) de una cohorte de 123 pacientes de 4-21 años sin discapacidad intelectual. Las diferencias de edad, de prevalencia de discapacidad intelectual y de la población diana de reclutamiento de la muestra (servicio clínico especializado) pueden explicar las discrepancias entre los estudios.

Los niños con estereotipias motoras frecuentes presentaron mayor prevalencia de desregulación emocional que los niños con EM ausente u ocasional. Nuestros resultados coinciden con dos estudios previos en los que se encontró una correlación positiva entre las CRSM y la DE (Samson et al., 2014; Joshi et al., 2018).

La edad, el sexo y la discapacidad intelectual no afectaron individualmente a la presencia de EMA o EMF en niños menores de 12 años en nuestro estudio. Un meta-análisis previo había informado de una mayor prevalencia de EM en relación con niños más pequeños (con algunos resultados controvertidos), discapacidad intelectual, peor comportamiento adaptativo y mayor gravedad del autismo, sin influencia del género (Melo et al., 2019). Sin embargo, esto no ocurre con las conductas repetitivas de orden superior, como la insistencia en la invarianza, en las que se observa una correlación positiva con la edad o el coeficiente intelectual (Hus et al., 2007; Szatmari et al., 2006; Cannon et al., 2010; Bishop et al., 2006; Richler et al., 2010). Las diferencias en las características clínicas de nuestra cohorte pueden explicar las discrepancias con estos estudios. Tampoco observamos la influencia de estos factores en la asociación entre DE y EMF. De hecho, la presencia de DE parece ser independiente de la capacidad intelectual, las habilidades de comunicación verbal y la edad en niños con TEA según varios estudios (Samson et al., 2014; Berkovits et al., 2017; Samson et al., 2012). Sin embargo, existe controversia en cuanto a la influencia del género. Varios autores no encuentran una asociación entre el género y la presencia de DE (Samson et al., 2014; Carter et al., 2007) u otros síntomas emocionales (Lidstone et al., 2014; Sukhodolsky et al., 2008; Lai et al., 2011; Herring et al., 2006). Otros estudios muestran que el género femenino se asocia con un mayor nivel de síntomas emocionales (Lai et al., 2011; Mandy et al., 2012; Szatmari et al., 2012) menor internalización (McLennan et al., 1993) y una mayor capacidad para controlar sus propias emociones que los varones (Markiewicz et al., 2020).

Se observó una asociación entre la presencia de EMF y las interacciones sociales recíprocas y las alteraciones de la comunicación (utilizadas como medida de la gravedad del autismo). Este hallazgo coincide con los de Lam et al. (2008)(Lam & Bodfish, 2008) aunque esto no fue observado por South et al. (2005) (South et al., 2005). Un metaanálisis encontró resultados contradictorios en la asociación entre DE y severidad del autismo (Melo et al., 2019). Se observó una influencia marginal de la reciprocidad social en la asociación entre EMF y DE, pero no de las dificultades de comunicación no verbal. Las alteraciones en la adaptación social en niños con TEA sin discapacidad intelectual se han relacionado con la presencia de EM (Boyd, McDonough & Bodfish, 2012; Melo et al., 2019) y ansiedad (Sukhodolsky et al., 2008).

En el presente estudio, las puntuaciones de la subescala de ansiedad/depresión del CBCL fueron el mejor predictor de EMF. Estudios previos han reportado asociación entre ansiedad y EMF en pacientes con TEA independientemente del grado de capacidad intelectual (Wigham et al., 2015; Joosten et al., 2009; Sukhodolsky et al., 2008; Rodgers et al., 2012; Joyce et al., 2017), aunque este hallazgo no ha sido replicado en un estudio en pacientes con TEA sin discapacidad intelectual (Lidstone et al., 2014). Aunque la mayoría de los pacientes de este estudio no presentaban discapacidad intelectual y tenían buenas habilidades lingüísticas (características que en otros estudios se han asociado a mayores niveles de ansiedad y depresión) (Sukhodolsky et al., 2008; Estes et al., 2007; South et al., 2005; Witwer & Lecavalier, 2010) sólo el 17,2% de ellos presentaron puntuaciones clínicamente significativas en la subescala de ansiedad/depresión del CBCL. Esto puede explicarse por el límite de edad de nuestro estudio. Se cree que la desregulación emocional en los niños con TEA más jóvenes se manifiesta como un comportamiento repetitivo y estereotipado, y que se sustituye por ansiedad, depresión y más síntomas cognitivos con la edad (Hervás, 2017; Sukhodolsky et al., 2008; Samson et al., 2014; Joshi et al., 2018; Estes et al., 2007). Sin embargo, un estudio de Lidstone et al. (2014) no encontró asociación entre edad y EM (Lidstone et al., 2014). Se necesitan más estudios para aclarar esta asociación. Los comportamientos repetitivos no siempre están relacionados con la ansiedad, ya que los niños con TEA pueden obtener placer/disfrute de sus intereses restringidos y comportamientos repetitivos (Sukhodolsky et al., 2008).

El nivel de inatención, medido por el CBCL, también fue predictivo de EM en nuestro estudio. Esto concuerda con los hallazgos de un estudio previo en el que los comportamientos restrictivos y repetitivos se asociaron con la hiperactividad y la falta de

atención (Tsai et al., 2020). No encontramos asociación con el comportamiento agresivo, probablemente debido al bajo porcentaje de niños que presentaban agresividad en nuestra cohorte (10,6%).

No se observó la asociación entre la DE y el dominio de conductas estereotipadas restrictivas reportado en otros estudios (Samson et al., 2014; Greenlee et al., 2021). Sin embargo, un estudio reciente y amplio realizado en 1107 niños con TEA tampoco encontró esta asociación (Conner et al., 2020). No encontramos la asociación entre DE y conductas motoras sensoriales repetitivas (CRSM) descritas por Samson et al. (2014) (Samson et al., 2014). No se encontró asociación entre la DE y otros subtipos de conductas estereotipadas restrictivas. En cambio, otros estudios que incluyen pacientes de diferentes edades y habilidades intelectuales han mostrado asociación entre ansiedad y conductas repetitivas y estereotipadas de alto o bajo nivel (Wigham et al., 2015; Rodgers et al., 2012) o con la adherencia a rutinas o rituales (Gotham et al., 2013; Lidstone et al., 2014; Tsai et al., 2020).

La asociación observada entre la DE y la EM puede explicarse por vías neuroanatómicas y moleculares comunes. Según Samson et al. (2014) (Samson et al., 2014), los manierismos motores repetitivos y estereotipados son la manifestación de un sistema de regulación deficiente de las emociones mediado por vías frontales y subcorticales. Además, los hallazgos de un estudio que utilizó resonancia magnética funcional en pacientes con TEA (Abbott et al., 2018) sugieren que la mayor activación del circuito límbico respecto a los circuitos frontoparietal y motor explicaría la existencia de estereotipias motoras.

Las EM pueden ser beneficiosas para los sujetos que no pueden implementar estrategias adaptativas de regulación emocional (Samson, Wells, et al., 2015), pero la presencia de EM puede interferir en la vida diaria y la socialización de los pacientes con TEA (Boyd, McDonough & Bodfish, 2012; Melo et al., 2019) por lo que este síntoma puede requerir tratamiento. Existe poca evidencia sobre el abordaje farmacológico (risperidona, ISRS o clomipramina) y la terapia conductual en el manejo del EM (Boyd, McDonough & Bodfish, 2012; Whitehouse & Lewis, 2015; Melo et al., 2019; Patterson et al., 2010). Nuestro estudio aporta evidencias para incluir el manejo de la regulación emocional como parte del tratamiento de las EM en el TEA. La terapia cognitivo-conductual y la intervención basada en mindfulness se han utilizado como intervenciones de regulación emocional en TEA (Cai et al., 2018; Keluskar et al., 2021). El enfoque del tratamiento podría basarse en aumentar

el uso de estrategias adaptativas de regulación emocional (reevaluación cognitiva, búsqueda de apoyo social, conductas dirigidas a objetivos) y reducir las estrategias desadaptativas (supresión expresiva, evitación, ventilación). (Samson, Wells, et al., 2015). Un ensayo controlado aleatorizado sobre la eficacia del plan de estudios SCERTS implementado por los padres, que incluye la gestión de la regulación emocional, para niños pequeños con TEA, mostró un ligero empeoramiento en el dominio restrictivo y repetitivo de la ADOS (Wetherby et al., 2014). Se necesitan futuros estudios para probar la eficacia de las intervenciones de regulación emocional para el tratamiento del EM en sujetos con TEA.

Hay que tener en cuenta otros factores en el origen del EMF, como la alteración de las funciones ejecutivas y del procesamiento sensorial (Proff et al., 2022). Además, estos factores, junto con otras limitaciones cognitivas y déficits en la comunicación e interacción social, pueden causar ansiedad dando lugar a comportamientos estereotipados (Joosten & Bundy, 2010).

Nuestro estudio tiene varias limitaciones. Aunque se trata del primer estudio que investiga la influencia de la DE en la EM en niños con TEA, el tamaño limitado de la muestra puede dificultar la fiabilidad de los resultados. Los datos son retrospectivos, por lo que no se disponía de otras escalas específicas recientes para medir la EM, la DE y la ansiedad. Según Lefort-Besnard (Lefort-Besnard et al., 2020) se utilizaron los dominios social y de comunicación del ADI-R para evaluar la gravedad de los síntomas de los pacientes. Los resultados de los estudios de Mirenda et al. (2010) (Mirenda et al., 2010) y Bishop et al. (2013) (Bishop et al., 2013) sugieren que las puntuaciones del algoritmo de conductas restrictivas y repetitivas del ADIR están significativamente relacionadas con las puntuaciones de la Escala de Conductas Repetitivas Revisada (RBS-R) (Bodfish, Symons y Lewis, 1999). Podría cuestionarse la sincronía cronológica entre la evaluación de la EM y la DE, ya que el subdominio C3 del algoritmo diagnóstico ADIR se codifica a partir de la presencia de EM en algún momento de la vida del sujeto y las puntuaciones de las subescalas del CBCL se obtienen a partir de una evaluación transversal. Sin embargo, según varios estudios, la DE en el TEA se mantiene a lo largo del tiempo desde la infancia hasta la edad adulta (Hervás, 2017; Keluskar et al., 2021).

La cohorte del estudio estaba formada por niños menores de 12 años, la mayoría de ellos con buenas habilidades de comunicación verbal y capacidades intelectuales. Es posible que en poblaciones de TEA de mayor edad, la asociación entre DE y EM se observe en

pacientes con discapacidad intelectual y dificultades del lenguaje. El número de mujeres en nuestra cohorte fue pequeño pero representativo de la proporción de pacientes que acuden a nuestro servicio.

En resumen, encontramos pruebas de que la presencia de estereotipias motoras frecuentes puede verse incrementada por la desregulación emocional en niños con TEA. Es necesario investigar si las intervenciones de regulación emocional pueden reducir la presencia de estereotipias motoras que dificultan la interacción social y la calidad de vida de los individuos con TEA.

**ESTUDIO 2. ESTEREOTIPIAS MOTORAS Y SU ASOCIACIÓN
CON LA DESREGULACIÓN EMOCIONAL Y ALTERACIÓN
SENSORIAL EN ADOLESCENTES Y ADULTOS CON TEA.**

5 ESTUDIO 2. ESTEREOTIPIAS MOTORAS Y SU ASOCIACIÓN CON LA DESREGULACIÓN EMOCIONAL Y LA ALTERACIÓN SENSORIAL EN ADOLESCENTES Y ADULTOS CON TEA.

5.1 Objetivos e hipótesis

5.1.1 Objetivos

5.1.1.1 Objetivo principal

- Establecer la relación individual y conjunta de la desregulación emocional y los tipos de alteración de la respuesta sensorial (Hiperreactividad, hiporreactividad y búsqueda sensorial) con la frecuencia y gravedad de las estereotipias motoras en adolescentes y adultos.

5.1.1.2 Objetivos secundarios

- Analizar la relación entre SENS y DE.
- Describir transversalmente las estereotipias motoras en función de su frecuencia, número, duración y tipología.
- Describir longitudinalmente la permanencia de los diferentes tipos de EM en el tiempo.
- Describir las modalidades sensoriales más afectadas en cada cuadrante sensorial en TEA.
- Determinar si las estereotipias motoras y la desregulación emocional disminuyen con el tiempo.
- Analizar las diferencias de presentación de la DE y la SENS en los subtipos de pacientes agrupados por género, por adultos de alto/bajo funcionamiento, por presencia de comorbilidad psiquiátrica y por subtipos de EM.

5.1.2 Hipótesis

5.1.2.1 Hipótesis principal

- La frecuencia de las estereotipias motoras se relacionará positivamente con HOS, HRS, BS y DE.
- La gravedad de las EM se relacionará positivamente con HOS, HRS, BS y DE..

5.1.3 Hipótesis secundarias

- Los tipos de EM más frecuentes serán las de manos y de la marcha y los participantes

tendrán más de un tipo de estereotipia motora.

- Los tipos de estereotipias motoras que tenderán a desaparecer o a reducirse con el tiempo serán las más inadecuados socialmente. Las estereotipias motoras en general se reducirán con el tiempo.
- Habrá una asociación entre DE y SENS.
- No habrá diferencias entre hombres y mujeres respecto a las variables clínicas de estudio.
- Los adultos TEA con alto funcionamiento presentarán menos estereotipias motoras, y menos HOS. No se encontrarán diferencias entre BF-TEA y AF-TEA respecto a la BS, HRS y DE.
- Los pacientes con comorbilidad psicopatológica tendrán más DE y SENS.
- Determinados tipos de EM se asociarán a un patrón específico de SENS.
- Las EM y la DE se reducirán con el tiempo.

5.2 Material y método

5.2.1 Diseño del estudio

Se realiza un estudio observacional transversal con pacientes TEA, para determinar asociación en frecuencia y gravedad de las EM con la alteración de la respuesta sensorial SENS y la DE. Se realiza un estudio retrospectivo para estudiar los cambios en las EM y la DE con el tiempo.

5.2.2 Participantes

Se incluyeron en el estudio 97 pacientes con TEA (76 hombres, 21 mujeres) de edades comprendidas entre los 14 años y los 43 años (57 de ellos adultos). El diagnóstico de TEA había sido establecido por expertos clínicos a través de una evaluación basada en el DSM-IV-TR o DSM-5 y confirmada en gran parte de los casos con la Entrevista de Diagnóstico de Autismo-Revisada (ADI-R) y la escala de Observación de Diagnóstico de Autismo (ADOS).

El reclutamiento se realizó entre los años 2021 y 2022 en el servicio de psiquiatría infantil y adolescente de la Hospital Universitario Mutua de Terrassa, en IGAIN, en 2 asociaciones de autismo de Barcelona, y en un colegio de educación especial especializado en autismo de Barcelona.

Criterios de Inclusión de pacientes con TEA: Mayores de 14 años. Cumplen criterios de TEA de acuerdo con el DSM-5 (además pueden cumplir criterios según entrevistas diagnósticas ADOS (Lord et al, 2015) y/o ADI-R (Rutter, Le Coteur y Lord, 2006). Pueden

presentar cualquier nivel intelectual. Criterios de exclusión de pacientes con TEA: Sujetos con antecedente de traumatismos craneales severos o alteraciones sensoriales severas que estén relacionados con la causa del autismo. Familias con algún tipo de conflicto familiar que dificulte la colaboración en el estudio.

5.2.3 Variables:

5.2.3.1 Variables sociodemográficas y clínicas

5.2.3.2 Variables clínicas de interés

- **Variables de comorbilidad psicopatológica dicotómicas:** Puntuación clínicamente significativa de las subescalas y las 3 dimensiones de los inventarios ASEBA (Achenbach System of Empirically Based Assessment) en 3 versiones adecuadas a la edad y capacidad mental: Child Behaviour Checklist (CBCL 4-18), Adult Behaviour Checklist (ABCL) y Adult Self-Report for ages 18-59 (ASR). TOTASEBA: puntuación total de los inventarios ASEBA.
- **Variables de desregulación emocional:** EDI-IR-A Índice de reactividad actual, EDI-ID-A Índice de disforia actual, EDI-IR-P Índice de reactividad en el pasado e Índice de disforia EDI-ID-P en el pasado (hace más de un año) del Emotion Dysregulation Inventory (EDI). EDI-IR-SC e EDI-ID-SC Índice de reactividad actual e ID-A Índice de disforia actual variables cualitativas con punto de corte $PT > 60$ para considerar DE clínicamente elevada.
- **Variables de estereotipia motora:**
Variable SBS-EM-F-A y SBS-EM-G-A son la suma de los ítems de estereotipia motora (18-23, 25, 28, 30, 31, 33, 34, 36-40) de la escala SBS puntuación de frecuencia y gravedad en la actualidad, respectivamente. SBS-EM-F-P y SBS-EM-G-P son las puntuaciones en el pasado (Se retiraron los ítems sensoriales y los referentes a conductas repetitivas con objetos).
Variables de periodicidad de EM: EM de periodicidad al menos aparición mensual (Si/No), EM máxima periodicidad por caso (Nunca/Cada mes/Cada semana/A diario/Cada hora), Número de EM al menos mensuales por caso (0/1-3/4-7/>7), Número de EM diarias por caso (0/1-3/4-7/>7).
Porcentaje de años vividos con EM: indica la duración relativa de las EM respecto a la edad.
Número de EM: Número de ítems (EM) mayor a 0 (basado en el estudio de Purpura (2022) (Purpura et al., 2022).
Para realizar las curvas de supervivencia de Kaplan-Meier se calculó la duración de

cada una de las EM y del total de las EM (obtenido por la diferencia entre la edad de inicio y finalización de las mismas) y se creó para cada tipo de EM y para el total de EM, una variable que indicaba si se había extinguido o no.

Se crearon variables de subtipos de EM, para estudiar su relación con DE y SENS, según la clasificación de estereotipias motoras en función de su topografía y desplazamiento (Goldman et al., 2009):

- Cara: muecas
- Cabeza/tronco/hombros: girar la cabeza, balanceo, movimientos corporales
- Brazos/piernas: agitar brazos, agitar manos, aplaudir
- Manos/dedos: movimiento de manos, movimiento de manos y dedos
- Marcha: caminar en círculos, pasear, correr repentinamente, brincar, girar sobre sí mismo
- Autodirigidas: frotarse
- **Variables de alteración en la reactividad sensorial:** Puntuación total de cuadrantes hiporreactividad sensorial (AASP-HOS), Búsqueda sensorial (AASP-BS), Sensibilidad sensorial (AASP-SS), Evitación sensorial (AASP-ES) y la suma de las dos últimas como medida de hiperreactividad sensorial (AASP-HRS). Variables cualitativas por cuadrantes en función de su significación clínica (AASP-HOS-SC, AAS-BS-SC, AASP-SS-SC, AASP-ES-SC). Puntuación relativa a la máxima puntuación posible, de los 6 factores sensoriales del AASP: sabor/olor, movimiento, visual, táctil, nivel de actividad y auditivo.

5.2.4 Instrumentos de medida

Los cuestionarios se cumplimentaron en formato on-line, utilizando la plataforma jotform para el envío y recepción de los mismos.

5.2.4.1 Inventarios ASEBA (Achenbach System Evidence Based Assessment)

Se administraron las versiones de los inventarios ASEBA adecuadas a la edad

Child Behaviour Checklist (CBCL 4-18) (Achenbach & Edelbrock, 1991) Cuestionario CBCL de Achenbach (Sardinero & Pedreira Massa, 1997), es una escala de 113 ítems, administrada a los padres para edades comprendidas entre los 4 y los 18 años para detectar problemas emocionales, conductuales y sociales, con 3 opciones de respuesta (0=nunca o casi nunca, 1= a veces cierto, 2= cierto muy a menudo). Los ítems se agrupan en ocho escalas derivadas de análisis factorial: ansiedad / depresión, retraimiento / depresión, quejas somáticas, problemas sociales, problemas de pensamiento, problemas

de atención, problemas de conducta y conducta agresiva. Además, los ítems también pueden agruparse en 3 dimensiones superiores: escala interiorizada, escala exteriorizada y total. El CBCL también tiene una escala establecida para mostrar las puntuaciones asociadas con trastornos del Manual Diagnóstico y Estadístico de los Trastornos Mentales (American Psychiatric Association, 2013)(DSM-IV-TR, American Psychiatric Association 2000): ansiedad, trastorno negativista desafiante, problemas de conducta, problemas somáticos, problemas afectivos, y trastorno por déficit de atención. Las puntuaciones directas se convierten en valores estandarizados según edad y género (se disponen de baremos españoles, T valor con media de 50 y DE 10); para cada síndrome y puntuación total ($PT > 63$) y escalas ($PT > 70$), las tablas determinan si la puntuación representa un comportamiento normal, límite o clínicamente significativo. El CBCL ha demostrado validez y fiabilidad en términos de correlaciones test-retest ($r = 0,90$) y consistencia interna (coeficiente alfa de 0.63-0.79).

El *Adult Behaviour Checklist (ABCL)* (Achenbach & Rescorla, 2003) para adultos de 18 a 59 años, consta de 126 ítems que evalúan problemas de comportamiento durante los últimos 3 meses. Consiste en un inventario de psicopatología de adultos informado por personas que tengan un conocimiento significativo de la persona (pareja, padres, hermanos, etc.). La escala de respuesta tiene 3 opciones (0=nunca o casi nunca, 1= a veces cierto, 2= cierto muy a menudo). El análisis factorial detectó ocho escalas sindrómicas: Ansiedad / Depresión, Retraimiento, Quejas somáticas, Problemas de pensamiento, problemas de atención, Conducta agresiva, Conducta de romper normas e intrusismo. Además, se identificaron dos síndromes globales: Conducta Internalizante (derivada de las escalas Retraimiento, Quejas somáticas y Ansiedad/depresión) y Externalizante (se deriva de las escalas de comportamiento antinormativo y de conducta agresiva). Finalmente, se puede obtener una puntuación total, que consiste en la suma de todos los valores de los ítems problema. Los ítems se pueden agrupar en escalas orientadas al DSM, que permiten hacer una aproximación a un posible diagnóstico. El ABCL ha demostrado validez y fiabilidad en términos de correlaciones test-retest ($r = 0,80-0,90$) y consistencia interna (coeficiente alfa de 0,85). Existe la versión traducida al castellano por la Unitat d'Epidemiologia i Diagnòstic en Psicopatologia del Desenvolupament de la Universidad Autónoma de Barcelona (www.ued.uab.cat). No existen en la actualidad baremos españoles, por lo que su corrección debe realizarse con baremos norteamericanos (para ambos sexos y para los grupos de edad de 18 a 35 y de 36 a 59 años).

El *Adult Self-Report for ages 18-59 (ASR)* (Achenbach & Rescorla, 2003), para adultos de 18 a 59 años, consiste en un inventario de psicopatología autoinformado de 124 ítems,

con una escala de respuesta de 3 opciones (0=nunca o casi nunca, 1= a veces cierto, 2= cierto muy a menudo). El inventario permite obtener información en las siguientes escalas empíricas: Ansiedad/depresión, Retraimiento, Quejas somáticas, Problemas de pensamiento, Problemas de atención, Conducta agresiva, Conducta de romper normas e Intrusismo. Los ítems se pueden agrupar en escalas orientadas al DSM, que permiten hacer una aproximación a un posible diagnóstico. El ASR ha demostrado validez y fiabilidad en términos de correlaciones test-retest ($r=0,80-0,90$) y consistencia interna (coeficiente alfa de 0,83). Existe la versión traducida al castellano por la Unitat d'Epidemiologia i Diagnòstic en Psicopatologia del Desenvolupament de la Universitat Autònoma de Barcelona (www.ued.uab.cat). No existen en la actualidad baremos españoles, por lo que su corrección debe realizarse con baremos norteamericanos (para ambos sexos y para los grupos de edad de 18 a 35 y de 36 a 59 años).

5.2.4.2 Escala de conducta estereotipada (SBS) (Rojahn et al., 2000) está incluida en el Inventario de problemas de comportamiento, que es un instrumento de evaluación del comportamiento basado de 52 ítems, dividido en 3 subescalas: conductas autolesivas (14 ítems), comportamiento estereotipado (24 ítems) y conductas agresivas/destructivas (11 ítems), para uso en discapacidad intelectual y otros trastornos del neurodesarrollo. Cada ítem se clasifica en dos escalas, una escala de seis puntos de frecuencia y una escala de 4 puntos de gravedad. El BPI-01 ha demostrado fiabilidad (test-retest, consistencia interna, y fiabilidad interevaluador) y validez como instrumento de evaluación de problemas de conducta en las poblaciones indicadas. La subescala Stereotyped Behavior Scale (SBS) (Rojahn et al., 2000) tiene 24 ítems, cada uno de los cuales describe un tipo de comportamiento estereotipado, como "balanceo hacia adelante y hacia atrás" o "tiene movimientos repetitivos de manos". La SBS ha demostrado buena validez y fiabilidad (coeficientes test-retest 0.93 y 0.71, interevaluador de 0.76 y 0.75, y consistencia interna de 0.91). Los datos tipificados (rangos percentiles y puntajes T) se derivaron de los datos previos de un grupo de 550 individuos con conductas estereotipadas.

5.2.4.3 El Perfil sensorial del adolescente y adulto (AASP) (Brown et al., 2002) es una escala autoaplicada que ayuda a medir los patrones de procesamiento sensorial y los efectos en la funcionalidad del individuo analizando las diferentes reacciones, a nivel sensorial, que experimentan los individuos en actividades y situaciones cotidianas. La escala incluye 60 ítems (15 ítems por cada cuadrante según el modelo de procesamiento sensorial de Dunn: Bajo registro, Búsqueda de estímulo sensorial, Sensibilidad sensorial,

Evitación de estímulo sensorial). Estos ítems forman parte de uno de los 6 factores sensoriales: sabor/olor, movimiento, visual, táctil, nivel de actividad y auditivo. La puntuación se realiza mediante una escala de frecuencia tipo Likert (1-5). Este cuestionario ofrece datos psicométricos adecuados tanto de fiabilidad interna como de validez. Consistencia interna: 0,66 -0,82, según Alfa de Cronbach. Se obtuvo la licencia por parte de Pearson para su traducción al castellano. Está validada en castellano con población española por lo que se utilizaron estos baremos (Gándara-Gafo et al., 2019).

5.2.4.4 El Inventario de desregulación emocional (EDI) (Mazefsky et al., 2018) es un cuestionario administrado a los cuidadores, diseñado para evaluar emociones, angustia y problemas con la regulación emocional en individuos con edad a partir de los 6 años y con cualquier nivel de habilidad cognitiva o verbal. Consta de 24-item en la versión larga y de 7-item en la versión corta para el factor reactividad y 6-item para el factor disforia. (a) Reactividad, caracterizada por una intensa, rápidamente en escalada, sostenida en el tiempo y pobremente regulada reacción emocional negativa y (b) disforia, caracterizada por anhedonia, tristeza y nerviosismo. Específicamente, el Factor 1 (Reactividad) captura una excitación alta y una valencia negativa caracterizada por irritabilidad e ira, mientras que el Factor 2 (Disforia) captura una excitación más baja y una valencia negativa caracterizada por malestar general (tristeza y ansiedad). También existe un paralelismo con externalización e internalización, respectivamente. Se evalúa la gravedad de cada ítem según la escala: Nada problemático, Leve, Moderado, Grave y Muy Grave. La validez del EDI fue apoyada por la revisión de expertos, su asociación con constructos relacionados (por ejemplo, síntomas de ansiedad y depresión, agresión), puntuaciones más altas en pacientes psiquiátricos hospitalizados con TEA en comparación con una muestra comunitaria de TEA, demostración de estabilidad test-retest y de sensibilidad al cambio. Las puntuaciones directas se convierten en valores estandarizados. Las puntuaciones T tienen una media de 50 y una desviación estándar de 10. Los límites clínicos para el EDI se basan en una puntuación de +1 desviación estándar por encima de la media de la población general, o una puntuación t de 60 basada en las conversiones de la población general. Para la reactividad, una puntuación t de 60 basada en las normas de la población general corresponde a una puntuación bruta de 26, que es una puntuación t de 46,4 basada en las conversiones autismo/clínicas. Para la disforia, una puntuación t de 60 basada en las normas de la población general corresponde a una puntuación bruta de 6, que es una puntuación t de 52,2 basada en las conversiones autismo/clínico. En nuestro estudio utilizamos las puntuaciones tipificadas de la muestra clínica de autismo (Mazefsky, Yu, et

al., 2018),

5.2.5 Análisis estadístico:

Para el estudio transversal, se realizó un análisis descriptivo en que se calcularon las frecuencias, porcentajes, medias y desviaciones estándar (de) para variables con distribución normal o medianas y rango intercuartil (IQR) para variables que no seguían distribución normal. En el análisis de comparación de subgrupos se utilizó la prueba de Chi-Cuadrado para variables categóricas y las pruebas paramétrica t-Test de Student o no paramétrica U de Mann-Whitney cuando fue apropiado, para variables continuas. Se calcularon las odds ratio de SENS y DE para cada grupo de EM. En el análisis de correlación de las variables de DE y SENS se utilizó la prueba no paramétrica Rho de Spearman. Para estudiar la contribución conjunta de SENS y DE, junto con las covariables adecuadas, a la aparición de EM se utilizó la regresión lineal múltiple.

Para el estudio retrospectivo de la evolución de las EM y la DE en el tiempo, se utilizó la prueba no paramétrica para datos apareados test de Wilcoxon.

Se realizaron las curvas de Kaplan-Meier para estudiar la permanencia de las EM a lo largo de la vida para cada tipo de EM.

Los análisis estadísticos se realizaron utilizando los paquetes de programas SPSS (IBM, versión 22) y el software estadístico R (Versión 3.6.3).

5.2.6 Aspectos éticos

Todos los pacientes o sus tutores legales recibieron información del estudio y se obtuvo su consentimiento por escrito previo a su inclusión en el estudio. Este proyecto se sometió a aprobación del Comité ético de investigación clínica del Hospital Universitario Mútua de Terrassa. Se garantizó la confidencialidad de los datos en el envío, recepción y procesamiento de los formularios on-line, mediante el uso de la versión JotForm que cumple con el Reglamento General de Protección de Datos de la Unión Europea (GDPR), en vigor desde el 25 de mayo de 2018.

5.3 Resultados

5.3.1 Descripción general de la muestra

5.3.1.1 Variables sociodemográficas y clínicas

Las características sociodemográficas y clínicas de la muestra se recogen en la tabla 7. El 33,7% de nuestros pacientes presentaba discapacidad intelectual y un 10,6% no tenía

lenguaje verbal. El 53,8% de la muestra tenían una baja necesidad de apoyo y el 68,6% tenía un habla fluida. Un 66.7% de la muestra pertenecía a clase social media.

Tabla 7. Descripción general de la muestra

	Total muestra N=97
Características sociodemográficas:	
Edad	
Media (de)	20.7(6.5)
Edad igual o mayor a 18 años	
N (%) Si/no	53(58.2)/37(41.8)
Género	
N (%) Hombre/mujer	77(78,6)/21(21,4)
Nivel Social (Hollingshead, 1975)	
N(%) Media alta/media baja/trabajadora/baja	35(36.5)/29(30,2)/30(31,3)/2(2,1)
Características clínicas: N(%)	
Discapacidad intelectual (IQ≤70)	
Si/no	32(33.7)/63(66.3)
Nivel de inteligencia:	
Superior/Media/CI límite/DI leve/DI moderado/DI severo/Desconocido	2(2)/53(54.1)/4(4.1)/13(13.3)/5(5.1)/5(5.1)/16(16.3)
Regresión en la primera infancia	
Si/no	19(19.6)/80.4
Retraso en el lenguaje	
Si/no	68(70.1)/29(29.9)
Lenguaje verbal	
Si/no	87(89.4)/10(10.6)
Nivel del lenguaje expresivo	
Habla fluida /frases simples/ No verbal o palabras	59(68.8)/20(20.6)/10(10.6)
Déficit sensorial en primera infancia	
Si/No	28(28.3)/68(71.1)
Tipo de déficit sensorial	
Visual total/Visual parcial/Auditivo total/ Auditivo parcial	1(1)/6(6.2)/1(1)/11(11.3)/9(9.3)
Nivel severidad TEA (DSM-5):	
Nivel 1/Nivel 2/Nivel 3	52(53,8)/27(28)/18(18,3)

El 38.1% de los participantes tenían antecedentes médicos y el 57, 7% tenían antecedentes psiquiátricos, siendo el déficit de atención con hiperactividad (TDAH) el más prevalente con un 46,4% de frecuencia. Un 66% de los casos estaban tratamiento psicofarmacológico, 44,3% estaba en tratamiento con antipsicóticos y cerca del 50% llevaban tratamiento para el TDAH. El 93,8% realizó psicoterapia en la infancia, un 72,2 por 100 en la adolescencia y en el caso de adultos un 59,8% continuaban con psicoterapia en la actualidad (Véase tabla 8).

Tabla 8. Antecedentes médicos y psiquiátricos y tratamientos realizados

Antecedentes y tratamientos N(%)	Total muestra N=97
Antecedentes médicos	
Sin antecedentes médicos	60(61,9)
Epilepsia	15(15.5)
Otras neurológicas	4(4,1)
Digestivas	6(6,2)
Endocrino-metabólicas	3(3,1)
Cardiovasculares	3(3,1)
Respiratorias	2(2,1)
Infecciosas	1(1,0)
Otras	5(5,2)
Antecedentes psiquiátricos	
Sin comorbilidad psiquiátrica	42(42.3)
TDAH	46(46.4)
T. ansiedad	16(16.5)
T. depresivo	12(12.4)
T. obsesivo-compulsivo	10(10.3)
T. conducta alimentaria	7(7.2)
T. personalidad	4(4.1)
Otros	18(18.6)
Tratamiento con psicofármacos actualmente	
Sin tratamiento	34(34)
Tratamiento TDAH	49(49.5)
Antipsicóticos atípicos	46(44.3)
Antidepresivos	14(14.4)
Antiepilépticos y eutimizantes	12(12.4)
Ansiolíticos	6(6.2)
Antipsicóticos típicos	3(3.1)
Hipnóticos	1(1)
Tratamiento con psicofármacos en el pasado	
Sin tratamiento	26(26.8)
Tratamiento TDAH	68(70.1)
Antipsicóticos atípicos	51(51.5)
Antiepilépticos y eutimizantes	36(36.1)
Antidepresivos	17(17.5)
Ansiolíticos	10(10.3)
Antipsicóticos típicos	4(4.1)
Hipnóticos	2(2.1)
Terapias realizadas en la infancia	
Si/No	91(93.8)/6(6.2)
Varios tipos de terapia/Solo un tipo de terapia	46(47.4)/51(52.6)
Terapias realizadas en la adolescencia	
Si/No	70(72.2)/26(26.8)
Varios tipos de terapia/Solo un tipo de terapia	33(34)/64(66)
Terapias realizadas actualmente	
Si/No	58(59.8)/39(40.2)
Varios tipos de terapia/Solo un tipo de terapia	19(19.6)/78(80.4)

4.1.1.2 Variables clínicas de estudio

Perfil sensorial de adolescentes y adultos (AASP)

Respecto al perfil sensorial de los participantes el 42,2 por 100 puntuaba más o mucho más que los demás en el cuadrante sensorial bajo registro. Respecto a la búsqueda sensorial solo un 4,5% puntuaba por encima de la población general; en cambio se observó que un 51.1% de los casos puntuaba por debajo de los demás en este cuadrante. Solo un 13,3% de los casos puntuaron por encima de los demás en el cuadrante sensibilidad sensorial y un 28,9% puntuaron más que los demás en evitación sensorial. (Véase la figura 1). Las puntuaciones totales de cada cuadrante sensorial aparecen en la tabla 9.

En cuanto a las modalidades sensoriales, en los cuadrantes sensoriales bajo registro, sensibilidad y evitación sensorial, predominó la elevación del nivel de actividad y el procesamiento auditivo. En la búsqueda sensorial en cambio, se observó un discreto predominio de las modalidades procesamiento de movimiento, visual y auditivo por encima del resto de modalidades sensoriales. (Véase la figura 2).

Inventario de desregulación emocional (EDI)

El 42,9% de los casos presentaron un índice de disforia y de reactividad emocional dentro del rango de significación clínica (Véase la tabla 9).

Comorbilidad psicopatológica. Escalas ASEBA (CBCL, ABCL, ASR)

El 46,1% de los participantes presentaron una puntuación total en las escalas ASEBA por encima del punto de corte clínicamente significativo. Un 33,7 % presentaron una puntuación en las subescalas de inatención y el 21,6% en la subescala de ansiedad/depresión clínicamente significativos. (Véase la tabla 9)

Estereotipias motoras (SBS)

En la tabla 9 se recoge la puntuación total en frecuencia y gravedad de la Escala de conducta estereotipada (SBS-F y SBS-G) y la puntuación en frecuencia y gravedad de la misma escala, excluyendo los ítems sensoriales y de conductas estereotipadas con objetos (SBS-EM-F y SBS-EM-G).

Figura 1. Cuadrantes sensoriales (porcentaje de casos de cada prevalencia por cuadrante sensorial)

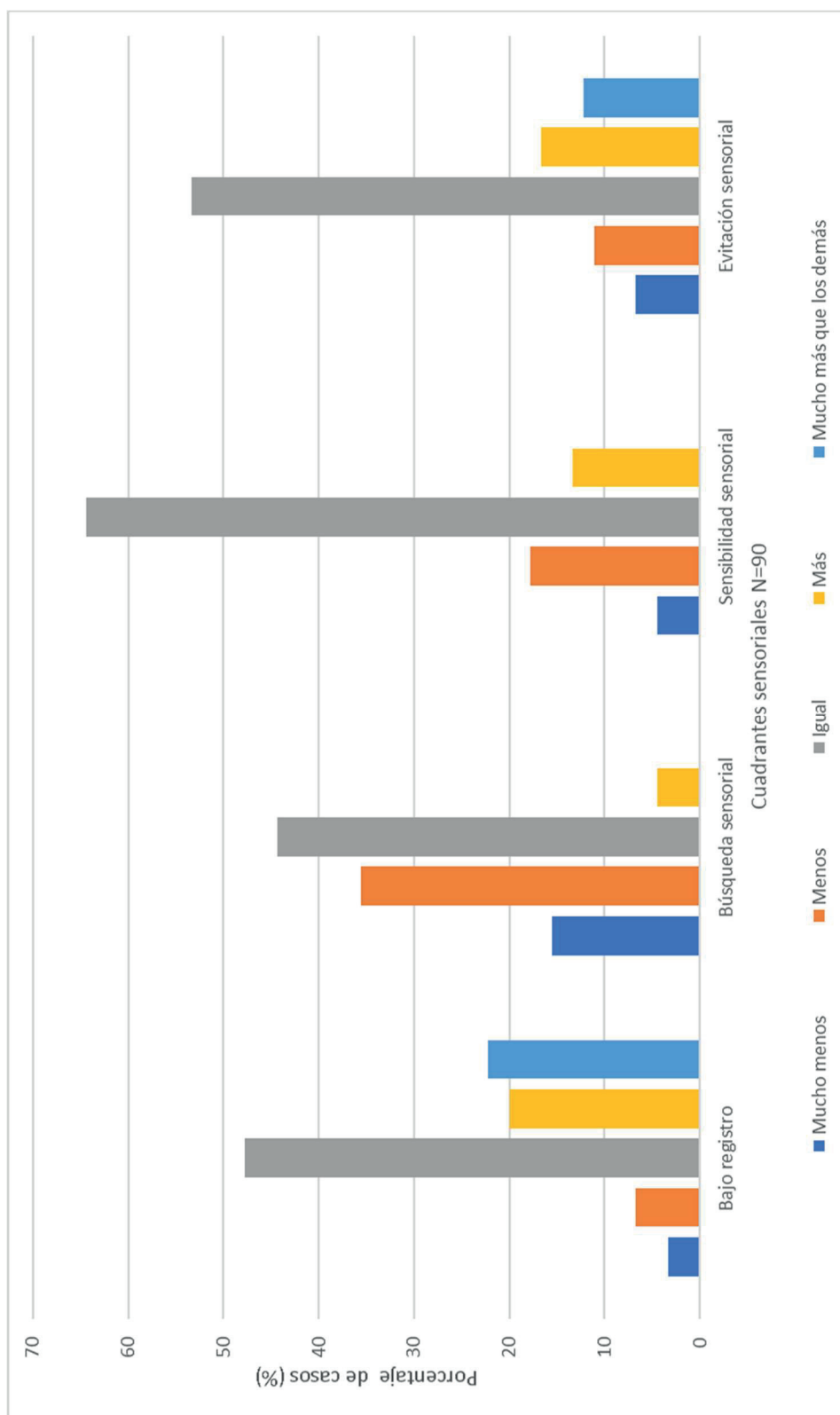


Figura 2. Puntuación de cada modalidad sensorial por cuadrantes sensoriales (medianas de las puntuaciones relativas)

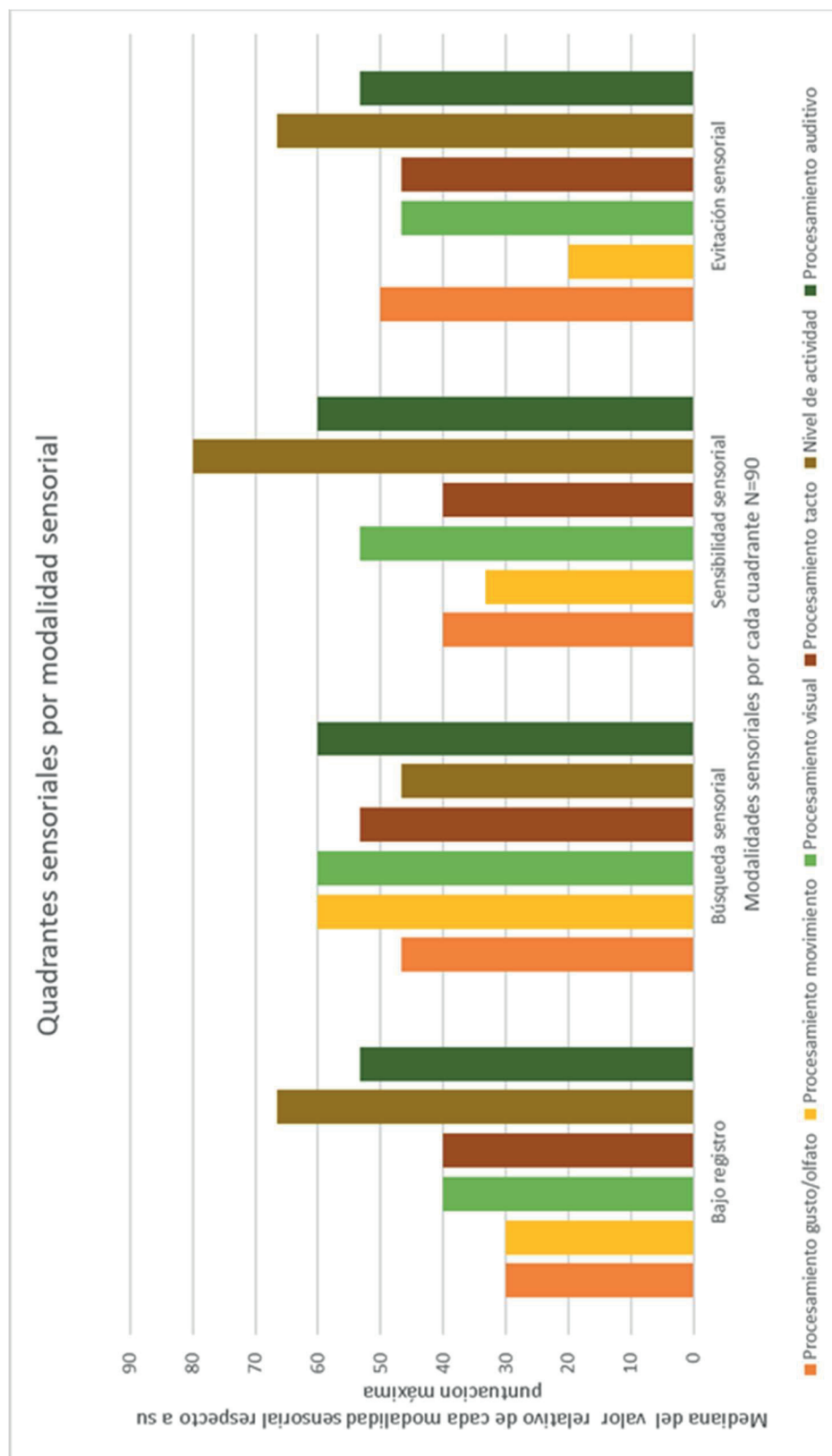


Tabla 9. Resultados de la puntuaciones del Perfil sensorial del adulto (AASP), Inventario de disregulación emocional (EDI), Escala de conducta estereotipada (SBS) e Inventarios ASEBA (CBCL, ABCL, ASR)

Puntuación escalas de las variables de interés	
AASP. Puntuación total cuadrantes sensoriales Media (de)	Total muestra N=90
AASP-HOS	36.1(10.5)
AASP-BS	40.2(8.3)
AASP-SS	35.2(9.2)
AASP-ES	36.5(10.5)
EDI. Puntuación total y significación clínica	
Total muestra N=91	
EDI-ID	
Mediana (IQR)	48.7(12.2)
Significación clínica Sí/No N (%)	39(42.9)/52(57.1)
EDI-IR	
Mediana (IQR)	44.6(12.7)
Significación clínica Sí/No N (%)	39(42.9)/52(57.1)
SBS y SBS-EM. Puntuación total	
Total muestra N=89	
SBS-F	
Media (DE)	19.32 (18.3)
SBS-G	
Media (DE)	26.47 (18.5)
SBS-EM-F-A	
Mediana (IQR)	12 (14.5)
SBS-EM-G-A	
Mediana (IQR)	6(7.5)
Inventario ASEBA (CBCL, ABCL o ASR). Significación clínica N(%)	
Total muestra N=89	
Aislamiento	
Significación clínica Sí/No	22(24.7)/67(75.2)
Ansiedad/depresión	
Significación clínica Sí/No	19(21.6)/70(78.6)
Alteración pensamiento	
Significación clínica Sí/No	23(25.8)/66(74.1)
Quejas somáticas	
Significación clínica Sí/No	5(5.7)/84(94.3)
Inatención	
Significación clínica Sí/No	30(33.7)/59(66.3)
Conducta delictiva	
Significación clínica Sí/No	4(4.5)/85(95.5)
Conducta agresiva	
Significación clínica Sí/No	12(13.5)/77(86.5)
Internalización	
Significación clínica Sí/No	41(46.1)/48(53.9)
Externalización	
Significación clínica Sí/No	26(29.2)/63(70.7)
Problema social (N=39)	
Significación clínica Sí/No	8(21.1)/81(91)
Intrusión (N=50)	
Significación clínica Sí/No	3(5.9)/86(96.6)
Total	
Significación clínica Sí/No	41(46.1)/48(53.9)

Ver apartado de abreviaturas

5.3.2 Descripción de las estereotipias motoras

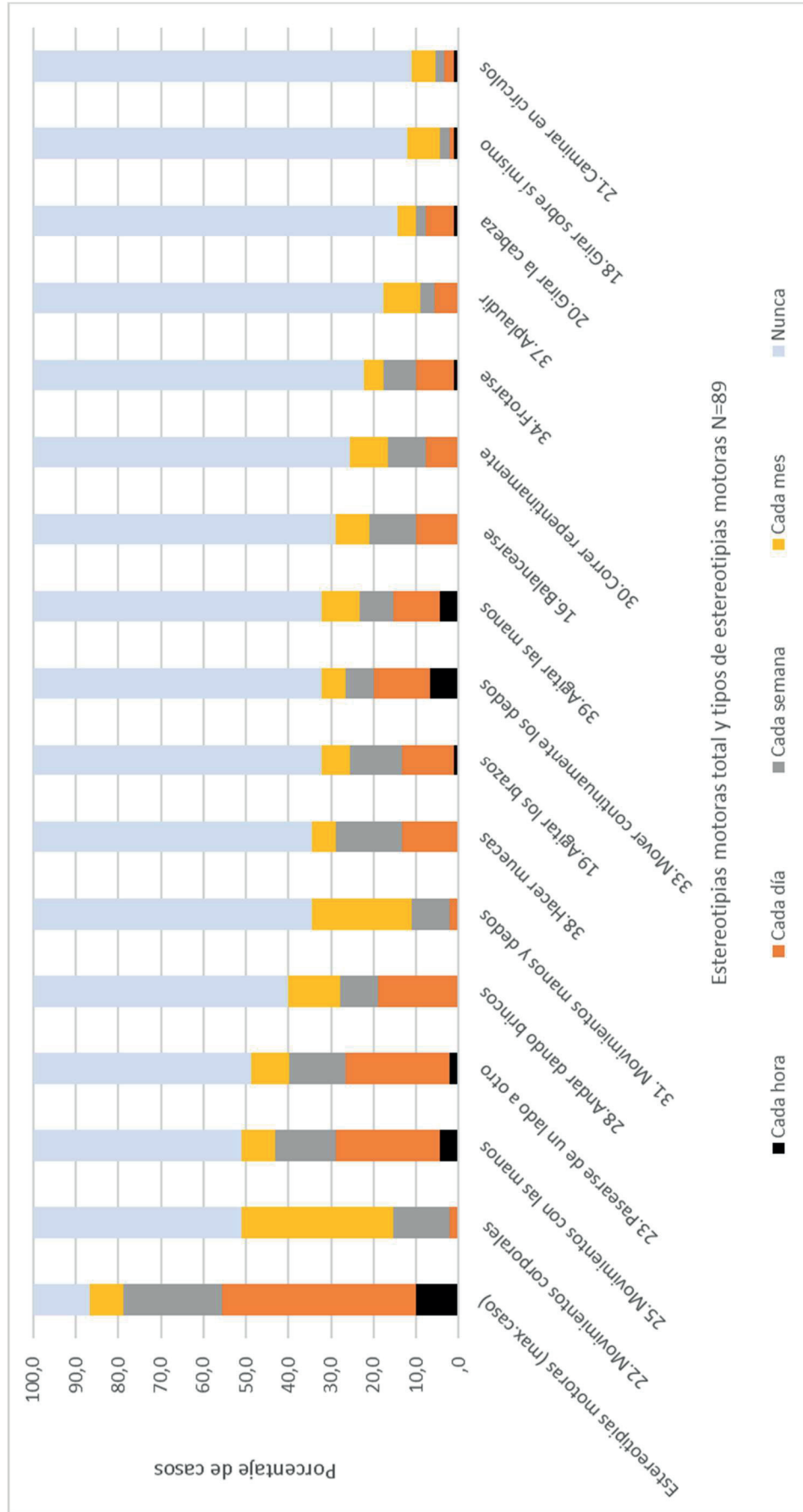
5.3.2.1 Periodicidad de las estereotipias motoras

El 87,8 por 100 de los casos presentó estereotipias motoras con aparición al menos mensual, 61,8 por 100 de los casos presentaron a la vez 4 o más EM con esta periodicidad. Un 55,6 por 100 tenían estereotipias motoras a diario y en el 25,8% de los casos aparecen a la vez 4 o más EM a diario (Véase la tabla 10). La figura 3 muestra la periodicidad de las estereotipias motoras en función del total y del tipo de estereotipia motora. Las EM más prevalentes tanto de periodicidad mensual como diaria son las de movimientos con las manos y pasearse de un lado a otro. En cambio, los movimientos corporales, aunque son prevalentes, con periodicidad al menos mensual, no suelen ser de aparición diaria. Las que aparecen cada hora son las relacionadas con los movimientos de las manos.

Tabla 10. Descripción de las estereotipias motoras

Descripción de las estereotipias motoras	Total muestra N=89
EM de periodicidad al menos aparición mensual (%) Si/No	79(87.8)/11(12.2)
EM máxima periodicidad por caso (%) Nunca/Cada mes/Cada semana/A diario/Cada hora	12(13.3)/7(7.8)/21(23.3)/41(45.6)/9(10)
Número de EM al menos mensuales por caso (%) 0/1-3/4-7/>7	12(13.5)/22(24.7)/38(42.7)/17(19.1)
Número de EM diarias por caso (%) 0/1-3/4-7/>7	39(43.8)/27(30.4)/18(20.2)/5(5.6)
Porcentaje de años vividos con estereotipias Mediana (IQR)	82.35(29.2)

Figura 3. Periodicidad de las estereotipias motoras total (máxima periodicidad por caso) y por cada tipo de estereotipia motora (ítems de la SBS).



5.3.2.2 Periodicidad de estereotipias motoras en la actualidad y en el pasado

La figura 4 muestra una gráfica comparativa de la periodicidad de estereotipias motoras actualmente y en el pasado para el total y para cada tipo de estereotipia motora. Se observa en general una reducción de todos los tipos de estereotipias en periodicidad, aunque algunos tipos como las EM de manos y dedos se mantienen estables. En cambio, sufren una disminución de su aparición aquellas EM más socialmente inapropiadas como la agitación de brazos y manos, brincar, balancearse o correr repentinamente.

5.3.2.3 Duración de las estereotipias motoras a lo largo de la vida

La mediana de **duración** de presencia de estereotipias motoras con una periodicidad al menos mensual fue de 14 años (IQR=9 años) con un mínimo de duración de 1 año y un máximo de 40 años, lo que en porcentaje de años vividos se traduce en un 82.35 % de mediana (IQR=47 %), siendo el mínimo un 5% y el máximo del 96% de años vividos con presencia de estereotipias motoras (Véase tabla 10).

En la figura 5, se muestra el porcentaje de años vividos con EM en general y con cada tipo de EM. Se observa un mayor **porcentaje de años vividos con estereotipias motoras** relacionadas con las manos (mover manos y dedos, mover manos, agitar manos) y girar la cabeza (aunque pocos pacientes la realizan). El menor porcentaje de años vividos con EM se da en aquellos tipos de EM que implican desplazamiento en el espacio: girar sobre sí mismo, caminar en círculos, salir corriendo, balanceo.

Figura 4. Periodicidad de las estereotipias motoras total (máxima frecuencia por caso) y por cada tipo de estereotipia motora (ítems de la SBS) en el pasado (P) y actualmente (A).

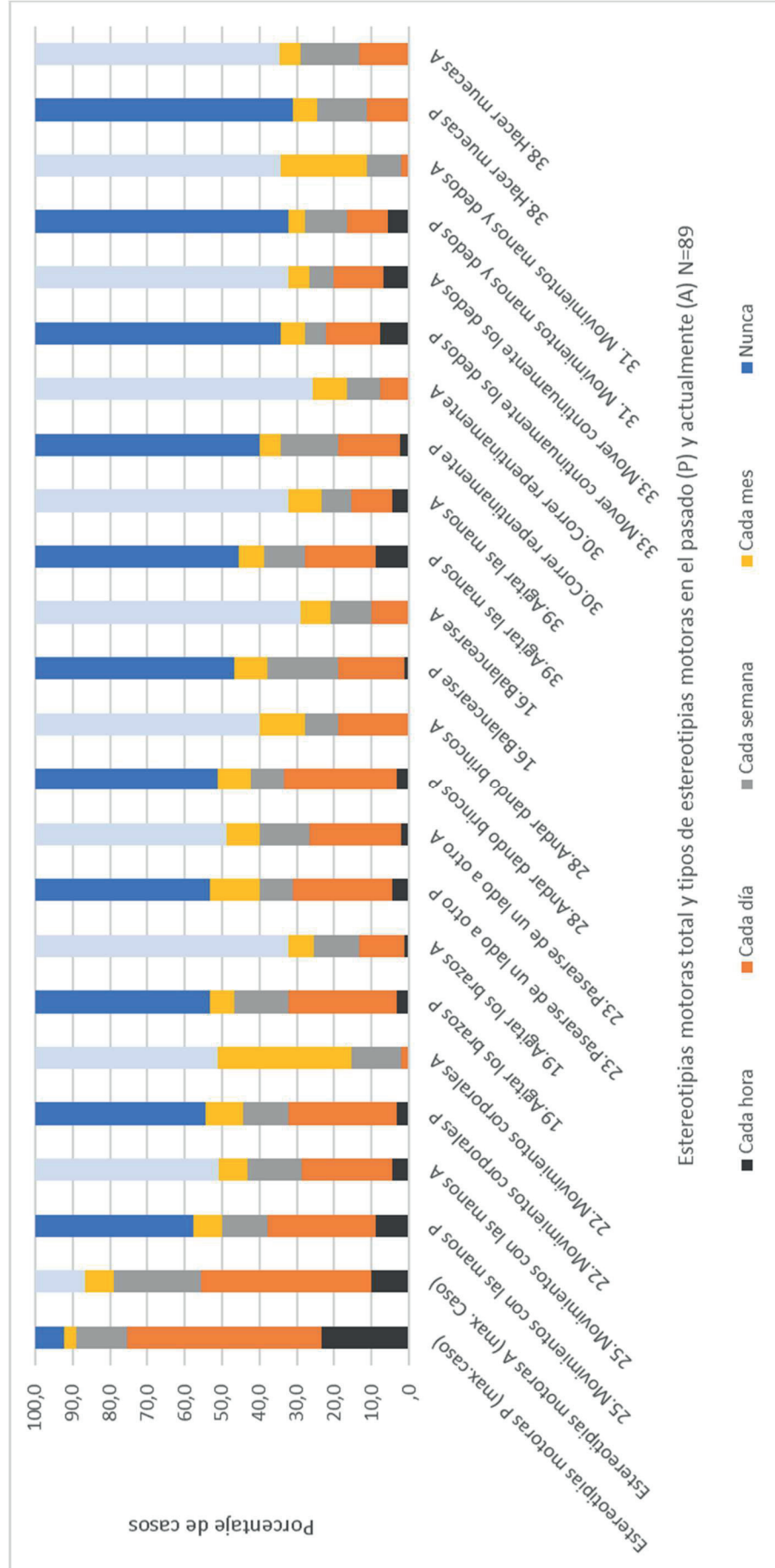
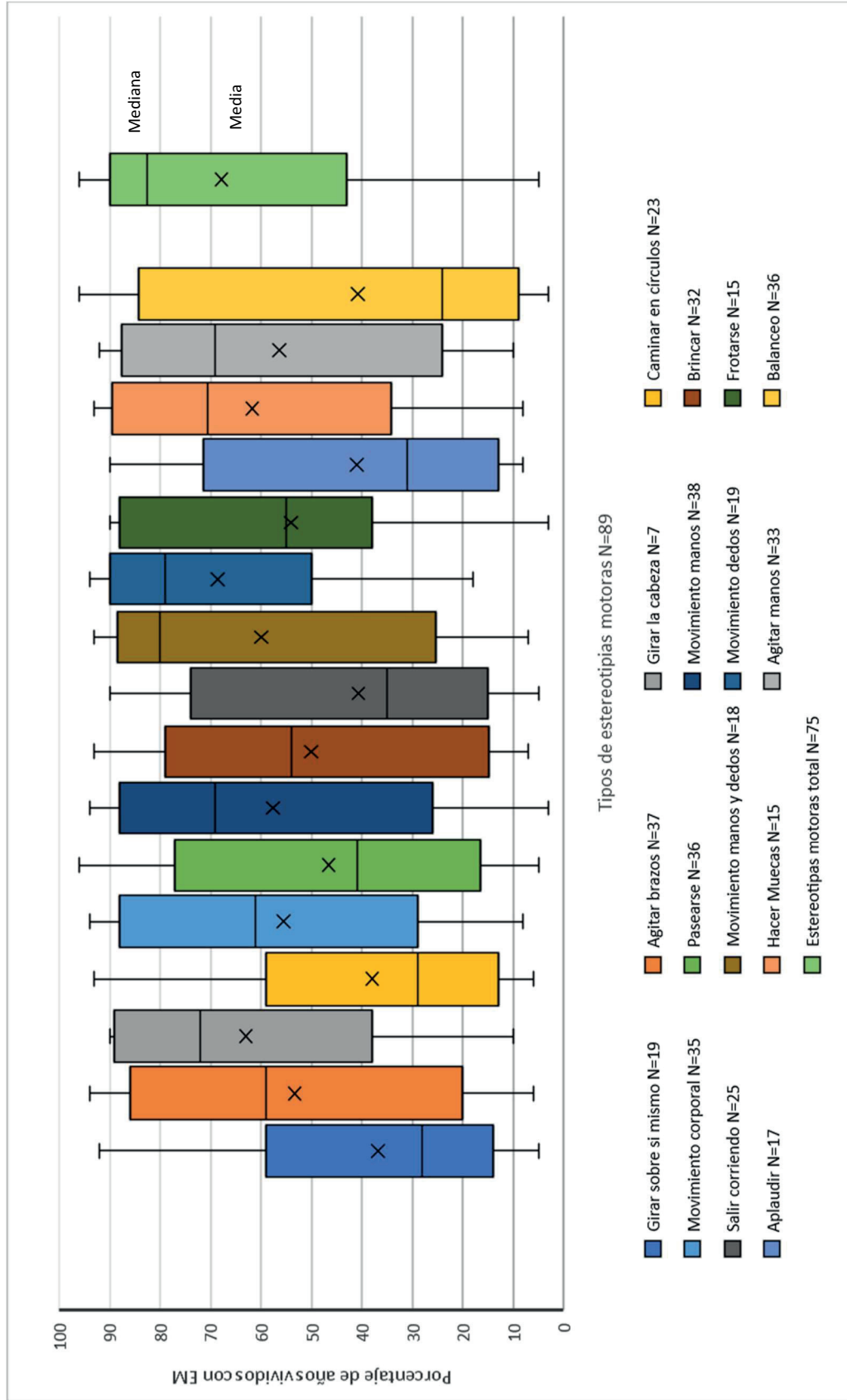


Figura 5. Porcentaje de años vividos con cada tipo de estereotipia motora y con estereotipias motoras en total



5.3.2.4 Permanencia del tipo de estereotipias motoras con el tiempo

La probabilidad de permanencia de las EM en general, a partir de una duración aproximada de unos 10 años, es superior al 75%. Esto también sucede con algunos tipos de estereotipias como pasearse, hacer muecas, hacer movimientos con las manos y dedos y con los dedos y con los movimientos corporales. Por otro lado, estereotipias como balancearse, caminar en círculos, girar sobre sí mismo, agitar los brazos o salir corriendo, tienen una probabilidad de desaparecer aproximadamente del 50% hacia los 5 años de su aparición en el caso de las 3 primeras y después de los 10 años en las dos últimas (Ver figura 6).

Figura 6. Porcentaje de estereotipias motoras extinguidas

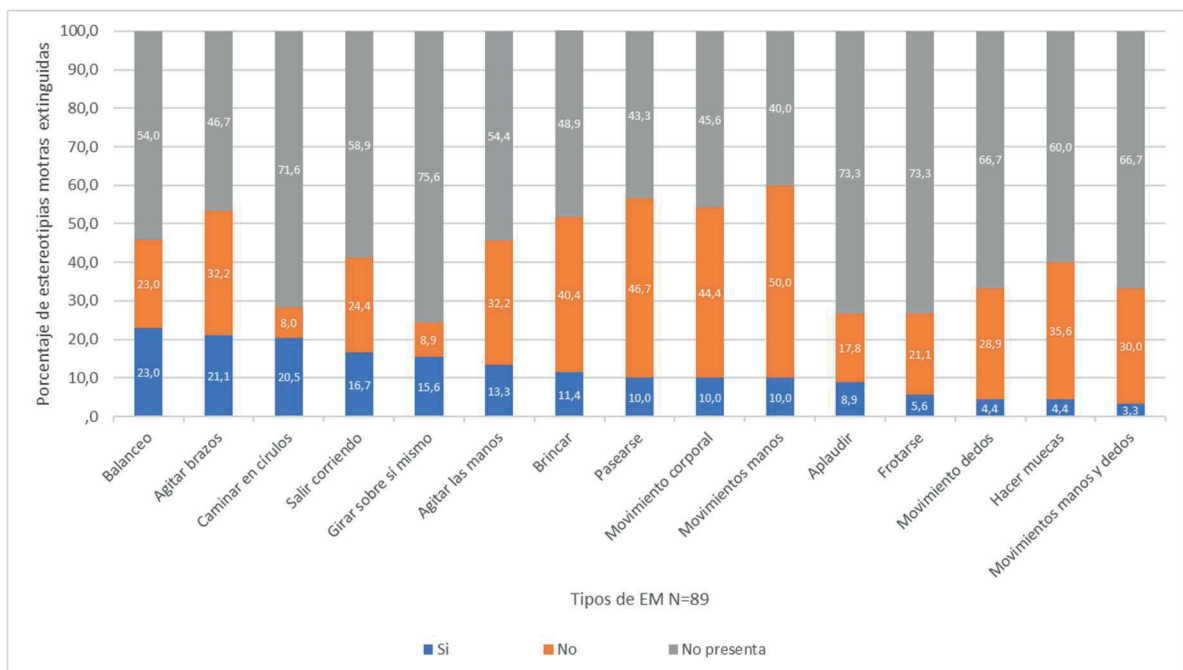
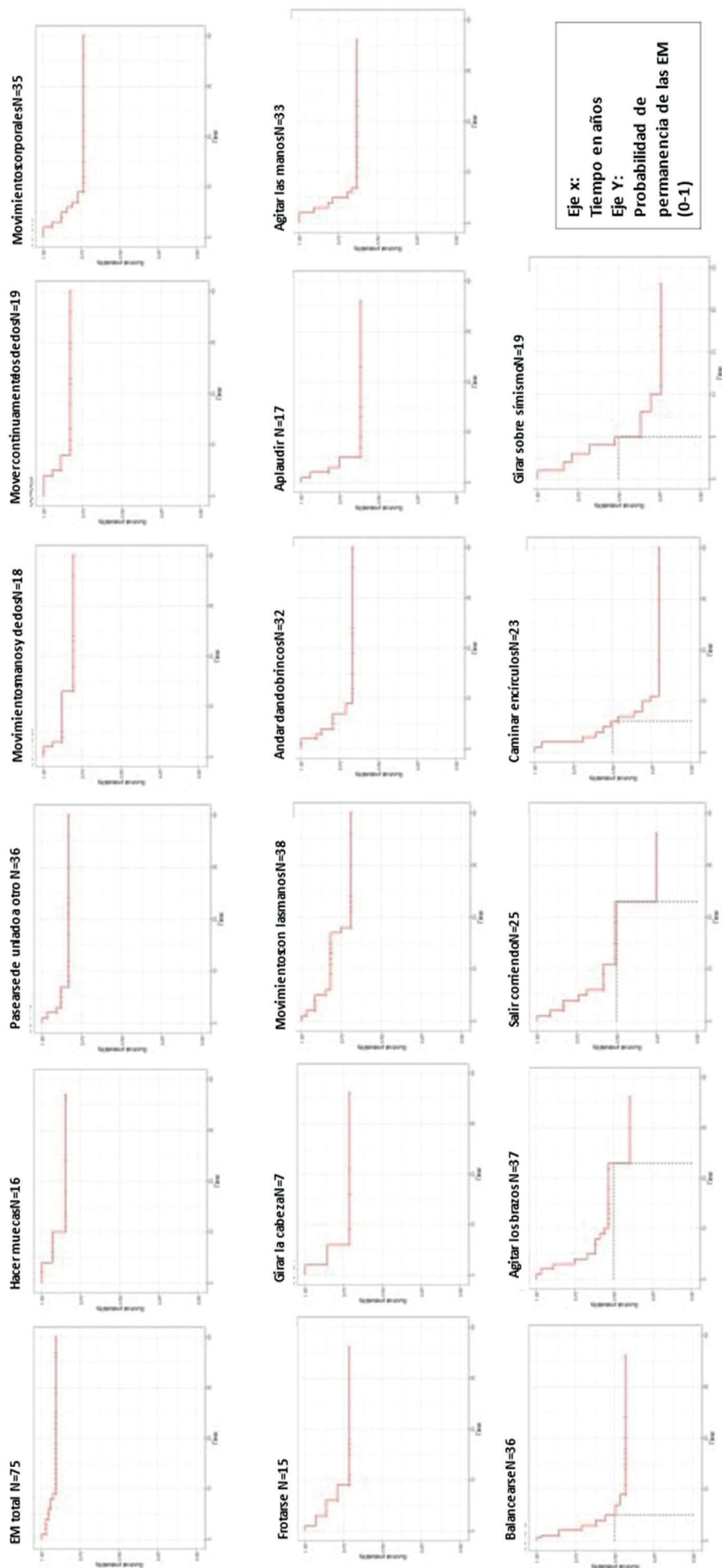


Figura 7. Permanencia de tipos de estereotipias motoras en el tiempo (Curvas de Kaplan-Meier)



5.3.3 Análisis de subgrupos

5.3.3.1 Género hombre-mujer

Nuestra muestra solo incluía 21 mujeres con TEA, pero las diferencias clínicas descritas en la literatura entre hombres y mujeres con TEA nos llevó a comparar ambos grupos. No se encontraron diferencias estadísticamente significativas entre el grupo de hombres y mujeres respecto a las características sociodemográficas y clínicas excepto en la toma de antidepresivos, y en una mayor presencia de conducta agresiva clínicamente significativa (inventario ASEBA), que era más frecuente en las mujeres (Ver tabla 11).

Tabla 11. Comparación mujeres y hombres. Características sociodemográficas y clínicas

	Mujer N= 21	Hombre N= 75	p
Edad Mediana (IQR)	18 (14)	19(8)	0.773
Adulto N (%)	11 (52.4)	45 (60)	0.531
Discapacidad intelectual N (%)	8(38.1)	24(32.4)	0.628
Discapacidad intelectual moderada/severa (n=75) N (%)	1(5.9)	9(14.1)	0.362
Nivel severidad TEA 1 N (%)	10 (47.6)	39 (52)	0.722
Lenguaje fluido (Si) N (%)	12(57.1)	55(72.4)	0.181
Antecedentes psiquiátricos N (%)			
T. déficit de atención e hiperactividad	7 (33.3)	33(43.4)	0.406
T. depresivo	5(23.8)	7(9.2)	0.072
T. ansioso	5(23.6)	10(13.2)	0.232
T. obsesivo-compulsivo	1 (4.8)	13(17.1)	0.154
Tratamiento farmacológico actualmente	16 (76.2)	48(64)	0.295
Toma antidepresivos actualmente	6(28.6)	8(10.5)	0.037
Psicoterapia en la infancia	18(85.7)	72(96)	0.085
Inventario ASEBA (con significación clínica) N (%)	N=20	N=69	p
Aislamiento	6(30)	16(23.2)	0.534
Ansiedad-depresión	6(31.65)	13 (18.8)	0.232
Alteración del pensamiento	7(35)	16(23.2)	0.288
Inatención ASEBA	8(40)	22(21.9)	0.499
Conducta agresiva	6 (30)	6 (8.7)	0.014
Internalización			

	9(45)	32 (46.4)	0.913
Externalización	5(25)	21(30.4)	0.638
TOTASEBA	10(50)	31(44.9)	0.689

TOTASEBA: significación clínica de la dimensión total del inventario ASEBA. En negrita $p < 0.05$

Respecto a las variables estudio, no existieron diferencias estadísticamente significativas en cuanto a presencia de estereotipias motoras o desregulación emocional. En cambio, se observaron puntuaciones significativamente más altas en mujeres en los cuadrantes sensoriales bajo registro, sensibilidad y evitación sensorial, aunque solo la evitación sensorial alcanzó relevancia clínica. (Véase tabla 12)

Tabla 12. Comparación mujeres y hombres. Variables de estudio.

	Mujer	Hombre	p
AASP	N= 21	N= 69	
AASP cuadrantes puntuación Media (DE)			
AASP-HOS	41 (10)	34,7 (10,3)	0.016
AASP-BS	40,1 (6,9)	40,2 (8,8)	0.970
AASP-SS	40,8 (7,6)	33,5 (9)	0.001
AASP-ES	41,7 (9,7)	34,8 (10,3)	0.008
AASP cuadrantes relevancia clínica N(%)			
Elevado AASP-HOS	11 (52.4)	27 (36.7)	0.305
Elevada AASP-BS	0 (0)	4(5.9)	0.569
Elevada AASP-SS	5(23.8)	7 (10.3)	0.113
Elevada AASP-ES	10(47.6)	16(23.5)	0.034
EDI	N=21	N=71	p
EDI puntuación total			
EDI-ID Mediana (IQR)	51.35(17.4)	48.7(12.2)	0.611
EDI-IR Mediana (IQR)	46.9(11.2)	44.1(13.1)	0.250
EDI significación clínica			
EDI-ID-SC N (%)	10 (50)	29(40.8)	0.465
EDI-IR-SC N (%)	11 (55)	28 (39.4)	0.214

SBS-EM	N=20	N=69	
SBS-EM-F Mediana (IQR)	14(9.5)	10(18)	0.142
SBS-EM-G Mediana (IQR)	7.5(5.25)	6(9.5)	0.594
Número EM por caso de periodicidad al menos semanal Mediana (IQR)	5(5)	3(5)	0.078
Número EM por caso de periodicidad diaria Mediana (IQR)	2(5)	1(3)	0.680

Ver apartado de abreviaturas. En negrita $p < 0.05$

5.3.3.2 Adultos TEA con alto funcionamiento vs adultos TEA con bajo funcionamiento

Nos propusimos estudiar el subgrupo de adultos de la muestra y comparar las diferencias entre los individuos con alto y bajo funcionamiento. Se observó que las personas con autismo de bajo funcionamiento (BF-TEA) tenían un mayor porcentaje de casos con significación clínica en las subescalas alteración del pensamiento y conducta agresiva y en el dominio conductas externalizantes de las escalas ASEBA ($p=0.006$, $p=0.017$, $p=0.025$ respectivamente), una menor presencia de lenguaje fluido ($p=0.000$) y mayor porcentaje de casos en tratamiento psicofarmacológico (0.007), en concreto un mayor uso de antipsicóticos ($p=0.000$) y antiepilépticos ($p=0.041$) (Ver tabla 13).

Tabla 13. Comparación adultos alto/bajo funcionamiento. Características sociodemográficas y clínicas

	AF-TEA N=39	BF-TEA N=17	Sig.
Edad Mediana (IQR)	24(8)	21(7)	0.091
Género (Mujer) N (%)	9(23.1%)	2(11.8%)	0.327
Lenguaje fluido (Si) N (%)	33 (84.6%)	6(35.3%)	0.000
Antecedentes psiquiátricos N (%)	20(52.6%)	12(70.6%)	0.212
TDAH	15(38.5%)	5(29.4%)	0.516
T. depresivo	7(17.9%)	3(17.6%)	0.978
T. ansioso	8(20.5%)	3(17.6%)	0.804
TOC	5(12.8%)	4(23.5%)	0.316
Tratamiento farmacológico actualmente N (%)	19(50)	15(88.2)	0.007
Toma antipsicóticos actualmente N (%)	4(10.3)	12(70.6)	0.000
Toma antiepilépticos actualmente N (%)	2(5.2)	4(23.5)	0.041

Psicoterapia en la infancia N (%)	37(97.4)	15(88.2)	0.168
Inventario ASEBA (significación clínica) N (%)	N=36	N=17	
Aislamiento	9(25)	5 (29.4)	0.734
Ansiedad-depresión	8(22.2)	3(17.7)	0.701
Alteración del pensamiento	6(16.7)	9(52.9)	0.006
Inatención ASEBA	8(22.2)	6(35.3)	0.314
Conducta agresiva	2(5.6)	5(29.4)	0.017
Internalización	17(47.2)	9(52.9)	0.697
Externalización	8(22.2)	9(52.9)	0.025
TOTASEBA	15(41.7)	11(64.7)	0.117

TOTASEBA: significación clínica de la dimensión total del inventario ASEBA. En negrita $p < 0.05$

Respecto a las variables de estudio, se describió una mayor evitación sensorial en AF-TEA ($p=0.011$). También se observó una mayor DE en el grupo de BF-TEA, que presentó un mayor porcentaje de pacientes en rango clínico tanto en EDI-ID-SC como en EDI-IR-SC ($p=0.026$ y $p=0.042$ respectivamente). Los casos con BF-TEA mostraban un mayor número de tipos de estereotipias motoras a la vez ($p=0.007$). (Ver tabla 14)

Tabla 14 . Comparación entre grupos de adultos con alto y bajo funcionamiento PSAA. Variables de interés

	AF-TEA	BF-TEA	Sig.
AASP	N=35	N=17	
AASP cuadrantes puntuación Media (DE)			
AASP-HOS	37.18(10.4)	36.4(20)	0.820
AASP-BS	39.91(9.6)	40.88(8.5)	0.696
AASP-SS	37.36(9)	33.7(9.8)	0.181
AASP-ES	39.6(10)	32.2(9.7)	0.011
AASP cuadrantes relevancia clínica N(%)			
Elevado AASP-HOS	15(38.5)	9(52.9)	0.314
Elevada AASP-BS	3(8.6)	0(0)	0.542
Elevada AASP-SS	6(15.4)	2(11.8)	0.722

Elevada AASP-ES	14(35.9)	2(11.8)	0.066
EDI	N=37	N=17	
EDI puntuación total			
EDI-ID Mediana (IQR)	46.7(12.9)	53.8(11.6)	0.112
EDI-IR Mediana (IQR)	42.3(9.4)	48.1(15.9)	0.023
EDI significación clínica			
EDI-ID-SC N (%)	12(32.4)	11(64.7)	0.026
EDI-IR-SC N (%)	11(29.7%)	10(58.8%)	0.042
SBS-EM	N=34	N=17	
TOTBPI-EM-F Mediana (IQR)	9(21.5)	13(26)	0.346
TOTBPI-EM-G Mediana (IQR)	5(8)	9(14.5)	0.123
Número EM por caso de frecuencia al menos semanal Mediana (IQR)	2(5)	4.75(8)	0.137
Número EM por caso de frecuencia diaria Mediana (IQR)	0(2)	3(9)	0.007

Ver apartado de abreviaturas. En negrita $p < 0.05$

5.3.3.3 TEA con comorbilidad psicopatológica vs TEA sin comorbilidad psicopatológica

Se estudió la relación de TOTASEBA con las variables de interés SEN y DE, previo a su introducción como covariable en el modelo de regresión lineal múltiple ajustado por la variable EM. Se encontraron puntuaciones significativamente más elevadas de AASP-HOS, AASP-HRS, EDI-ID-A, EDI-IR-A en el subgrupo TOTASEBA con significación clínica. No se encontraron diferencias significativas entre los grupos respecto a AASP-BS. (Ver tabla 15).

Tabla 15 . Comparación entre grupos TOTASEBA con/sin significación clínica. AASP y EDI.

	TOTASEBA con SC	TOTASEBA sin SC	Test estadístico	Sig.
AASP	N=39	N=47	t	
AASP-HOS Media (de)	42.3(10.5)	31.7(7.8)	5.375	0.000
AASP-BS Media (de)	41(8.6)	39.6(8.3)	0.758	0.451
AASP-HRS Media (de)	79.2(19.5)	65.4(15.4)	3.680	0.000
EDI	N=41	N=47	z	
EDI-ID Mediana (IQR)	55.2(16.8)	44.4(12.3)	-5.576	0.000
EDI-IR Mediana (IQR)	50.8(11.8)	41.4(6.3)	-5.795	0.000

Ver apartado de abreviaturas. En negrita $p < 0.05$

5.3.3.4 Relación entre grupos de pacientes con subtipos de EM frecuentes u ocasionales/ausentes y las variables de interés

En la comparación de subgrupos de pacientes con diferentes tipos de EM frecuentes u ocasionales/ausentes se observaron diferencias significativas respecto a diferentes cuadrantes sensoriales (aunque la mayoría diferían en las puntuaciones de AASP-HOS). Sin embargo, la odds ratio obtenida para cada subgrupo en función de los subtipos de EM era baja, por lo que la presencia de estas alteraciones sensoriales prácticamente no incrementaba la probabilidad de tener un subtipo específico de EM.

Se encontraron diferencias estadísticamente significativas a nivel de EDI-IR entre los casos que presentaban EM frecuentes de la marcha, cabeza/tronco/hombros y autodirigidas y los que presentaban estas EM de manera ocasional o ausente. EDI-DI sólo se asoció significativamente a las EM autodirigidas frecuentes.

La tabla 16 muestra aquellos resultados que fueron estadísticamente significativos.

Tabla 16. Relación entre subtipos de EM y las variables de estudio

Tipos de EM	Ocasional o ausente	Frecuente	OR	p ratio
EM cara	N=62	N=26		
AASP-BS Media (DE)	38.9 (7.98)	42.9 (8.88)	1.06 [1.00;1.13]	0.048
EM cabeza, tronco, hombros	N=49	N=39		
AASP-HOS Media (DE)	33.5 (10.5)	40.2 (9.31)	1.07 [1.02;1.12]	0.004
EDI-IR Mediana (IQR)	44.2 (8.84)	48.6 (8.93)	1.06 [1.01;1.11]	0.026
EM manos y dedos	N=41	N=47		
AASP-HOS Media (DE)	33.6 (10.1)	39.0 (10.2)	1.06 [1.01;1.10]	0.018
AASP-BS Media (DE)	38.1 (9.49)	41.8 (6.99)	1.06 [1.00;1.12]	0.045
EDI-IR Mediana (IQR)	44.1 (8.32)	47.9 (9.45)	1.05 [1.00;1.10]	0.052
EM de la marcha	N=43	N=45		
AASP-HOS Media (DE)	34.1 (10.6)	38.8 (9.92)	1.05 [1.00;1.09]	0.041
AASP-HRS Media (DE)	68.0 (18.0)	75.9 (18.2)	1.02 [1.00;1.05]	0.049
EDI-IR Mediana (IQR)	43.5 (7.95)	48.7 (9.48)	1.07 [1.02;1.13]	0.009
EM brazos y piernas	N=58	N=30		
AASP-HOS Media (DE)	34.6 (9.82)	40.1 (10.9)	1.05 [1.01;1.10]	0.023
EM autodirigidas	N=74	N=16		
AASP-HOS Media (DE)	39.3 (7.83)	44.1 (10.2)	1.07 [1.00;1.15]	0.049
EDI-ID Mediana (IQR)	49.2 (9.69)	57.4 (11.2)	1.08 [1.02;1.14]	0.007
EDI-IR Mediana (IQR)	45.0 (8.65)	51.6 (9.39)	1.08 [1.02;1.15]	0.007

Ver apartado de abreviaturas. En negrita $p < 0.05$

5.3.4 Relación entre la desregulación emocional y la alteración de reactividad sensorial.

Inicialmente se analizó la correlación entre las variables desregulación emocional y cada uno de los tipos sensoriales. La puntuación de AASP-HOS correlacionó positivamente con EDI-DI y EDI-RI (correlación fuerte y moderada respectivamente). Se observó que la AASP-HRS se correlacionaba positivamente con EDI-DI y EDI-RI (ambas con correlación moderada). La AASP-BS no se correlacionó con ninguno de los dos índices de DE (Véase la figura 8).

5.3.5 Modelos de asociación entre estereotipias motoras, desregulación emocional y alteración de la reactividad sensorial

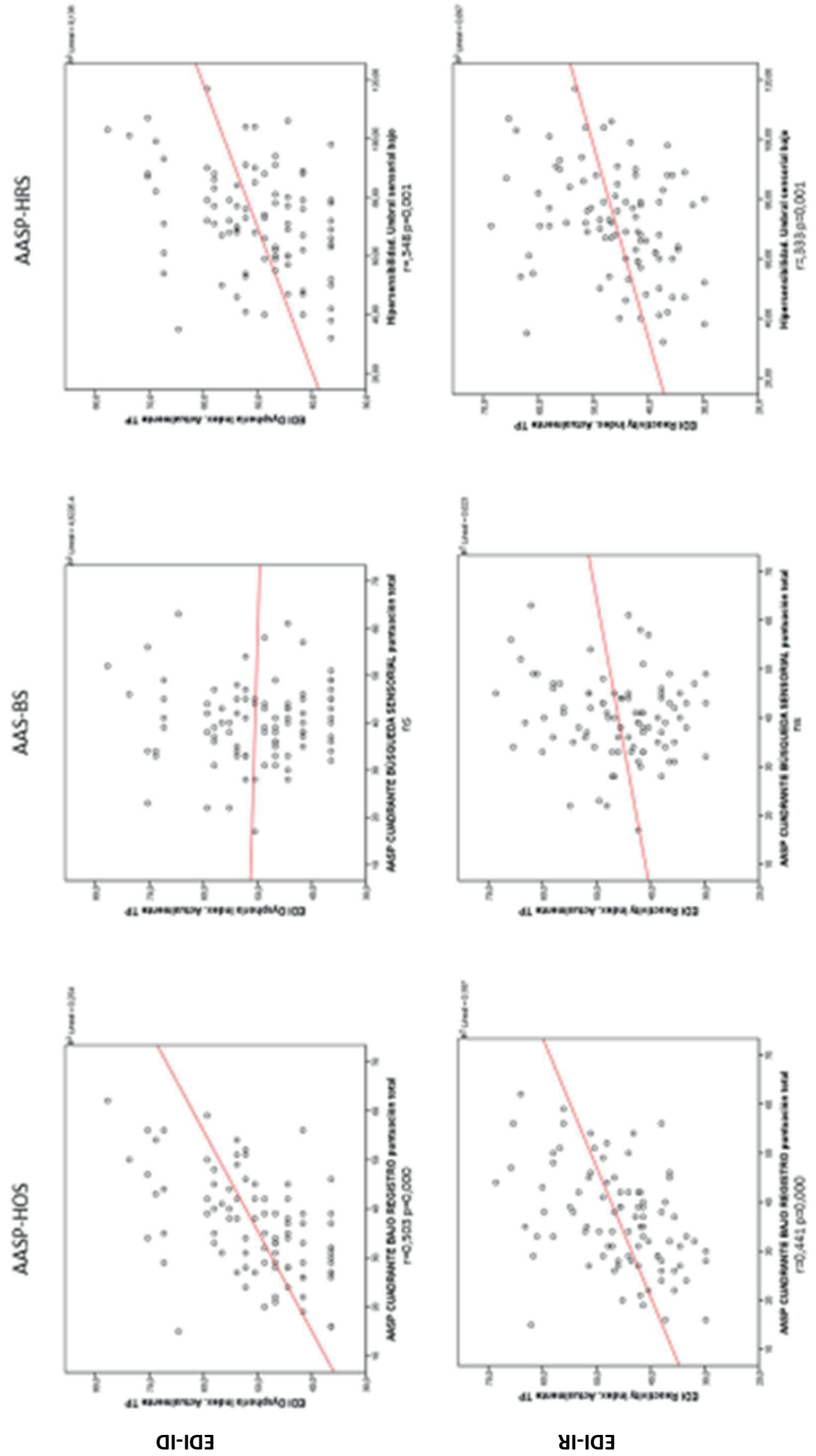
Se utilizó un análisis de regresión lineal múltiple para comprobar si la DE y las diversas alteraciones sensoriales HOS, HRS y BS son variables explicativas de la frecuencia y gravedad de las estereotipias motoras. Se introdujeron la edad, la discapacidad intelectual y la comorbilidad psicopatológica (TOTASEBA) como covariables. A pesar de las correlaciones encontradas entre DE y SENS, los modelos no presentaron problemas de colinealidad. (En material suplementario, al final del documento, se pueden encontrar los modelos de regresión realizados para las variables SBS-F y SBS-G, correspondientes a las puntuaciones totales de frecuencia y gravedad de la escala SBS, con todos los ítems. Tablas S1 y Tablas S2).

5.3.5.1 Modelo de regresión lineal ajustado por la variable SBS-EM-F

El análisis de regresión lineal univariante determinó que todas las puntuaciones de las escalas EDI y AAPS fueron variables explicativas de la frecuencia de estereotipias motoras (SBS-EM-F): EDI-ID (b [coeficiente estandarizado] =0.224, t =2.134, p = 0.036), EDI-IR (b = 0.265, t =2.546, p = 0.013), AASP-HOS (b =0.434, t = 4.445, p =0.000), AASP-BS (b =0.243, t =2.310, p = 0.023), AASP-HRS (b =0.274, t =2.626, p = 0.010).

De las covariables que se consideraron clínicamente relevantes, aquellas que finalmente explicaron de manera significativa la frecuencia de EM fueron la edad, (b =0.282, t =2.742, p =0.007) y la presencia de comorbilidad psicopatológica (TOTASEBA) (b = .0.248, t =2.343, p = 0.021). No se obtuvieron resultados estadísticamente significativos en cuanto al género (p =0.087), la presencia de discapacidad intelectual (p =0.422), la toma de medicación actual

Figura 8. Relación entre la disregulación emocional y los diferentes patrones sensoriales



($p = 0.091$), la toma de antipsicóticos ($p = 0.405$), la toma de antidepresivos ($p = 0.195$) o haber realizado psicoterapia en la infancia ($p = 0.914$).

Se utilizó un modelo ajustado por la variable SBS-EM-F con EDI-IR y las covariables seleccionadas, en el que EDI-IR resultó marginalmente significativa al introducir TOTASEBA en el modelo. Antes de introducir dicha variable, la EDI-IR era significativa (0.466, [0.128, 0.804], $p = 0.009$) (Ver tabla 17).

Se realizaron 3 modelos ajustados por la variable SBS-EM-F con EDI-IR para cada tipo sensorial, junto con las covariables ya comentadas, que resultaron válidos (Ver tabla 16):

El modelo que incluye AASP-HOS junto con edad, discapacidad intelectual y TOTASEBA explicaba el 27% de la varianza de SBS-EM-F. AASP-HOS y la edad fueron variables explicativas significativas en este modelo.

El modelo con AASP-BS explicó el 24% de la varianza de SBS-EM-F. AASP-BS y la edad fueron variables explicativas significativas.

Por último, en el modelo que introducía AASP-HRS, solo la edad demostraba ser una variable explicativa significativa. Este modelo explicaba el 21% de la varianza de SBS-EM-F.

Tabla 17. Resumen de los modelos lineales ajustados por la variable SBS-EM-F

	Variable dependiente SBS-EM-F			
	Modelo 1 EDI-IR	Modelo 2 AASP HOS	Modelo 3 AASP BS	Modelo 4 AASP HRS
EDI-IR	0.372 (-0.050, 0.794) $p = 0.089^*$	0.234 (-0.182, 0.650) $p = 0.275$	0.336 (-0.079, 0.752) $p = 0.117$	0.322 (-0.110, 0.754) $p = 0.148$
AASP HOS		0.506 (0.177, 0.834) $p = 0.004^{***}$		
AASP BS			0.406 (0.049, 0.763) $p = 0.029^{**}$	
AASP HRS				0.135 (-0.055, 0.326) $p = 0.169$
Edad	0.769 (0.268, 1.269) $p = 0.004^{***}$	0.689 (0.208, 1.170) $p = 0.007^{***}$	0.822 (0.332, 1.312) $p = 0.002^{***}$	0.716 (0.208, 1.223) $p = 0.008^{***}$
DI	1.910 (-4.748, 8.569) $p = 0.576$	2.573 (-3.888, 9.035) $p = 0.438$	1.420 (-5.155, 7.995) $p = 0.674$	2.627 (-4.281, 9.536) $p = 0.459$
TOTASEBA	2.869 (-4.626, 10.363) $p = 0.456$	-0.439 (-8.029, 7.150) $p = 0.910$	3.298 (-4.066, 10.661) $p = 0.383$	2.226 (-5.429, 9.881) $p = 0.571$
N	86	84	84	84
R ²	0.176	0.275	0.240	0.211
R ² corregido	0.135	0.229	0.191	0.160
Error estandar residual	14.223 (df = 81)	13.516 (df = 78)	13.846 (df = 78)	14.107 (df = 78)
F	4.329 ^{***} (df = 4; 81)	5.928 ^{***} (df = 5; 78)	4.915 ^{***} (df = 5; 78)	4.162 ^{***} (df = 5; 78)

Ver apartado de abreviaturas. * $p < 0.1$ ** $p < 0.05$ *** $p < 0.01$

5.3.5.2 Modelo de regresión lineal ajustado por la variable SBS-EM-G.

El análisis de regresión lineal univariante determinó que las variables explicativas significativas de la gravedad de estereotipia motora (SBS-EM-G) fueron las puntuaciones en las escalas EDI, en sus formas EDI-ID (b [coeficiente estandarizado]= 0.316, $t = 3.093$, $p = 0.003$) y EDI-IR ($b = 0.343$, $t = 3.388$, $p = 0.001$) y las puntuaciones de los cuadrantes AAPS: AASP-HOS ($b = 0.406$, $t = 4.097$, $p = 0.000$), AASP-HRS ($b = 0.320$, $t = 3.110$, $p = 0.003$). La AASP-BS tuvo un resultado marginal ($b = 0.202$, $t = 1.899$, $p = 0.061$).

Se consideraron para el análisis la mismas covariables que las utilizadas para la regresión de EM-F, obteniendo resultados significativos las variables toma de medicación actual ($b = 0.265$, $t = 2.548$, $p = 0.013$) y TOTASEBA ($b = 0.389$, $t = 3.870$, $p = 0.000$). No fueron covariables estadísticamente significativas en el análisis de regresión la edad ($p = 0.443$), el género ($p = 0.972$), la presencia de discapacidad intelectual ($p = 0.132$), la toma de antipsicóticos ($p = 0.268$) o antidepresivos ($p = 0.827$) y la psicoterapia en la infancia ($p = 0.660$).

Se utilizó un modelo ajustado por la variable SBS-EM-G con EDI-IR y las covariables seleccionadas, en el que EDI-IR perdió la significación al introducir TOTASEBA en el modelo. Se encontró que TOTASEBA era la única variable explicativa en este modelo. Antes de introducir dicha variable, la EDI-IR era significativa (0.243, [0.091,0.395], $p = 0.003$) (Ver tabla 18).

Se realizaron 3 modelos ajustados por la variable SBS-EM-G para cada tipo sensorial, junto con las covariables, que resultaron válidos (Ver tabla 18):

El modelo que incluye AASP-HOS explicaba el 23% de la varianza de SBS-EM-G. AASP-HOS fue la única variable explicativa significativa en este modelo.

El modelo con AASP-BS explicó el 20% de la varianza de SBS-EM-G. AASP-BS y TOTASEBA fueron variables explicativas significativas.

Por último, en el modelo que introducía AASP-HRS, solo la AASP-HRS demostraba ser una variable significativa. Este modelo explicaba el 22% de la varianza de SBS-EM-G.

Tabla 18. Resumen de los modelos lineales ajustados por la variable SBS-EM-G

	Variable dependiente SBS-EM-G			
	Modelo 1 EDI-IR	Modelo 2 AASP HOS	Modelo 3 AASP BS	Modelo 4 AASP HRS
EDI-IR	0.123 (-0.062, 0.308) p = 0.197	0.061 (-0.125, 0.248) p = 0.523	0.100 (-0.085, 0.286) p = 0.293	0.070 (-0.116, 0.257) p = 0.462
AASP-HOS		0.179 (0.032, 0.327) p = 0.020**		
AASP-BS			0.124 (-0.035, 0.284) p = 0.130	
AASP-HRS				0.091 (0.008, 0.173) p = 0.034**
Edad	0.109 (-0.110, 0.329) p = 0.333	0.071 (-0.145, 0.286) p = 0.524	0.116 (-0.103, 0.335) p = 0.302	0.058 (-0.161, 0.277) p = 0.607
DI	1.253 (-1.665, 4.172) p = 0.403	1.764 (-1.131, 4.659) p = 0.236	1.355 (-1.580, 4.290) p = 0.369	2.162 (-0.821, 5.146) p = 0.160
TOTASEBA	3.696 (0.411, 6.981) p = 0.031**	2.124 (-1.277, 5.524) p = 0.225	3.450 (0.163, 6.737) p = 0.043**	2.728 (-0.578, 6.034) p = 0.110
N	86	84	84	84
R ²	0.188	0.230	0.198	0.220
R ² corregido	0.147	0.180	0.146	0.170
Error estándar residual	6.234 (df = 81)	6.055 (df = 78)	6.180 (df = 78)	6.093 (df = 78)
F	4.673*** (df = 4; 81)	4.655*** (df = 5; 78)	3.844*** (df = 5; 78)	4.408*** (df = 5; 78)

Ver apartado de abreviaturas. *p<0.1 **p<0.05 ***p<0.01

5.3.6 Cambios en la presencia de EM y DE con el tiempo

Se realizó un análisis de muestras dependientes con el test de Wilcoxon, comparando la puntuación total de la escala SBS-EM-F en el pasado (SBS-EM-P-F) respecto a la puntuación actual (SBS-EM-A-F) y se comprobó una reducción significativa de la misma ($Z=-5,801$, $p=0.000$). La misma evolución se observó con la puntuación de la escala SBS-EM-G ($Z=-6,608$, $p=0.000$) (Ver tabla 18).

También disminuyeron los valores de EDI-ID y EDI-IR actual (EDI-ID-A y EDI-IR-A) en comparación con el pasado (EDI-ID-P y EDI-IR-P) ($Z=-4,290$, $p=0.000$ y $Z=-5,657$, $p=0.000$, respectivamente) (Ver tabla 19).

Tabla 19. Cambios en las estereotipias motoras y desregulación emocional con el tiempo

	N	Media	Min	Max	Suma de rangos positivos	IC	Sig. (bilateral)
SBS-EM-F							
SBS-EM-PAS-F	89	19.3(15.1)	0	106	2581.5	[3,6]	<0.001
SBS-EM-F	89	14.6(15.1)	0	107			
SBS-EM-G							
SBS-EM-PAS-G	89	11.1(7.4)	0	31	2368	[3,4.5]	<0.001
SBS-EM-G	89	7.9(6.7)	0	30			
EDI-ID							
EDI-ID-PAS	91	53.7 (10.9)	36.4	77.7	1634.5	[2.75,6.7]	<0.001
EDI-ID	91	50.5(10.3)	36.4	80.4			
EDI-IR							
EDI-IR-PAS	91	49.5(14.1)	29.8	79.2	2989	[3.8,7.5]	<0.001
EDI-IR	91	44,1(12.7)	29.8	68.6			

Ver apartado de abreviaturas. En negrita $p < 0.05$

5.4 Discusión

Nuestro estudio mostró una asociación de las estereotipias motoras, tanto en frecuencia como en gravedad, con la desregulación emocional y la alteración de la reactividad emocional. Sin embargo, al utilizar un modelo de análisis múltiple, sólo HOS fue variable explicativa de la gravedad y frecuencia de las EM, HRS explicó la gravedad de las EM y BS explicó la frecuencia de las EM. Además, se aportó una descripción detallada de los tipos de EM más prevalentes, de su duración en general y por subtipos, de su probabilidad de permanencia a lo largo de la vida y la relación de los subtipos de EM con la SEN y la DE. Se describió una reducción de las EM y la DE con el tiempo.

5.4.1 Descripción de la muestra.

Respecto al perfil sensorial de nuestra muestra, destacó una elevada prevalencia de HOS. Esto coincide con lo hallado en la literatura por otros autores, que consideran la HOS como el cuadrante sensorial más específico de TEA (en comparación con DI y TD) (Baranek et al., 2006; Ben-Sasson et al., 2019).

En cambio, casi la mitad de los casos tenía una baja BS y sólo un 4.5% tenía una elevada BS, en contra de lo observado en el metaanálisis de Ben-Sasson (2019) (Ben-Sasson et al., 2019). Curiosamente, en este metaanálisis, 7 de los 30 estudios tuvieron una menor BS, 6 de los cuales incluyeron adolescentes y adultos TEA y 5 de 6 usaron la AASP, al igual

que nuestro estudio. Observaron, además, que el efecto de la BS está moderado por las escalas autoadministradas. Sin embargo, el estudio de Gonthier, por ejemplo, en una muestra de individuos TEA-DI, adaptó la AASP a escala heteroaplicada y obtuvo un resultado similar al de nuestro estudio (Gonthier et al., 2016). Esto explicaría nuestro resultado y nos llevaría a plantear la hipótesis de que la AASP sea poco sensible en la detección de BS en TEA. Otra posible explicación de la baja BS, es que la BS disminuye con la edad y el mayor CI, tal como describe Ben-Sasson (2019) en su metaanálisis (Ben-Sasson et al., 2019).

También encontramos una baja prevalencia de HRS (21.1%) a diferencia del estudio de revisión de Ben-Sasson et al (2019), que describió que la HRS era la alteración sensorial encontrada con más consistencia en TEA respecto a todos los grupos de comparación. Según esta revisión ni la edad ni el CI eran moderadores del efecto de HRS, por lo que estas variables no explicarían nuestro hallazgo (Ben-Sasson et al., 2019). Al contrario, en la comparación realizada entre AF-TEA y BF-TEA en nuestro estudio, observamos que la evitación sensorial estaba significativamente más elevada en el primer grupo. El estudio de Gonthier et al. (2016), que utilizó también la escala AASP, encontró como en nuestro estudio una baja SS y ES (Gonthier et al., 2016).

En cuanto a las modalidades sensoriales, el nivel de actividad y del procesamiento auditivo son las que obtienen puntuaciones relativas más elevadas, en los cuadrantes HOS y SS. Para el resto de los cuadrantes, no predomina una modalidad sensorial sobre otra. El hallazgo de la asociación entre EM y procesamiento auditivo también fue descrito por Kargas et al. (2015) que observó que la alteración en la discriminación de estímulos auditivos se asociaba a patrones motores repetitivos (Kargas et al., 2015), y Kanakri et al. (2017) reportó un incremento de EM en contexto de elevado nivel de ruido ambiental (Kanakri et al., 2017).

El 42.9% de nuestros participantes mostraron desregulación emocional en cada una de sus modalidades (índice de disforia y de reactividad emocional). En la literatura, en cambio, encontramos cifras de entre el 50-80% (Keluskar et al., 2021). Esto puede ser debido a que con la edad, la DE va disminuyendo (Cai et al., 2018), aunque persiste en edad adulta (Samson et al., 2012). Los adultos TEA con DE, manifiestan menos alteración conductual, usan menos reevaluación cognitiva y más supresión expresiva, muestran más pensamientos rumiativos, ansiedad/depresión (Hervás, 2017). Esto coincide con nuestro hallazgo de baja prevalencia de externalización (29.2%), pero no con la prevalencia de índice de reactividad clínicamente significativo encontrado (42.9%). Esto contrasta con el

paralelismo que establece Mazefsky entre externalización e índice de reactividad emocional (Mazefsky et al., 2018). Otra explicación posible sería que, ya que al menos el 55% de la muestra presenta EM diarias, éstas se están utilizando con la función de reducir el arousal y la ansiedad (Ben-Sasson, A., & Stephenson, 2021).

5.4.2 Descripción de las estereotipias motoras, los subtipos de EM y evolución de EM y DE con el tiempo

La presencia de EM en nuestro estudio fue cercana al 90% con una periodicidad mensual, y del 55.6 % con una periodicidad diaria. Este hallazgo es congruente con la prevalencia de EM para el TEA en general según algunos estudios (Melo et al., 2019). Aunque hemos observado una reducción estadísticamente significativa de las puntuaciones de SBS-EM-F y SBS-EM-G con el tiempo, los pacientes adolescentes/adultos continúan presentando una elevada prevalencia de EM, lo que contrasta con lo descrito en la literatura respecto a la reducción de las EM con la edad (Melo et al., 2019). De hecho, encontramos en nuestros participantes, que el porcentaje de años vividos con EM que supera de media el 80%.

Destaca además que el 25.8% de nuestra muestra, tienen 4 o más tipos de estereotipias diariamente y el 61.8% tienen 4 o más tipos de EM al menos mensualmente.

Los tipos de EM más prevalentes, y de elevada periodicidad, fueron los movimientos con las manos y pasearse de un lado a otro (que entraría en la categoría de EM de la marcha) Las EM con las manos y las de la marcha, precisamente, han sido descritas por otros autores como las más específicas de TEA (Goldman et al., 2009; Kumar et al., 2022).

Curiosamente, la periodicidad de estas EM específicas tendió a mantenerse a lo largo del tiempo, a diferencia de lo observado con la EM "movimientos corporales" (EM no específica de TEA) (Kumar et al., 2022), que también fue prevalente en la actualidad y en el pasado, pero que cambió la periodicidad de diaria a mensual con el tiempo. Cabría estudiar si este tipo de EM están más asociadas a las alteraciones genéticas o neuroanatómicas descritas en la introducción. En comparación con el pasado, observamos una reducción predominante de las EM que se podrían considerar, a priori, más relacionadas con la propiocepción y el sistema vestibular, pero también son las más inapropiadas socialmente (agitación de brazos y manos, brincar, balancearse o correr repentinamente), lo que nos lleva a la considerar que posiblemente las personas con TEA, con la edad sustituyen estas conductas por otras más adaptadas (Hervás, 2017; Berry et al., 2018) o evitan realizarlas en público por el estigma social (Williams et al., 2021). Si este fuera el caso, siendo que

en nuestra muestra predominan los hombres, podríamos afirmar que no sólo las mujeres enmascaran síntomas y nos lleva a plantear el papel que puede ejercer el contexto en la aparición de las EM. Puede que con el tiempo se haya aprendido a gestionar situaciones o evitar contextos que desencadenaban determinados tipos de EM. Se necesitan más estudios para averiguar en qué contextos se presentan o no EM en poblaciones de adolescentes y adultos con TEA.

Es llamativo que las EM de cabeza/tronco/hombros y las de la marcha, que son las que más tendencia tienen a extinguirse con el paso del tiempo, son las que se relacionan con el índice de reactividad emocional actual (también se asocian las EM autodirigidas, pero estas se asocian además con el índice de disforia). Esto podría explicarse porque aquellos que han adquirido una buena capacidad cognitiva sustituyen el uso de EM, como estrategia de regulación, por las CIRR, pero manifestarán, en cambio, clínica ansioso-depresiva. Por otro lado, en aquellos que no tienen esta capacidad, mantienen las EM y persiste la DE con manifestaciones más conductuales (Lidstone et al., 2014; Hwang et al., 2020).

También se ha observado que prácticamente todos los tipos de EM se asocian a HOS, lo que parece indicar que para HOS no hay una asociación específica a un tipo determinado de EM, como también indica la baja magnitud del efecto (odds ratio cercana a 1). En cambio, las EM de la cara sólo se asocian a BS y las EM de manos y dedos se asocian a BS y HOS, aunque una vez más la odds ratio es baja. Por otro lado, las EM de cara y manos y dedos, que se asocian a BS, tienen más tendencia a permanecer con el tiempo. Es probable que, al reducirse la BS con la edad (Ben-Sasson et al., 2019), sólo se mantengan las EM más adaptadas.

Falta determinar si la tipología de EM, su frecuencia y gravedad, y su asociación con otras variables y contextos, pueden ayudar al diseño de tratamientos más específicos de las EM y a la clasificación de subgrupos fenotípicos que faciliten la identificación de genes de riesgo. Esto podría tener implicaciones prácticas en las estrategias de detección temprana, diagnóstico, prevención de comorbilidad, tratamiento y consejo genético.

5.4.3 Asociación EM, DE Y SENS

5.4.3.1 Relación SENS y DE

Se encontró asociación de DE con HOS e HRS, pero no con BS, siendo la correlación entre HOS e índice de disforia una asociación fuerte. Gonthier et al (2016) encontró menos labilidad y euforia en los grupos HOS y HRS, en su muestra de adultos con DI, pero tenían HOS y HRS más bajas que la encontradas en otros estudios (Gonthier et al., 2016).

Otros estudios han encontrado también una relación de HOS con problemas emocionales; en concreto con ansiedad, depresión e internalización (Feldman et al., 2020; Tseng et al., 2011). La relación entre HOS y DE puede estar mediada por la dificultad para integrar la información interoceptiva y exteroceptiva, lo que afecta al reconocimiento de emociones (alexitimia) y al aprendizaje e integración de nueva información lo que impide una correcta RE.(Sofronoff et al., 2007; Proff et al., 2022). La base neuroanatómica de esta asociación se podría explicar por la afectación temprana de la sustancia blanca del cuerpo calloso y cerebelo (Wolff et al., 2017).

En la literatura se ha descrito, como en nuestro estudio, relación entre HRS y las manifestaciones de DE; internalización, externalización, ansiedad y depresión (Feldman et al., 2020; Glod et al., 2015; Tseng et al., 2011). La HRS genera una experiencia sensorial aversiva que desemboca en ansiedad, aumento de arousal y desregulación emocional, que a su vez, junto con el condicionamiento de estímulos que inicialmente eran neutros empeora la HRS, genera intolerancia a la incertidumbre y aumenta la ansiedad (Ben-Sasson & Stephenson, 2021; Williams et al., 2021). La base neuroanatómica de esta asociación se podría explicar por el aumento de arousal relacionado con la deficiente conectividad estructural y funcional entre el tronco encefálico y el sistema límbico (Mazefsky et al., 2014; White et al., 2014), la falta de habituación de la amígdala y la corteza sensorial a los estímulos sensoriales (Green et al., 2015) y al desbalance inhibición/excitación por alteración en el sistema GABAérgico. (Robertson & Baron-Cohen, 2017).

En nuestro estudio, la BS no se asoció a la desregulación emocional. Otros autores sí encontraron relación de BS con internalización, externalización, irritabilidad y agresividad.(Feldman et al., 2020; Gonthier et al., 2016; Samson et al., 2014; Tseng et al., 2011). En cambio, Samson et al. (2014) describió en su modelo de regresión, que sólo la

puntuación total de CIRR, y no la sensibilidad sensorial, predice la DE (Samson et al., 2014). Estas inconsistencias pueden deberse a la baja BS en nuestra muestra y a las diferentes características de las muestras entre estudios en cuanto a edad y presencia de DI.

Podría interpretarse que la BS no está relacionada con los problemas emocionales, sino con que el feedback positivo que la estimulación sensorial genera, sensibilizaría las estructuras cerebrales inferiores y ayudaría a aumentar hasta niveles óptimos el arousal (Dantzer, 1986), favoreciendo un tono cerebral rítmico que permitiría la autorregulación y mejoraría la capacidad de atención (McCarty & Brumback, 2021). Este proceso podría estar relacionado con la activación de las áreas cerebrales que intervienen en el sistema de recompensa y con el deficiente control inhibitorio cortical (Joosten et al., 2012; Boyd et al., 2010). Cuando la experiencia positiva de la autoestimulación excede la capacidad de control inhibitorio (Samson et al., 2014) y dada la deficiente integración de la información sensoriomotora (Proff et al., 2022) se puede provocar desbordamiento emocional (Williams et al., 2021). Se ha descrito que las personas con TEA realizan menos intentos y son menos efectivos en regular las emociones positivas (Samson et al., 2015).

5.4.3.2 Relación DE, EM y SEN

Modelo 1 SBS-EM-F y SBS-EM-G con EDI-IR

En los modelos de regresión múltiple se analizó por separado la SBS-EM-F y SBS-EM-G como variables dependientes y se introdujo inicialmente en el análisis EDI-IR, con el resto de covariables menos TOTASEBA. Se utilizó el EDI-IR porque la correlación con EDI-ID era fuerte y las características de los individuos TEA que lo presentan elevado coinciden con aquellos que suelen mostrar CIRR de bajo nivel, aunque las características de los individuos de nuestra muestra no coinciden con esta descripción, sino más bien con aquellos que presentan ansiedad (relacionada con EDI-ID) que se asocia más a CIRR de alto nivel (adolescentes/adultos TEA sin DI) (Berry et al., 2018; Estes et al., 2007).

Se encontró que la DE era variable explicativa de SBS-EM-F y SBS-EM-G. Este hallazgo coincide con otros estudios que asocian problemas emocionales a EM (Boyd et al., 2009; Fetta et al., 2021; Gal et al., 2010; Hwang et al., 2020; Purpura et al., 2022; Tillmann et al., 2020) y contrasta con el de Martínez-González et al. (2021) (Martínez-González et al., 2021). Al introducir como covariable TOTASEBA, la desregulación emocional dejaba de ser variable explicativa, posiblemente por la relación existente entre ambas variables (Modelo 1 con SBS-EM-F). TOTASEBA fue variable explicativa de SBS-EM-G, pero no de SBS-EM-F.

Posteriormente, se utilizó un modelo para cada patrón sensorial utilizando por lo demás las mismas variables de interés y covariables del Modelo 1 para SBS-EM-F y SBS-EM-G.

Modelo 2 SBS-EM-F y SBS-EM-G con AASP-HOS:

La HOS mantuvo su significación cuando se controló por otras variables tanto en relación a SBS-EM-F y SBS-EM-G. La comorbilidad psiquiátrica (TOTASEBA) dejó de ser una variable explicativa de EM, posiblemente por la fuerte asociación existente entre HOS y DE.

El hallazgo de asociación de HOS con EM, coincide con otros estudios (Fetta et al., 2021; Gal et al., 2010; Wigham et al., 2015) y contrasta con el estudio de Boyd et al. (2010) que no encontró relación de EM con HOS, cuando se controló por HRS y BS (Boyd et al., 2010).

La relación entre HOS y las EM podría explicarse por una base neurobiológica común, ya que ambos síntomas se manifiestan precozmente, en los 6 primeros meses de vida y porque se han encontrado circuitos cerebrales involucrados en ambos: alteración en el circuito CGBT o en la conexiones del cuerpo caloso y cerebelo y con mediación de los sistemas dopaminérgico y GABAérgico (Péter et al., 2017; Robertson & Baron-Cohen, 2017; Wolff, et al., 2017). Además, las EM pueden resultar de la perpetuación de conductas motoras básicas debido a una falta de feedback sensorial (que limita el aprendizaje), y a un deficitario control inhibitorio, (Boyd et al., 2010; Bhat et al., 2011; Shafer et al., 2017; Mostert-Kerckhoffs et al., 2015). Por otro lado, las EM pueden tener una función de compensar el déficit en la integración sensorial y motora mediante la regulación de los ritmos cerebrales a través del efecto directo o indirecto (feedback sensorial) del movimiento repetitivo, lo que contribuiría a mejorar el procesamiento sensorial y la atención. (McCarty & Brumback, 2021). La mejoría en la integración sensorial secundariamente también favorecería la regulación emocional (Sofronoff et al., 2007) y la mejora de la atención conjunta necesaria para adquirir habilidades más complejas (Baranek et al., 2013). De hecho, los testimonios en primera persona de TEA, refieren que las EM mejoran su capacidad para centrar la atención y la concentración.(Goldfarb, Zafrani & Gal, 2021; McCarty & Brumback, 2021). También podríamos considerar que los pacientes con HOS recurren a las EM en un intento de provocar experiencias sensoriales, en cuyo caso tendríamos que catalogar este patrón sensorial como BS, lo que no queda reflejado en los ítems de la escala AASP, ya que este instrumento no es específico de TEA. (Gonthier et al., 2016).

Modelo 2 SBS-EM-F y SBS-EM-G con AASP-HRS:

La HRS no fue variable explicativa de SBS-EM-F, pero sí de SBS-EM-G (la única variable explicativa). Otros estudios encontraron asociación entre CRSM e HRS en general (Boyd et al., 2010; Schulz, 2018) y por modalidades sensoriales HRS visual/auditiva (Fetta et al., 2021). En cambio, Baranek no encontró asociación de HRS táctil con CRSM (Baranek et al., 1997). Posiblemente, el hecho de que en nuestra muestra la HRS fuera poco prevalente y no se asociara a la frecuencia de EM, tenga relación con que con la edad las personas con TEA aprenden a evitar o afrontar contextos aversivos sin la necesidad de recurrir a las EM, lo que reduciría su frecuencia de aparición. La ansiedad, entonces, se asociaría con CIRR (Hwang et al., 2020; Williams et al., 2021) En cambio, cuando la HRS aparece en determinados contextos percibidos como amenazantes, demasiado intensos o imprevisibles, la ansiedad se dispara, las emociones se desregulan, y las EM sí que se manifiestan con intensidad (SBS-EM-G) (Joosten et al., 2012; Williams et al., 2021). En este caso las EM tendrían la función de bloquear la entrada sensorial y reducir el arousal, la ansiedad y la incertidumbre (Joosten et al., 2009; Lane, 2021; Lidstone et al., 2014). De hecho, las personas con TEA tienen la autopercepción de que las CIRR mejoran su regulación emocional y la ansiedad, la incomodidad y dificultad para concentrarse generada por la HRS (Goldfarb, Zafrani & Gal, 2021; Williams et al., 2021).

La atenuación de la habituación de la amígdala y la corteza sensorial ante estímulos (Green, Ben-Sasson & Soto, 2012), junto con el desbalance inhibición/excitación mediado por disfunción del sistema GABAérgico (Robertson & Baron-Cohen, 2017) y la falta de control inhibitorio (Boyd et al., 2010), y el aumento de arousal por la alteración de la conexión del tronco encefálico y sistema límbico (White et al., 2014) podría ser la base neurobiológica de la asociación entre EM, problemas emocionales y HRS. La amígdala se ha implicado en el origen de EM (Kim, Lim & Kaang, 2016) y en la regulación emocional (Sofronoff et al., 2007)

Modelo 3 SBS-EM-F y SBS-EM-G con AASP-BS

La búsqueda sensorial sólo fue variable explicativa en el modelo SBS-EM-F y no en el de SBS-EM-G. Es posible que las EM por BS estén más sujetas al control voluntario, con aparición en contextos más lúdicos, no sociales (Kirby et al., 2017), lo que resultaría en una menor interferencia en el funcionamiento (menor gravedad EM) o que con la edad (en adolescente/adulto TEA) mantengan las EM más aceptadas socialmente (EM de manos y dedos) y se sustituyan las EM más inapropiadas por otras CIRR más adaptadas que les

proporcionan estas experiencias sensoriales (Hervás Zúñiga, 2017; Berry et al., 2018). Sólo uno de los autores que estudiaban la asociación entre BS y CRSM encontró relación significativa (Fetta et al., 2021). Según la literatura, las personas con elevado umbral sensorial y bajo arousal, usarían las EM como una forma de autoestimulación para generar experiencias sensoriales que no pueden obtener del ambiente, lo que le reportaría autorregulación, adaptación de la conducta y aprendizaje (Lane, 2021; Lidstone et al., 2014), así como también una experiencia placentera que reforzaría su repetición (Cunningham & Schreibman, 2008; Joosten et al., 2009). La relación de la BS con las EM estaría en consonancia, en caso de que no exista una HRS, con el hallazgo de que en ambientes pobres en estímulos aumenta la tendencia presentar EM y en los ambientes ricos en estímulos se reducen (Berkson & Tupa, 2000).

La base neurobiológica común podría encontrarse en el sistema de recompensa (Kim, Lim & Kaang, 2016) y la falta de control inhibitorio (Mostert-Kerckhoffs et al., 2015), funcionando de alguna manera como el ciclo de las adicciones, ya que la EM generada favorece la integración de estímulos propioceptivos y de otra índole que refuerzan la conducta estereotipada (Gal et al., 2002; Dantzer, 1986).

5.4.4 Otras covariables y análisis de subgrupos

5.4.4.1 Edad

La edad fue la variable que mejor explicó la relación con los modelos con SBS-EM-F, pero no con la SBS-EM-G. Curiosamente la asociación era positiva, es decir, a más edad más EM, a diferencia de lo que ocurre en otros estudios (Melo et al., 2019) y contrasta con el resultado que hemos encontrado de tendencia de reducción de EM en relación al pasado. La relación de la edad con la SENS y las EM ya está presente desde primera infancia y va disminuyendo con el tiempo (Ben-Sasson et al., 2019; Purpura et al., 2022; Wolff et al., 2019). En relación con la BS, no existe una relación lineal con los grupos de edad, existe un incremento entre los 6-9 años y una reducción posterior (Ben-Sasson et al., 2019). Nuestro resultado se podría explicar por la influencia de algunos valores atípicos en nuestra muestra, o quizás significa que, aquellos que no han reducido las EM durante la infancia, ya no las reducen en la adolescencia/edad adulta, tal como hemos visto en las curvas de supervivencia de Kaplan Meier. El hecho de que la SBS-EM-G no se relacione con la edad, en cambio, podría significar, como hemos visto con las curvas de Kaplan-Meier, que con la edad se mantienen las EM más adecuadas socialmente, y puede que más eficaces como estrategia de afrontamiento, sin que interfieran en su vida diaria.

La diferencia de edad puede ser la responsable de las inconsistencias de nuestros resultados en comparación con otros estudios, ya que, según la literatura, durante la infancia la desregulación emocional se puede manifestar de forma conductual como estereotipias motora, y en cambio, en el adulto, a medida que se van desarrollando otras estrategias más cognitivas la desregulación emocional se manifiesta con ansiedad y depresión o con conductas repetitivas de alto nivel (Grossi et al., 2021)..

5.4.4.2 Género

La única diferencia estadísticamente significativa que se observó entre hombres y mujeres con TEA en nuestra muestra fue que éstas tenían puntuaciones más altas en los cuadrantes sensoriales HOS, SS y ES, aunque sólo la evitación sensorial alcanzó una relevancia clínica. Existen pocos estudios en la literatura que estudien las diferencias sensoriales entre hombres y mujeres. Ben-Sasson et al. (2019) no pudo realizar metaanálisis con esta variable, pero observó que el género no moderaba los resultados de SENS (Ben-Sasson et al., 2019) y Bitsika et al. (2018) prácticamente no encontró diferencias de género (Bitsika et al., 2018) en cuanto a SENS (Sólo un aumento de flexibilidad de movimiento en hombres respecto a mujeres). Horder encontró en cambio que los hombres puntuaban más bajo en la escala AASP (Horder et al., 2014).

5.4.4.3 Discapacidad intelectual

En los modelos de regresión, la DI sólo tuvo una influencia marginal en el modelo de SBS-EM-G con HRS.

En el análisis de comparación de adultos TEA con y sin discapacidad intelectual se encontraron algunas diferencias que cabe mencionar.

A nivel sensorial se describió una mayor evitación sensorial, estadísticamente significativa, en AF-TEA, aunque su relevancia a nivel clínico fue marginal. Puede que, a diferencia de la HOS donde hay una ausencia de feedback sensorial que dificulta el aprendizaje, la adquisición de lenguaje y desarrollo motor (Robertson & Baron-Cohen, 2017), la presencia de HRS sí favorezca el desarrollo cognitivo.

Por su parte, el grupo con BF-TEA presentó un mayor número de EM, coincidiendo con otros estudios (Goldman et al., 2009; Melo et al., 2019). Para Goldman et al. (2009), la correlación de EM con la gravedad del autismo y la DI, que son marcadores de la disfunción subcortical subyacente mediada por la dopamina, indicarían un origen neurobiológico directo de las EM (Goldman et al., 2009). Esto es compatible también con la presencia de EM características en el autismo sindrómico provocado por variantes genéticas conocidas

(Sztainberg & Zoghbi, 2016b).

Sin embargo, no hubo diferencias significativas en la puntuación total de la SBS-EM-F y SBS-EM-G. Los hallazgos en relación a la puntuación de la SBS-EM-F contrastan con la revisión de Melo et al. (2019), que describió una mayor proporción de individuos con EM en los grupos TEA-DI (Melo et al., 2019). Esto puede ser debido a que los estudios de esta revisión no cuantifican la periodicidad de las EM y la puntuación de nuestra escala SBS-EM-F sí. Por otro lado, la no existencia de diferencias en SBS-EM-F y SBS-EM-G en nuestro estudio, es congruente con la elevada prevalencia de EM en nuestra muestra (con predominio de casos AF-TEA) y con lo reportado por Leekam et al. (2011) que indica la persistencia de las CIRR de bajo nivel en individuos mayores con TEA con buena capacidad cognitiva (Leekam, Prior & Uljarevic, 2011).

Respecto a la DE, por otro lado, el grupo BF-TEA presentó más DE clínicamente significativa que el grupo AF-TEA. Esto contrasta con lo descrito por Cibralic et al. (2019) (Cibralic et al., 2019), pero podría explicarse por una manera diferente de expresar la DE, ya que los individuos TEA-DI presentan mayores niveles de hiperactividad e irritabilidad (Estes et al., 2007). Tampoco se encontró una mayor prevalencia de ansiedad/depresión medida con el inventario ASEBA en los casos AF-TEA, como reportan otros estudios (Estes et al., 2007; Sukhodolsky et al., 2008; Weisbrot et al., 2005; Witwer & Lecavalier, 2010).

Podríamos explicar estos resultados conforme a que los adultos AF-TEA utilizan las EM como mecanismo homeostático para controlar la DE (refuerzo negativo), junto con otras estrategias cognitivamente más elaboradas, de una manera más adaptada y efectiva que los adultos BF-TEA. Cuando esto no se consigue, se manifiesta la ansiedad/depresión en caso de los AF-TEA. En cambio, en las personas BF-TEA, las EM podrían ser consecuencia de una peor integración de la información sensorial, emocional, cognitiva (intelectual y de funciones ejecutivas) y motora que daría como resultado un desequilibrio a diferentes niveles que no se acaba de compensar con el uso de estrategias de afrontamiento peculiares y desadaptativas (Gal et al., 2010; Leekam, Prior & Uljarevic, 2011), resultando en una mayor expresión de DE.

5.4.4.4 Psicopatología

Cuando se introdujo la variable TOTASEBA en los modelos de regresión logística, se perdió la significación de la DE. Esta variable, incluye de hecho la DE en su puntuación, ya que,

al menos en la versión CBCL del inventario ASEBA, la suma de las puntuaciones típicas de las subescalas ansiedad/depresión, inatención y conducta agresiva constituyen la escala de desregulación emocional CBCL-DP, que mide DE y que utilizamos en el estudio 1 (Greenlee et al., 2021; Joshi et al., 2018; Keluskar et al., 2021). Así, el análisis comparativo entre los grupos TOTASEBA con/sin significación clínica mostró una mayor DE en el primer grupo.

Por otro lado, existe un solapamiento de los síntomas que miden algunas de las subescalas del inventario ASEBA (aislamiento, problemas sociales, alteración del pensamiento e inatención) con los síntomas propios del TEA que también podrían explicar este hallazgo (Arias et al., 2022).

A pesar de estas limitaciones, es posible que otras comorbilidades psiquiátricas influyan en la aparición de EM (Leekam, Prior & Uljarevic, 2011) y en la expresión de la respuesta sensorial. Según Ben-Sasson et al. (2019), los síntomas psicopatológicos incluyendo ansiedad, los problemas gastrointestinales y los problemas de sueño pueden moderar la expresión de la respuesta sensorial (Ben-Sasson et al., 2019). En nuestro análisis, encontramos relación de HOS con el aumento de psicopatología (TOTASEBA), pero no con BS.

El hecho de que TOTASEBA sea significativo en el modelo SBS-EM-G y no el SBS-EM-F puede indicar que la gravedad de las EM afecta al funcionamiento generando malestar clínicamente significativo (Miller et al., 2021). Este efecto se perdió en los modelos 2 AASP-HOS y 4 AASP-HRS al introducir las variables SENS, que explican mejor la aparición de EM.

En cambio, en el modelo AASP-BS la variable TOTASEBA fue la única variable explicativa de SBS-EM-G, posiblemente porque la BS y la TOTASEBA no están asociadas, tal como se observó en el análisis realizado y porque la BS elevada en nuestra muestra fue muy poco prevalente.

Es fundamental realizar un estudio exhaustivo de las comorbilidades psiquiátricas y determinar su influencia en la aparición de EM, sobre todo porque pueden ser tratables.

En cuanto a la subescala ansiedad/depresión, el análisis de regresión lineal univariante no mostró relación con EM en nuestra muestra de adolescentes/adultos, consistente con lo descrito por Lidstone et al. (2014) y Williams et al. (2021) (Lidstone et al., 2014; Williams et al., 2021) y en contra de los hallazgos de otros autores (Hwang et al., 2020; Joyce et al., 2017; Leekam et al., 2007) y de los resultados de nuestro Estudio 1 en niños menores de 12 años.

5.4.4.5 Tratamientos

El tratamiento farmacológico actual, aunque no se pudo incluir en el análisis de regresión múltiple, se asoció a la gravedad de las EM, aunque no a su frecuencia. Cabe considerar que los pacientes adultos TEA-DI tomaban tratamiento farmacológico con más frecuencia que los adultos TEA sin DI, lo que puede haber influido en los resultados. Un metaanálisis de 2020 concluyó que fluvoxamina, fluoxetina, citalopram e ISRS en general, risperidona, oxitocina, NAcetilcisteína y buspirona no fueron efectivas para el tratamiento de las CIRR (Yu et al., 2020).

La psicoterapia realizada en la infancia no influyó en la frecuencia y gravedad de aparición de las EM en nuestro estudio, lo que podría indicar la falta de eficacia de las terapias realizadas para controlar estas CIRR. Por los resultados obtenidos en este estudio, se pueden apuntar algunas consideraciones de cara al tratamiento. Varios autores han realizado propuestas para el tratamiento de las EM:

Sobre la DE, existen adaptaciones específicas para TEA como el Scert Model, adaptaciones de terapia cognitivo-conductual (CBT) tanto para autismo de alto funcionamiento como para TEA-DI, conductual (BT) e intervenciones de capacitación de los padres (Keluskar et al., 2021) . Lim 2020 también añade la necesidad de incluir en el tratamiento de TEA-DI estrategias basadas en los sentidos para ayudar a regular el estado de excitación emocional, y el entrenamiento de la memoria de trabajo con programas de ordenador e historias sociales para AF-TEA (Lim, 2020). El entorno familiar, y específicamente una relación padre-hijo más cercana, una mejor salud mental materna y un afrontamiento más positivo de la pareja, pueden contribuir a un patrón de mejor regulación infantil a lo largo del tiempo en los TEA (Greenlee et al., 2021).

Gal & Ben-Sasson (2021) proponen un modelo llamado “Rep-Model” para el tratamiento de las CIRR, donde realizan una evaluación exhaustiva con análisis funcional de conducta de factores individuales (SENS y DE) y ambientales (tanto precipitantes como consecuentes de las CIRR). Propone una terapia basada en intervenciones sensoriales y métodos conductuales, en la que en algunos casos se favorece el mantenimiento de las CIRR si cumple una función adaptativa, y en otros utiliza métodos de reducción de éstas, si son la manifestación clínica de SENS, DE, otro síntoma nuclear o comorbilidad psicopatológica tratable que interfieren en las actividades básicas de la vida diaria (Gal & Ben-Sasson, 2021).

Respecto a aquellas EM relacionadas con la adquisición de una baja complejidad motora Shafer et al. (2017) proponen una Intervención temprana de participación en actividades sensoriomotoras que favorezcan que el niño varíe sus patrones motores.(Shafer et al., 2017).

5.4.4.6 Otros factores

Por otro lado, ninguno de los modelos explica más del 30% de la varianza de aparición de EM. Otros factores, que no han sido incluidos en nuestro análisis, pueden influir en presentación, como la predeterminación genética a realizar un tipo específico de EM (Sztainberg & Zoghbi, 2016b), la disfunción del sistema CGBT y regiones relacionadas (Kim, Lim & Lam, 2016) y los cambios en la neurotransmisión que podrían constituir una base neurobiológica común para la SEN y las EM (Boyd et al., 2010) y la DE (White et al., 2014), la severidad del autismo (Goldman et al., 2009), la alteración de funciones ejecutivas (Cissne et al., 2022).

5.4.5 Limitaciones del estudio

Una limitación del estudio es el tamaño muestral que puede haber limitado la significación estadística de nuestros resultados y la inclusión de otras covariables.

El número de participantes mujeres fue excesivamente bajo para poder controlar esta variable adecuadamente.

No se han administrado entrevistas o instrumentos diagnósticos a todos los pacientes, aunque el diagnóstico estaba realizado por psiquiatras expertos en TEA.

En la recogida de información retrospectiva se puede dar un sesgo de memoria. Sólo se define temporalmente los síntomas la desregulación emocional y EM ocurrida en el pasado, como aquella sucedida hace más de un año.

Uso de instrumentos de medida:

AASP: Aunque se han analizado los diferentes cuadrantes sensoriales por separado, el perfil sensorial de un individuo se define por la combinación de los cuadrantes (según el modelo de Dunn), por tanto, a priori, podría coexistir a la vez cualquier combinación de puntuaciones de HOS, HRS y la BS (W, 2002). Sería conveniente analizar los resultados por subgrupos homogéneos que compartan una combinación similar de cuadrantes sensoriales (Lane, 2021). En adolescentes, Uljarevic et al (2016) describió un modelo con 3 subgrupos sensoriales: Adaptativo, Moderado y Severo, que, en contraste con otros modelos descritos en niños, se diferenciaban únicamente en la intensidad y frecuencia sensorial y en la mayor presencia de ansiedad en el grupo Severo (Uljarević et al., 2016).

En adultos, Elwin et al. (2017) describe 3 subgrupos: Un grupo de baja frecuencia (todas las puntuaciones de las subescalas eran bajas, y en particular, la reactividad sensorial/motora atípica), un grupo intermedio (elevada HRS, intereses sensoriales y reactividad sensoriales/motora, sin HOS elevada) y un grupo de alta frecuencia (todas las puntuaciones eran altas, apareciendo simultáneamente HRS e HOS (Elwin et al., 2017).

Por otro lado, creamos la variable HRS, a partir de las puntuaciones de los cuadrantes sensibilidad y evitación sensorial, ambas indicativas de umbral sensorial bajo, para adaptarnos a los hallazgos de la literatura sobre la existencia en 3 subtipos sensoriales, cosa que no está contemplada en la PSAA, como tampoco el uso de las puntuaciones de las modalidades sensoriales para su análisis estadístico. Al igual que sucede con el perfil sensorial, también coexisten en un mismo individuo CIRR de alto y bajo nivel (Wigham et al., 2015).

Por otro lado, AASP es un cuestionario autoadministrado que se completó de manera heteroaplicada por los cuidadores en nuestra muestra, cuando el paciente no tenía la capacidad de completarlo, igual que se ha realizado en otros estudios de alteración en reactividad sensorial en TEA (Degenne-Richard, 2014; Gonthier et al., 2016; Harrison & Hare, 2004; Leekam et al., 2007). Esto puede ser un inconveniente, ya que los padres pueden subestimar las dificultades de procesamiento sensorial incluso en niños verbales (Baranek et al., 2006), sobre todo en lo que respecta HOS (Grzadzinski et al., 2020). Sin embargo, Baranek et al. (2013) encontró una buena correlación entre la HOS observada y la HOS reportada por cuidadores (Baranek et al., 2013).

El AASP, aunque es uno de los inventarios del modelo de Dunn, muy utilizados en la medición de alteración de la reactividad sensorial, es una escala creada para su aplicación en población general, no específico para población con TEA.

La SBS es una escala con buenas propiedades psicométricas inicialmente creada para su uso en personas con DI, pero también se ha usado en población con TEA (Courtemanche et al., 2016; Rojahn et al., 2010) pero no cuenta con una validación específica en estos casos. Sin embargo, utilizamos esta escala frente a otras más utilizadas en la literatura como la RBS-R (Bodfish et al., 2000) o el RBQ-2 (Leekam et al., 2007), porque recoge una descripción más detallada de estereotipias motoras (Young & Lim, 2021). Al igual que Lidstone et al. (2014), que eliminó los ítems sensoriales de la escala RBS-R para su estudio, nosotros retiramos los ítems sensoriales de la escala SBS para valorar la asociación de EM con SENS (Lidstone et al., 2014).

Respecto al uso de ASEBA para medir la comorbilidad, existe el problema de solapamiento de síntomas TEA con algunas subescalas, como ya se ha comentado previamente. De

hecho, el CBCL se ha utilizado en algunos estudios como screening de TEA y como instrumento de evaluación de eficacia de terapias y de medida de trastornos de conducta en TEA (Arias et al., 2022; Sullivan, et al., 2021). Por tanto, es posible que también estemos midiendo severidad del TEA, con el uso de esta escala. Sin embargo, la disponibilidad de versiones para todas las edades la hacía idónea para su uso en nuestro estudio.

Por último, el uso de cuestionarios on-line, a pesar de las instrucciones aportadas a las familias por escrito y a través de contacto telefónico, no garantiza la autoría correcta de la cumplimentación de los cuestionarios en escalas auto/heteroadministradas y puede prestarse a mayor error en su cumplimentación, ya que no se resuelven las dudas in situ. Mazefsky et al. (2018) hacen referencia a que los niños y adolescentes con TEA tienen habitualmente una limitada conciencia e insight emocional (Mazefsky et al., 2018). Jiujiás et al. (2017) en cambio, recogen que los adultos TEA coinciden con las puntuaciones de los padres sobre su personalidad, lo que muestra que tienen relativo buen insight.(Jiujiás et al., 2017).

CONCLUSIÓN

6 CONCLUSIÓN

Siguiendo los objetivos de esta Tesis, las conclusiones de la misma son:

1. La desregulación emocional se asoció a EM en el estudio de niños con TEA. La edad, la discapacidad intelectual y el género no moderaron esta asociación.
2. La ansiedad y la inatención se asoció a EM en el estudio de niños con TEA.
3. No se observó asociación entre otras CIRR y DE en el estudio de niños con TEA.
4. Las EM continuaron presentándose con frecuencia en la adolescencia y edad adulta y las que tuvieron más tendencia a mantenerse fueron las EM con las manos y pasearse de un lado a otro. Las EM más inadecuadas socialmente se extinguían con más probabilidad con los años.
5. La modalidad sensorial auditiva fue la más afectada en todos los cuadrantes sensoriales en los adolescentes y adultos con TEA. El nivel de actividad tuvo puntuaciones más altas en los cuadrantes sensoriales AASP-HOS, AASP-SS y AASP-ES. Para el cuadrante AASP-BS se observó un aumento del procesamiento del movimiento y visual.
6. Los mujeres y los adultos sin DI presentaron más evitación sensorial. Los adultos con DI presentaron más DE. Los adolescentes y adultos con comorbilidad psiquiátrica presentaron más DE y más AASP-HOS y AASP-HRS. Para prácticamente todos los tipos de EM, los sujetos que presentaban cada EM frecuentemente tenían mayor puntuación de AASP-HOS.
7. En la muestra de adolescentes y adultos, la HOS y la DE mostraron una fuerte correlación.
8. En la muestra de adolescentes y adultos, la ansiedad no se asoció a EM.
9. En la muestra de adolescentes y adultos, la DE no tuvo una relación significativa con EM cuando se controló por SENS y por las covariables.
10. La presencia de EM se asoció a los 3 patrones sensoriales (AASP-HOS, AASP-HRS y AASP-BS) en la muestra de adolescentes y adultos TEA. La AASP-HOS fue la variable explicativa más importante de EM en nuestros modelos (se asoció a SBS-EM-F y a SBS-EM-G), aunque no explicó más del 30% de la varianza. La AASP-BS se asoció a SBS-EM-F y la AASP-HRS se asoció a SBS-EM-G.
11. Las EM y la DE disminuyeron con el tiempo.

12. La relación de DE y EM varían en función de los grupos de edad y las covariables analizadas, según lo descrito en nuestra muestra.
13. Los distintos modelos encontrados únicamente considerando las EM, y la disparidad de resultados entre estudios respecto a las relaciones entre las variables de interés, dan cuenta de la complejidad de la etiología de las CIRR y apoya la conveniencia de analizar los subtipos de CIRR y los patrones de reactividad sensorial por separado, para el estudio de las bases neurobiológicas que subyacen a estas conductas.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

7 REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

- Abbott, A. E., Linke, A. C., Nair, A., Jahedi, A., Alba, L. A., Keown, C. L., Fishman, I., & Müller, R. A. (2018). Repetitive behaviors in autism are linked to imbalance of corticostriatal connectivity: A functional connectivity MRI study. *Social Cognitive and Affective Neuroscience*, 13(1). <https://doi.org/10.1093/scan/nsx129>
- Achenbach, T. M., & Edelbrock, C. (1991). Manual for the child behavior checklist (4–18) and 1991 Profile, Burlington, VT: University of Vermont, Department of Psychiatry, 1991. *Google Scholar*, 1991.
- Al-Beltagi, M. (2021). Autism medical comorbidities. *World Journal of Clinical Pediatrics*, 10(3), 15–28. <https://doi.org/10.5409/wjcp.v10.i3.15>
- American Psychiatric Association. (2013). Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders, fifth edition. In *American Psychiatric Pub.* American Psychiatric Association.
- Anzalone, M. E., & Williamson, G. G. (2000). Sensory processing and motor performance in autism spectrum disorders. *Autism spectrum disorders: A transactional developmental perspective*, 9, 143-166. (2000). 2000.
- Arias, A. A., Rea, M. M., Adler, E. J., Haendel, A. D., & Van Hecke, A. V. (2022). Utilizing the Child Behavior Checklist (CBCL) as an Autism Spectrum Disorder Preliminary Screener and Outcome Measure for the PEERS® Intervention for Autistic Adolescents. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 52(5), 2061–2074. <https://doi.org/10.1007/s10803-021-05103-8>
- Augustine. (2021). *Aberrant Prefrontal Cortical-Striatal Functional Connectivity in Children with Primary Complex Motor Stereotypies* Authors: Augustine, Farhan., 1–26.
- Ausderau, K. K., Sideris, J., Little, L. M., Furlong, M., Bulluck, J. C., & Baranek, G. T. (2016). Sensory subtypes and associated outcomes in children with autism spectrum disorders. *Autism Research*, 9(12), 1316–1327. <https://doi.org/10.1002/aur.1626>
- Baranek, G. T., Watson, L. R., Boyd, B. A., Poe, M. D., David, F. J., & McGuire, L. (2013). Hyporesponsiveness to Social and Nonsocial Sensory Stimuli in Children with Autism, Children with Developmental Delays, and Typically Developing Children. *Dev Psychopathol.*, 25(2), 307–320. <https://doi.org/10.1017/S0954579412001071>
- Baranek, G. T., David, F. J., Poe, M. D., Stone, W. L., & Watson, L. R. (2006). Sensory Experiences Questionnaire: Discriminating sensory features in young children with autism, developmental delays, and typical development. *Journal of Child Psychology and Psychiatry and Allied Disciplines*, 47(6), 591–601. <https://doi.org/10.1111/j.1469-7610.2005.01546.x>
- Baranek, G. T., Foster, L. G., & Berkson, G. (1997). Tactile Defensiveness and Stereotyped Behaviors. *American Journal of Occupational Therapy*, 51(2), 91–95. <https://doi.org/10.5014/ajot.51.2.91>
- Barber, A. B., Wetherby, A. M., & Chambers, N. W. (2012). Brief report: Repetitive behaviors in young children with Autism spectrum disorder and developmentally similar peers: A follow up to Watt et al. (2008). *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 42(9), 2006–2012. <https://doi.org/10.1007/s10803-011-1434-3>
- Baron-Cohen, S., Tager-Flusberg, H., & Lombardo, M. (2013). *Understanding Other Minds -Perspectives from developmental social neuroscience* (M. Baron-Cohen, S., Tager-Flusberg, H., & Lombardo (Ed.)). Oxford University

- Press. <http://www.oxfordscholarship.com/view/10.1093/acprof:oso/9780199692972.001.0001/acprof-9780199692972>
- Barrett, S. L., Uljarević, M., Jones, C. R. G., & Leekam, S. R. (2018). Assessing subtypes of restricted and repetitive behaviour using the Adult Repetitive Behaviour Questionnaire-2 in autistic adults. *Molecular Autism, 9*(1), 1–10. <https://doi.org/10.1186/s13229-018-0242-4>
- Ben-Sasson, A., & Stephenson, K. (2021). The Role of Anxiety Symptoms in Understanding Restricted, Repetitive Behaviours and Interests in Autism Spectrum Disorders. In *Repetitive and Restricted Behaviors and Interests in Autism Spectrum Disorders* (pp. 175–195). SPRINGER CHAM.
- Ben-Sasson, A., Gal, E., Fluss, R., Katz-Zetler, N., & Cermak, S. A. (2019). Update of a Meta-analysis of Sensory Symptoms in ASD: A New Decade of Research. *Journal of Autism and Developmental Disorders, 49*(12), 4974–4996. <https://doi.org/10.1007/s10803-019-04180-0>
- Ben-Sasson, A., Hen, L., Fluss, R., Cermak, S. A., Engel-Yeger, B., & Gal, E. (2009). A meta-analysis of sensory modulation symptoms in individuals with autism spectrum disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders, 39*(1), 1–11. <https://doi.org/10.1007/s10803-008-0593-3>
- Berkovits, L., Eisenhower, A., & Blacher, J. (2017). Emotion Regulation in Young Children with Autism Spectrum Disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders, 47*(1), 68–79. <https://doi.org/10.1007/s10803-016-2922-2>
- Berkson, G., & Tupa, M. (2000). Early Development of Stereotyped and Self-Injurious Behaviors. *Journal of Early Intervention, 23*(1), 1–19. <https://doi.org/10.1177/10538151000230010401>
- Berry, K., Russell, K., & Frost, K. (2018). Restricted and Repetitive Behaviors in Autism Spectrum Disorder: a Review of Associated Features and Presentation Across Clinical Populations. *Current Developmental Disorders Reports, 5*(2), 108–115. <https://doi.org/10.1007/s40474-018-0139-0>
- Bhat, A. N., Landa, R. J., & Galloway, J. C. (Cole). (2011). Current Perspectives on Motor Functioning in Infants, Children, and Adults With Autism Spectrum Disorders. *Physical Therapy, 91*(7), 1116–1129. <https://doi.org/10.2522/ptj.20100294>
- Biederman, J., Petty, C. R., Monuteaux, M. C., Evans, M., Parcell, T., Faraone, S. V., & Wozniak, J. (2009). The child behavior checklist-pediatric bipolar disorder profile predicts a subsequent diagnosis of bipolar disorder and associated impairments in ADHD youth growing up: A longitudinal analysis. *Journal of Clinical Psychiatry, 70*(5), 732–740. <https://doi.org/10.4088/JCP.08m04821>
- Bishop, S. L., Hus, V., Duncan, A., Huerta, M., Gotham, K., Pickles, A., Kreiger, A., Buja, A., Lund, S., & Lord, C. (2013). Subcategories of restricted and repetitive behaviors in children with ASD. *Journal of Autism and Developmental Disorders, 43*(6), 1287–1297. <https://doi.org/10.1007/s10803-012-1671-0>. Subcategories
- Bishop, S. L., Richler, J., & Lord, C. (2006). Association between restricted and repetitive behaviors and nonverbal IQ in children with Autism Spectrum Disorders. *Child Neuropsychology, 12*(4–5), 247–267. <https://doi.org/10.1080/09297040600630288>
- Bitsika, V., Sharpley, C. F., Agnew, L. L., & Andronicos, N. M. (2015). Age-related differences in the association between stereotypic behaviour and salivary cortisol in young males with an Autism Spectrum Disorder. *Physiology and Behavior, 152*, 238–243. <https://doi.org/10.1016/j.physbeh.2015.10.010>
- Bitsika, V., Sharpley, C. F., & Mills, R. (2018). Sex differences in Sensory Features between boys and girls with Autism Spectrum Disorder. *Research in Autism Spectrum Disorders, 51*(November 2017), 49–55. <https://doi.org/10.1016/j.rasd.2018.04.002>
- Blackmon, K., Ben-Avi, E., Wang, X., Pardoe, H. R., Di Martino, A., Halgren, E., Devinsky, O., Thesen, T., & Kuzniecky, R. (2016). Periventricular white matter abnormalities and restricted repetitive behavior in autism spectrum disorder. *NeuroImage: Clinical, 10*, 36–45. <https://doi.org/10.1016/j.nicl.2015.10.017>
- Bodfish, J. W., Symons, F. W., & Lewis, M. H. (1999). *The Repetitive Behaviour Scale: Western Carolina Center Research Reports*.
- Bodfish, J., Symons, F., Parker, D., & Lewis, M. (2000). Varieties of repetitive behavior in Autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders, 30*(3), 237–243. <https://doi.org/10.1023/A:1005596502855>
- Boyd, Brian A., Woodard Cooper R., B. J. W. (2013). Feasibility of exposure response prevention to treat repetitive behaviors of children with autism and an intellectual disability: A brief report. *Autism, 17*(2), 196–204.

- <https://doi.org/10.1177/1362361311414066>
- Boyd, B. A., Baranek, G. T., Sideris, J., Poe, M. D., Watson, L. R., Miller, H., Carolina, N., Hill, C., & B, N. C. B. A. (2010). Sensory Features and Repetitive Behaviors in Children with Autism and Developmental Delays. *Autism*, 3(2), 78–87. <https://doi.org/10.1002/aur.124.Sensory>
- Boyd, B. A., Mcbee, M., Holtzclaw, T., Baranek, G. T., & Bodfish, J. W. (2009). Relationships among repetitive behaviors, sensory features, and EF in HFA. 3(4), 959–966. <https://doi.org/10.1016/j.rasd.2009.05.003>.
- Boyd BA, McDonough SG, B. J. (2012). Evidence-Based Behavioral Interventions for Repetitive Behaviors in Autism. *J Autism Dev Disord*, 42(6), 1236–1248. <https://doi.org/10.1007/s10803-011-1284-z>
- Bruggink, A., Huisman, S., Vuijk, R., Kraaij, V., & Garnefski, N. (2016). Cognitive emotion regulation, anxiety and depression in adults with autism spectrum disorder. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 22(December 2020), 34–44. <https://doi.org/10.1016/j.rasd.2015.11.003>
- Cai, R. Y., Richdale, A. L., Dissanayake, C., & Uljarević, M. (2018). Brief Report: Inter-Relationship between Emotion Regulation, Intolerance of Uncertainty, Anxiety, and Depression in Youth with Autism Spectrum Disorder. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 48(1), 316–325. <https://doi.org/10.1007/s10803-017-3318-7>
- Cai, R. Y., Richdale, A. L., Uljarević, M., Dissanayake, C., & Samson, A. C. (2018). Emotion regulation in autism spectrum disorder: Where we are and where we need to go. *Autism Research*, 11(7), 962–978. <https://doi.org/10.1002/aur.1968>
- Cannon, D., Miller, J., Robison, R., Villalobos, M., Wahmhoff, N., Allen-Brady, K., McMahon, W., & Coon, H. (2010). Genome-wide linkage analyses of two repetitive behavior phenotypes in Utah pedigrees with autism spectrum disorders. *Molecular Autism*, 1(1), 1–13. <https://doi.org/10.1186/2040-2392-1-3>
- Carter, A. S., Black, D. O., Tewani, S., Connolly, C. E., Kadlec, M. B., & Tager-Flusberg, H. (2007). Sex differences in toddlers with autism spectrum disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 37(1), 86–97. <https://doi.org/10.1007/s10803-006-0331-7>
- Chaste, P., Roeder, K., & Devlin, B. (2017). The Yin and Yang of Autism Genetics: How Rare De Novo and Common Variations Affect Liability. *Annual Review of Genomics and Human Genetics*, 18(1), 167–187. <https://doi.org/10.1146/annurev-genom-083115-022647>
- Chebli, S. S.; Martin, V.; Lanovaz, M. J. (2016). Prevalence of Stereotypy in Individuals with Developmental Disabilities: A Systematic Review. *Rev. J. Autism Dev. Disord.*, 3, 107–118.
- Chen, H., Wang, J., Uddin, L. Q., Wang, X., Guo, X., Lu, F., Duan, X., Wu, L., & Chen, H. (2018). Aberrant functional connectivity of neural circuits associated with social and sensorimotor deficits in young children with autism spectrum disorder. *Autism Research*, 11(12), 1643–1652. <https://doi.org/10.1002/aur.2029>
- Chen, Y. H., Rodgers, J., & McConachie, H. (2009). Restricted and repetitive behaviours, sensory processing and cognitive style in children with autism spectrum disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 39(4), 635–642. <https://doi.org/10.1007/s10803-008-0663-6>
- Cibralic, S., Kohlhoff, J., Wallace, N., McMahon, C., & Eapen, V. (2019). A systematic review of emotion regulation in children with Autism Spectrum Disorder. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 68, 101422.
- Cibralic, S., Kohlhoff, J., Wallace, N., McMahon, C., & Eapen, V. (2019). A systematic review of emotion regulation in children with Autism Spectrum Disorder. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 68(April), 101422. <https://doi.org/10.1016/j.rasd.2019.101422>
- Cissne, M. N., Kester, L. E., Gunn, A. J. M., Bodner, K. E., Miles, J. H., & Christ, S. E. (2022). Brief Report: A Preliminary Study of the Relationship between Repetitive Behaviors and Concurrent Executive Function Demands in Children with Autism Spectrum Disorder. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 52(4), 1896–1902. <https://doi.org/10.1007/s10803-021-05071-z>
- Cole P, Michel M, T. L. (1994). The development of emotion regulation and dysregulation: a clinical perspective. *Monogr Soc Res Child Dev*, 59, 73–100.
- Conde Torrijos, E. y Seisdedos, N. (1997). *Batería de Evaluación de Kaufman para Niños. K-ABC. Adaptación española*. TEA ediciones.
- Conner, C. M., Golt, J., Shaffer, R., Righi, G., Siegel, M., & Mazefsky, C. A. (2021). Emotion Dysregulation is Substantially Elevated in Autism Compared to the General Population: Impact on Psychiatric Services. *Autism Research*, 14(1),

- 169–181. <https://doi.org/10.1002/aur.2450>
- Conner, C. M., White, S. W., Scahill, L., & Mazefsky, C. A. (2020). The role of emotion regulation and core autism symptoms in the experience of anxiety in autism. *Autism*, 24(4), 931–940. <https://doi.org/10.1177/1362361320904217>
- Corral S, Arribas D, Santamaría P, S. M. y P. J. (2005). *Escala de inteligencia de Weschler para niños (WISC-IV). Baremación: Puntuaciones Estándar, Cocientes Intelectuales y Percentiles*. TEA ediciones.
- Courtemanche, A. B., Black, W. R., & Reese, R. M. (2016). The relationship between pain, self-injury, and other problem behaviors in young children with autism and other developmental disabilities. *American Journal on Intellectual and Developmental Disabilities*, 121(3), 194–203. <https://doi.org/10.1352/1944-7558-121.3.194>
- Cuccaro ML, Shao Y, Grubber J, Slifer M, Wolpert CM, Donnelly SL, Abramson RK, Ravan SA, Wright HH, DeLong GR, P.-V. M. (2003). Factor Analysis of Restricted and Repetitive Behaviors in Autism Using the Autism Diagnostic Interview-R. *Child Psychiatry and Human Development Volume*, 34, 3–17. <https://doi.org/doi:10.1023/a:1025321707947>
- Cunningham, A. B., & Schreibman, L. (2008). Stereotypy in autism: The importance of function. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 2(3), 469–479. <https://doi.org/10.1016/j.rasd.2007.09.006>
- CW Brune, S Kim, J Salt, BL Leventhal, C Lord, E. C. (2006). 5-HTTLPR Genotype-Specific Phenotype in Children and Adolescents With Autism. *Am J Psychiatry*, 163, 2148–2156. <https://doi.org/10.1037/a0024935>
- D'Mello, A. M., & Stoodley, C. J. (2015). Cerebro-cerebellar circuits in autism spectrum disorder. *Frontiers in Neuroscience*, 9(NOV). <https://doi.org/10.3389/fnins.2015.00408>
- Daly, E., Ecker, C., Hallahan, B., Deeley, Q., Craig, M., Murphy, C., Johnston, P., Spain, D., Gillan, N., Gudbrandsen, M., Brammer, M., Giampietro, V., Lamar, M., Page, L., Toal, F., Schmitz, N., Cleare, A., Robertson, D., Rubia, K., & Murphy, D. G. M. (2014). Response inhibition and serotonin in autism: A functional MRI study using acute tryptophan depletion. *Brain*, 137(9), 2600–2610. <https://doi.org/10.1093/brain/awu178>
- De Bruin, E. I., Ferdinand, R. F., Meester, S., De Nijs, P. F. A., & Verheij, F. (2007). High rates of psychiatric co-morbidity in PDD-NOS. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 37(5), 877–886. <https://doi.org/10.1007/s10803-006-0215-x>
- De La Torre-Ubieta, L., Won, H., Stein, J. L., & Geschwind, D. H. (2016). Advancing the understanding of autism disease mechanisms through genetics. *Nature Medicine*, 22(4), 345–361. <https://doi.org/10.1038/nm.4071>
- Degenne-Richard, C. (2014). *Evaluation de la symptomatologie sensorielle des personnes adultes avec autisme et incidence des particularités sensorielles sur l'émergence des troubles du comportement*. <https://tel.archives-ouvertes.fr/tel-01037912/document%5Cnhttps://tel.archives-ouvertes.fr/tel-01037912>
- Dunn, W. (1999). *Sensory profile: User's manual San Antonio. TX: The Psychological Corporation*. (1999). 1999.
- Dunn, W. (1997). The impact of sensory processing abilities on the daily lives of young children and their families: A conceptual model. *Infants and Young Children*, 9(4), 23–35. <https://doi.org/10.1097/00001163-199704000-00005>
- Edwards, M. J., Lang, A. E., & Bhatia, K. P. (2012). Stereotypies: A critical appraisal and suggestion of a clinically useful definition. *Movement Disorders*, 27(2), 179–185. <https://doi.org/10.1002/mds.23994>
- Eisenberg, N., & Spinrad, T. L. (2004). Emotion-related regulation: Sharpening the definition. *Child Development*, 75(2), 334–339. <https://doi.org/10.1111/j.1467-8624.2004.00674.x>
- Eissa, N., Al-Houqani, M., Sadeq, A., Ojha, S. K., Sasse, A., & Sadek, B. (2018). Current enlightenment about etiology and pharmacological treatment of autism spectrum disorder. In *Frontiers in Neuroscience* (Vol. 12, Issue MAY). <https://doi.org/10.3389/fnins.2018.00304>
- Elwin, M., Schröder, A., Ek, L., Wallsten, T., & Kjellin, L. (2017). Sensory Clusters of Adults With and Without Autism Spectrum Conditions. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 47(3), 579–589. <https://doi.org/10.1007/s10803-016-2976-1>
- Esbensen, A. J., Seltzer, M. M., Lam, K. S., & Bodfish, J. W. (2009). Age-related Differences in Restricted Repetitive Behaviors in Autism Spectrum Disorders. *J Autism Dev Disord*, 39(1), 57–66. <https://doi.org/10.1007/s10803-008-0599-x>. Age-related
- Estes, A. M., Dawson, G., Sterling, L., & Munson, J. (2007). Level of intellectual functioning predicts patterns of associated symptoms in school-age children with autism spectrum disorder. *American Journal on Mental Retardation*, 112(6), 439–449. [https://doi.org/10.1352/0895-8017\(2007\)112\[439:LOIFPP\]2.0.CO;2](https://doi.org/10.1352/0895-8017(2007)112[439:LOIFPP]2.0.CO;2)
- Feldman, J. I., Cassidy, M., Liu, Y., Kirby, A. V., Wallace, M. T., & Woynaroski, T. G. (2020). Relations between sensory

- responsiveness and features of autism in children. *Brain Sciences*, 10(11), 1–15.
<https://doi.org/10.3390/brainsci10110775>
- Fetta, A., Carati, E., Moneti, L., Pignataro, V., Angotti, M., Bardasi, M. C., Cordelli, D. M., Franzoni, E., & Parmeggiani, A. (2021). Relationship between sensory alterations and repetitive behaviours in children with autism spectrum disorders: A parents' questionnaire based study. *Brain Sciences*, 11(4). <https://doi.org/10.3390/brainsci11040484>
- Fournier, K. A., Hass, C. J., Naik, S. K., Lodha, N., & Cauraugh, J. H. (2010). Motor coordination in autism spectrum disorders: A synthesis and meta-analysis. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 40(10), 1227–1240.
<https://doi.org/10.1007/s10803-010-0981-3>
- Gabriels, R. L., Agnew, J. A., Miller, L. J., Gralla, J., Pan, Z., Goldson, E., Ledbetter, J. C., Dinkins, J. P., & Hooks, E. (2008). Is there a relationship between restricted, repetitive, stereotyped behaviors and interests and abnormal sensory response in children with autism spectrum disorders? *Research in Autism Spectrum Disorders*, 2(4), 660–670.
<https://doi.org/10.1016/j.rasd.2008.02.002>
- Gadow, K. D., Devincent, C. J., Olvet, D. M., Pisarevskaya, V., & Hatchwell, E. (2010). Association of DRD4 polymorphism with severity of oppositional defiant disorder, separation anxiety disorder and repetitive behaviors in children with autism spectrum disorder. *European Journal of Neuroscience*, 32(6), 1058–1065. <https://doi.org/10.1111/j.1460-9568.2010.07382.x>
- Gal, E., & Yirmiya, N. (2021). *Repetitive and Restricted Behaviors and Interests in Autism Spectrum Disorders*. (N. Gal, E., & Yirmiya (Ed.)). Springer International Publishing.
- Gal, E., & B.-S. (2021). “Rep-Mod”: An intervention model for restricted, repetitive behaviours and interests. In *Repetitive and Restricted Behaviors and Interests in Autism Spectrum Disorders*. (pp. 235–251). Springer, Cham.
- Gal, E., Dyck, M. J., & Passmore, A. (2010). Relationships between Stereotyped Movements and sensory processing disorders in children with and without developmental or sensory disorders. *American Journal of Occupational Therapy*, 64(3), 453–461. <https://doi.org/10.5014/ajot.2010.09075>
- Gal, E., Dyck, M., & Passmore, A. (2002). Sensory differences and stereotyped movements in children with autism. *Behaviour Change*, 19(4), 207–219. <https://doi.org/10.1375/bech.19.4.207>
- Gándara-Gafo, B., Santos-Del Riego, S., & Muñoz, J. (2019). Reference values for the adolescent/adult sensory profile in Spain. *American Journal of Occupational Therapy*, 73(5), 1–8. <https://doi.org/10.5014/ajot.2019.028712>
- Garon, N., Zwaigenbaum, L., Bryson, S., Smith, I. M., Brian, J., Roncadin, C., Vaillancourt, T., Armstrong, V., Sacrey, L. A. R., & Roberts, W. (2016). Temperament and its Association with Autism Symptoms in a High-risk Population. *Journal of Abnormal Child Psychology*, 44(4), 757–769. <https://doi.org/10.1007/s10802-015-0064-1>
- Glod, M. and Riby, D. M. and Honey, E. and Rodgers, J. (2015). (2015). Psychological correlates of sensory processing patterns in individuals with autism spectrum disorder : a systematic review. *Review Journal of Autism and Developmental Disorders*, 2(2), 199–221.
- Glod M, Riby DM, R. J. (2019). Short report: relationships between sensory processing, repetitive behaviors, anxiety, and intolerance of uncertainty in autism spectrum disorder and Williams syndrome. *Autism Res*, 12(5), 759–65.
- Goldfarb, Y., Zafrani, O., & Gal, E. (2021). “It’s in my Nature”—Subjective Meanings of Repetitive and Restricted Behaviors and Interests Voiced by Adults with Autism Spectrum Disorders. In *Repetitive and Restricted Behaviors and Interests in Autism Spect.* (2021). 2021.
- Goldman, S., Wang, C., Salgado, M. W., Greene, P. E., Kim, M., & Rapin, I. (2009). Motor stereotypies in children with autism and other developmental disorders. *Developmental Medicine and Child Neurology*, 51(1), 30–38.
<https://doi.org/10.1111/j.1469-8749.2008.03178.x>
- Gonthier, C., Longu  p  e, L., & Bouvard, M. (2016). Sensory Processing in Low-Functioning Adults with Autism Spectrum Disorder: Distinct Sensory Profiles and Their Relationships with Behavioral Dysfunction. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 46(9), 3078–3089. <https://doi.org/10.1007/s10803-016-2850-1>
- Gotham, K., Bishop, S. L., Hus, V., Huerta, M., Lund, S., Buja, A., Krieger, A., Hospital, P., Plains, W., & Arbor, A. (2013). Exploring the Relationship Between Anxiety and Insistence on Sameness in Autism Spectrum Disorders. *Autism Res*, 6(1), 33–41. <https://doi.org/10.1002/aur.1263>.Exploring
- Green, S. A., Hernandez, L., Tottenham, N., Krasileva, K., Bookheimer, S. Y., & Dapretto, M. (2015). Neurobiology of Sensory Overresponsivity in Youth With Autism Spectrum Disorders. *JAMA Psychiatry*, 72(8), 778–786.

- <https://doi.org/10.1001/jamapsychiatry.2015.0737>
- Green SA, Ben-Sasson A, Soto TW, C. A. (2012). Anxiety and sensory over- responsivity in toddlers with autism spectrum disorders: bidirectional effects across time. *J Autism Dev Disord*, 42(6), 1112–1119. <https://doi.org/10.1007/s10803-011-1361-3>.Anxiety
- Greenlee, J. L., Stelter, C. R., Piro-Gambetti, B., & Hartley, S. L. (2021). (2021). Trajectories of Dysregulation in Children with Autism Spectrum Disorder. *Journal of Clinical Child & Adolescent Psychology*, 1-16. *Journal of Clinical Child & Adolescent Psychology*, 1–16.
- Greenlee, J. L., Stelter, C. R., Piro-Gambetti, B., & Hartley, S. L. (2021). Trajectories of Dysregulation in Children with Autism Spectrum Disorder. *Journal of Clinical Child and Adolescent Psychology*, 00(00), 1–16. <https://doi.org/10.1080/15374416.2021.1907752>
- Gross JJ, T. R. (2007). Emotion regulation: conceptual foundations. In G. JJ (Ed.), *Handbook of emotion regulation*. (pp. 3–24). Guilford Press.
- Grossi, E., Caminada, E., Goffredo, M., Vescovo, B., Castrignano, T., Piscitelli, D., Valagussa, G., Franceschini, M., & Vanzulli, F. (2021). Patterns of restricted and repetitive behaviors in autism spectrum disorders: A cross-sectional video recording study. preliminary report. *Brain Sciences*, 11(6). <https://doi.org/10.3390/brainsci11060678>
- Grzadzinski, R., Donovan, K., Truong, K., Nowell, S., Lee, H., Sideris, J., Turner-Brown, L., Baranek, G. T., & Watson, L. R. (2020). Sensory Reactivity at 1 and 2 Years Old is Associated with ASD Severity During the Preschool Years. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 50(11), 3895–3904. <https://doi.org/10.1007/s10803-020-04432-4>
- Hadders-Algra, M. (2022). Emerging signs of autism spectrum disorder in infancy: Putative neural substrate. *Developmental Medicine and Child Neurology*, 64(11), 1344–1350. <https://doi.org/10.1111/dmcn.15333>
- Happé, F., & Ronald, A. (2008). The “fractionable autism triad”: A review of evidence from behavioural, genetic, cognitive and neural research. *Neuropsychology Review*, 18(4), 287–304. <https://doi.org/10.1007/s11065-008-9076-8>
- Harris, A. D., Singer, H. S., Horska, A., Kline, T., Ryan, M., Edden, R. A. E., & Mahone, E. M. (2016). GABA and glutamate in children with primary complex motor stereotypies: An 1H-MRS study at 7T. *American Journal of Neuroradiology*, 37(3). <https://doi.org/10.3174/ajnr.A4547>
- Harrison, J., & Hare, D. J. (2004). Brief report: Assessment of sensory abnormalities in people with autistic spectrum disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 34(6), 727–730. <https://doi.org/10.1007/s10803-004-5293-z>
- Harrop, C., Gulrud, A., Shih, W., Hovsepian, L., & Kasari, C. (2016). Characterizing caregiver responses to restricted and repetitive behaviors in toddlers with autism spectrum disorder. *Autism*, 20(3), 330–342. <https://doi.org/10.1177/1362361315580443>
- hartley Sigan L., S. D. M. (2009). Sex Differences in Autism Spectrum Disorder: An Examination of Developmental Functioning, Autistic Symptoms, and Coexisting Behavior Problems in Toddlers. *J Autism Dev Disord*, 39(12), 1715–1722. <https://doi.org/10.1007/s10803-009-0810-8>
- Herring, S., Gray, K. M., Taffe, J., Tonge, B., Sweeney, D., & Einfeld, S. (2006). Behaviour and emotional problems in toddlers with pervasive developmental disorders and developmental delay: Associations with parental mental health and family functioning. *Journal of Intellectual Disability Research*, 50(12), 874–882. <https://doi.org/10.1111/j.1365-2788.2006.00904.x>
- Hervas, A. (2021). Springer International Publishing. In *Encyclopedia of Autism Spectrum Disorders* (pp. 4633–4635). Springer International Publishing.
- Hervás, A. (2017). Desregulación emocional y trastornos del espectro autista. *Revista de Neurología*, 64(Supl 1), 17–25. <http://www.neurologia.com/pdf/64S01/brS01S017.pdf%0Ahttp://www.neurologia.com/articulo/2017030>
- Hervás Zúñiga, A. (2017). Desregulación emocional y trastornos del espectro autista. *Revista de Neurología*, 64(S01), S17. <https://doi.org/10.33588/rn.64s01.2017030>
- Hiremath, C. S., Sagar, K. J. V., Yamini, B. K., Girimaji, A. S., Kumar, R., Sravanti, S. L., Padmanabha, H., Vykunta Raju, K. N., Kishore, M. T., Jacob, P., Saini, J., Bharath, R. D., Seshadri, S. P., & Kumar, M. (2021). Emerging behavioral and neuroimaging biomarkers for early and accurate characterization of autism spectrum disorders: a systematic review. *Translational Psychiatry*, 11(1). <https://doi.org/10.1038/s41398-020-01178-6>
- Hong, E., & Matson, J. L. (2021). Factors Associated with Restricted, Repetitive Behaviors and Interests and Diagnostic

- Severity Level Ratings in Young Children with Autism Spectrum Disorder. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 51(12), 4644–4654. <https://doi.org/10.1007/s10803-021-04905-0>
- Holder, J., Wilson, C. E., Mendez, M. A., & Murphy, D. G. (2014). Autistic traits and abnormal sensory experiences in adults. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 44(6), 1461–1469. <https://doi.org/10.1007/s10803-013-2012-7>
- Hus, V., Pickles, A., Cook, E. H., Risi, S., & Lord, C. (2007). Using the Autism Diagnostic Interview-Revised to Increase Phenotypic Homogeneity in Genetic Studies of Autism. *Biological Psychiatry*, 61(4), 438–448. <https://doi.org/10.1016/j.biopsych.2006.08.044>
- Hwang, Y. I., Arnold, S., Srasuebkul, P., & Trollor, J. (2020). Understanding anxiety in adults on the autism spectrum: An investigation of its relationship with intolerance of uncertainty, sensory sensitivities and repetitive behaviours. *Autism*, 24(2), 411–422. <https://doi.org/10.1177/1362361319868907>
- Istvan, E. M., Nevill, R. E., & Mazurek, M. O. (2020). Sensory over-responsivity, repetitive behavior, and emotional functioning in boys with and without autism spectrum disorder. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 75(April), 101573. <https://doi.org/10.1016/j.rasd.2020.101573>
- Jahromi, L. B., Bryce, C. I., & Swanson, J. (2013). The importance of self-regulation for the school and peer engagement of children with high-functioning autism. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 7(2), 235–246. <https://doi.org/10.1016/j.rasd.2012.08.012>
- Jiujias, M., Kelley, E., & Hall, L. (2017). Restricted, Repetitive Behaviors in Autism Spectrum Disorder and Obsessive–Compulsive Disorder: A Comparative Review. *Child Psychiatry and Human Development*, 48(6), 944–959. <https://doi.org/10.1007/s10578-017-0717-0>
- Joosten, A. V., & Bundy, A. C. (2010). Sensory processing and stereotypical and repetitive behaviour in children with autism and intellectual disability. *Australian Occupational Therapy Journal*, 57(6), 366–372. <https://doi.org/10.1111/j.1440-1630.2009.00835.x>
- Joosten, A. V., Bundy, A. C., & Einfeld, S. L. (2009). Intrinsic and extrinsic motivation for stereotypic and repetitive behavior. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 39(3), 521–531. <https://doi.org/10.1007/s10803-008-0654-7>
- Joosten, A. V., Bundy, A. C., & Einfeld, S. L. (2012). Context Influences the Motivation for Stereotypic and Repetitive Behaviour in Children Diagnosed with Intellectual Disability with and without Autism. *Journal of Applied Research in Intellectual Disabilities*, 25(3), 262–271. <https://doi.org/10.1111/j.1468-3148.2011.00663.x>
- Joshi, G., Wozniak, J., Fitzgerald, M., Faraone, S., Fried, R., Galdo, M., Furtak, S. L., Conroy, K., Kilcullen, J. R., Belsler, A., & Biederman, J. (2018). High Risk for Severe Emotional Dysregulation in Psychiatrically Referred Youth with Autism Spectrum Disorder: A Controlled Study. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. <https://doi.org/10.1007/s10803-018-3542-9>
- Joyce, Caroline, Honey, Emma, Leekam, Susan R., Barrett, Sarah L. and Rodgers, J. 2017. (2017). Anxiety, intolerance of uncertainty and restricted and repetitive behaviour: insights directly from young people with ASD. *Journal of Autism and Developmental Disorder*, 47(12), 3789–3802. <https://doi.org/10.1017/CBO9781107415324.004>
- Kanakri, S. M., Shepley, M., Tassinari, L. G., Varni, J. W., & Fawaz, H. M. (2017). An observational study of classroom acoustical design and repetitive behaviors in children with autism. *Environment and Behavior*, 49(8), 847–873.
- Kanner. (1943). Autistic disturbances of affective contact. *The Nervous Child*, 2(3), 217–250.
- Kargas, N., López, B., Reddy, V., & Morris, P. (2015). The Relationship Between Auditory Processing and Restricted, Repetitive Behaviors in Adults with Autism Spectrum Disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 45(3). <https://doi.org/10.1360/zd-2013-43-6-1064>
- Kasari C, Brady N , Lord C, T.-F. H. (2013). Assessing the Minimally Verbal School-Aged Child with Autism Spectrum Disorder. *Autism Res*, 6(6), 479–493. <https://doi.org/10.1002/aur.1334>.Assessing
- Keefer, A., Singh, V., Kalb, L. G., Mazefsky, C. A., & Vasa, R. A. (2020). Investigating the factor structure of the child behavior checklist dysregulation profile in children and adolescents with autism spectrum disorder. *Autism Research*, 13(3), 436–443. <https://doi.org/10.1002/aur.2233>
- Keller, R., Costa, T., Imperiale, D., Bianco, A., Rondini, E., Hassiotis, A., & Bertelli, M. O. (2021). Stereotypes in the autism spectrum disorder: Can we rely on an ethological model? *Brain Sciences*, 11(6). <https://doi.org/10.3390/brainsci11060762>
- Keluskar, J., Reicher, D., Gorecki, A., Mazefsky, C., & Crowell, J. A. (2021). Understanding, Assessing, and Intervening with

- Emotion Dysregulation in Autism Spectrum Disorder: A Developmental Perspective. *Child and Adolescent Psychiatric Clinics of North America*, 30(2), 335–348. <https://doi.org/10.1016/j.chc.2020.10.013>
- Kim, H., Lim, C. S., & Kaang, B. K. (2016). Neuronal mechanisms and circuits underlying repetitive behaviors in mouse models of autism spectrum disorder. *Behavioral and Brain Functions*, 12(1), 1–13. <https://doi.org/10.1186/s12993-016-0087-y>
- Kim, S.-H., & Lord, C. (2010). Restricted and repetitive behaviors in toddlers and preschoolers. *Autism*, 3(4), 162–173. <https://doi.org/10.1002/aur.142.Restricted>
- Kirby, A. V., Boyd, B. A., Williams, K., Faldowski, R. A., & Baranek, G. T. (2017a). Spectrum Disorder at Home. *Autism*, 21(2), 142–154. <https://doi.org/10.1177/1362361316632710.Sensory>
- Kirby, A. V., Boyd, B. A., Williams, K. L., Faldowski, R. A., & Baranek, G. T. (2017b). Sensory and repetitive behaviors among children with autism spectrum disorder at home. In *Autism* (Vol. 21, Issue 2). <https://doi.org/10.1177/1362361316632710>
- Kohn, N., Eickhoff, S. B., Scheller, M., Laird, A. R., Fox, P. T., Habel, U., Medicine, T. B., Psychology, M., Antonio, S., & Antonio, S. (2014). Neural network of cognitive emotion regulation — An ALE meta- analysis and MACM analysis. *Neuroimage*, 15(87), 345–355. <https://doi.org/10.1016/j.neuroimage.2013.11.001.Neural>
- Kumar, N. S., Malhi, P., Bharti, B., & Saini, L. (2022). Restricted and Repetitive Behaviors and Interests in Young Children with Autism: A Comparative Study. *Indian Journal of Pediatrics*, 0123456789. <https://doi.org/10.1007/s12098-022-04146-8>
- L.A., A. T. M. & R. (2003). *Manual for the ASEBA Adult Forms & Profile*. University of Vermont, Research Center for Children, Youth, & Families.
- Lai, M. C., Lombardo, M. V., & Baron-Cohen, S. (2014). Autism. *Lancet*, 383(9920), 896–910.
- Lai, M. C., Kassee, C., Besney, R., Bonato, S., Hull, L., Mandy, W., Szatmari, P., & Ameis, S. H. (2019). Prevalence of co-occurring mental health diagnoses in the autism population: a systematic review and meta-analysis. *The Lancet Psychiatry*, 6(10), 819–829. [https://doi.org/10.1016/S2215-0366\(19\)30289-5](https://doi.org/10.1016/S2215-0366(19)30289-5)
- Lai, M. C., Lombardo, M. V., Pasco, G., Ruigrok, A. N. V., Wheelwright, S. J., Sadek, S. A., Chakrabarti, B., & Baron-Cohen, S. (2011). A behavioral comparison of male and female adults with high functioning autism spectrum conditions. *PLoS ONE*, 6(6). <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0020835>
- Lam KSL, Bodfish JW, P. J. (2008). Evidence for three subtypes of repetitive behavior in autism that differ in familiarity and association with other symptoms Kristen. *J Child Psychol Psychiatry*, 49(11), 1193–1200. <https://doi.org/10.1111/j.1469-7610.2008.01944.x>
- Lane, A. E. (2021). Sensory subtypes in autism Spectrum disorder. In N. Gal, E., & Yirmiya (Ed.), *Repetitive and Restricted Behaviors and Interests in Autism Spectrum Disorders* (pp. 77–90). Springer.
- Lane, A. E., Young, R. L., Baker, A. E. Z., & Angley, M. T. (2010). Sensory processing subtypes in autism: Association with adaptive behavior. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 40(1), 112–122. <https://doi.org/10.1007/s10803-009-0840-2>
- Langen, M., Durston, S., Kas, M. J. H., van Engeland, H., & Staal, W. G. (2011). The neurobiology of repetitive behavior: ...and men. *Neuroscience and Biobehavioral Reviews*, 35(3), 356–365. <https://doi.org/10.1016/j.neubiorev.2010.02.005>
- Le Couteur, A., Lord, C. y Rutter, M. (2006). (2006). *ADI-R: Entrevista para el Diagnóstico del Autismo – Revisada*. TEA ediciones.
- Leekam, S. R., Nieto, C., Libby, S. J., Wing, L., & Gould, J. (2007). Describing the sensory abnormalities of children and adults with autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 37(5), 894–910. <https://doi.org/10.1007/s10803-006-0218-7>
- Leekam SR, Prior MR, U. M. (2011). Restricted and Repetitive Behaviors in Autism Spectrum Disorders : A Review of Research in the Last Decade. *Psychological Bulletin*, 137(4), 562–593. <https://doi.org/10.1037/a0023341>
- Lefort-Besnard, J., Vogeley, K., Schilbach, L., Varoquaux, G., Thirion, B., Dumas, G., & Bzdok, D. (2020). Patterns of autism symptoms: hidden structure in the ADOS and ADI-R instruments. *Translational Psychiatry*, 10(1). <https://doi.org/10.1038/s41398-020-00946-8>
- Lewandowska, Z., Mazur-Melewska, K., & Figlerowicz, M. (2021). Cortisol in individuals with autism spectrum disorders –

- review. *Child Neurology*, 29(59), 36–44. <https://doi.org/10.20966/chn.2020.59.467>
- Lewis, J. D., Evans, A. C., Pruett, J. R., Botteron, K. N., McKinstry, R. C., Zwaigenbaum, L., Estes, A. M., Collins, D. L., Kostopoulos, P., Gerig, G., Dager, S. R., Paterson, S., Schultz, R. T., Styner, M. A., Hazlett, H. C., Piven, J., Chappell, C., Shaw, D., Constantino, J., ... Gu, H. (2017). The Emergence of Network Inefficiencies in Infants With Autism Spectrum Disorder. *Biological Psychiatry*, 82(3), 176–185. <https://doi.org/10.1016/j.biopsych.2017.03.006>
- Lidstone J, Uljarević m, Sullivan J, b, Rodgers J, McConachie H, Freeston M, Le Couteur A, Prio M, L. S., & 1. (2014). Relations among restricted and repetitive behaviours, anxiety and sensory features in children with autism spectrum disorders Jane. *Res Autism Spectr Disord*, 8, 82–92.
- Lim, J. M. (2020). Emotion regulation and intervention in adults with autism spectrum disorder: a synthesis of the literature. *Advances in Autism*, 6(1), 48–62. <https://doi.org/10.1108/AIA-12-2018-0050>
- Lovaas, I., Newsom, C., & Hickman, C. (1987). Self-stimulatory behavior and perceptual reinforcement. *Journal of Applied Behavior Analysis*, 20(1), 45–68. <https://doi.org/10.1901/jaba.1987.20-45>
- Lu, J., Wang, Z., Liang, Y., & Yao, P. (2022). Rethinking autism: the impact of maternal risk factors on autism development. *American Journal of Translational Research*, 14(2), 1136–1145.
- M. Langen, D. Bos, S.D.S. Noordermeer, H. Nederveen, H. van Engeland, S. D. (2014). Changes in the Developmental Trajectories of Striatum are Involved in Repetitive Behavior in Autism. *Biological Psychiatry*, 76, 405–411. <https://doi.org/10.1016/j.biopsych.2013.08.013>
- MacLennan, K., Roach, L., & Tavassoli, T. (2020). The Relationship Between Sensory Reactivity Differences and Anxiety Subtypes in Autistic Children. *Autism Research*, 13(5), 785–795. <https://doi.org/10.1002/aur.2259>
- Mandy, W., Chilvers, R., Chowdhury, U., Salter, G., Seigal, A., & Skuse, D. (2012). Sex differences in autism spectrum disorder: Evidence from a large sample of children and adolescents. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 42(7), 1304–1313. <https://doi.org/10.1007/s10803-011-1356-0>
- Markiewicz, K., Kaczmarek, B. L. J., & Filipiak, S. (2020). Mediating Effect of Emotional and Social Competences on Interrelations Between Gender, Age and the Broad Autism Phenotype. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 0123456789. <https://doi.org/10.1007/s10803-020-04756-1>
- Martínez-González, A. E., Cervin, M., & Piqueras, J. A. (2021). Relationships Between Emotion Regulation, Social Communication and Repetitive Behaviors in Autism Spectrum Disorder. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 0123456789. <https://doi.org/10.1007/s10803-021-05340-x>
- Martínez-Sanchis, S. (2014). Neurobiological foundations of multisensory integration in people with autism spectrum disorders: The role of the medial prefrontal cortex. *Frontiers in Human Neuroscience*, 8(DEC), 1–6. <https://doi.org/10.3389/fnhum.2014.00970>
- Matta, S. M., Hill-Yardin, E. L., & Crack, P. J. (2019). 1. Matta SM, Hill-Yardin EL, Crack PJ (2019) The influence of neuroinflammation in Autism Spectrum Disorder. *Brain Behav Immun* 79:75–90. <https://doi.org/10.1016/j.bbi.2019.04.037>The influence of neuroinflammation in Autism Spectrum Disorder. *Brain, Behavior, and Immunity*, 79(October 2018), 75–90. <https://doi.org/10.1016/j.bbi.2019.04.037>
- Mazefsky, C. A., Borue, X., Day, T. N., & Minshew, N. J. (2014). Emotion regulation patterns in adolescents with high-functioning autism spectrum disorder: Comparison to typically developing adolescents and association with psychiatric symptoms. *Autism Research*, 7(3), 344–354. <https://doi.org/10.1002/aur.1366>
- Mazefsky, C. A., Day, T. N., Siegel, M., White, S. W., Yu, L., & Pilonis, P. A. (2018). Development of the Emotion Dysregulation Inventory: A PROMIS®ing Method for Creating Sensitive and Unbiased Questionnaires for Autism Spectrum Disorder. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 48(11), 3736–3746. <https://doi.org/10.1007/s10803-016-2907-1>
- Mazefsky, C. A., Herrington, J., Siegel, M., Scarpa, A., Maddox, B. B., Scahill, L., & White, S. W. (2013). The role of emotion regulation in autism spectrum disorder. *Journal of the American Academy of Child and Adolescent Psychiatry*, 52(7), 679–688. <https://doi.org/10.1016/j.jaac.2013.05.006>
- Mazefsky, C. A., Yu, L., White, S. W., Siegel, M., & Pilonis, P. A. (2018). The emotion dysregulation inventory: Psychometric properties and item response theory calibration in an autism spectrum disorder sample. *Autism Research*, 11(6), 928–941. <https://doi.org/10.1002/aur.1947>
- Mazurek, M. O., Vasa, R. A., Kalb, L. G., Kanne, S. M., Rosenberg, D., Keefer, A., Murray, D. S., Freedman, B., & Lowery, L.

- A. (2013). Anxiety, sensory over-responsivity, and gastrointestinal problems in children with autism spectrum disorders. *Journal of Abnormal Child Psychology*, 41(1), 165–176. <https://doi.org/10.1007/s10802-012-9668-x>
- McCarthy, D. (2013). *MSCA, Escalas McCarthy de aptitudes y psicomotricidad para niños*. Pearson.
- McCarty, M. J., & Brumback, A. C. (2021). Rethinking Stereotypies in Autism. *Seminars in Pediatric Neurology*, 38, 100897. <https://doi.org/10.1016/j.spen.2021.100897>
- Mckinnon, C. J., Eggebrecht, A. T., Todorov, A., Wolff, J. J., Elison, T., Adams, C. M., Snyder, A. Z., Estes, A. M., Botteron, K. N., Mckinstry, R. C., Marrus, N., Evans, A., Hazlett, H. C., Dager, S. R., Paterson, S. J., Pandey, J., & Robert, T. (2020). *disorder*. 1–24. <https://doi.org/10.1016/j.bpsc.2018.09.008>.Restricted
- McLennan, J. D., Lord, C., & Schopler, E. (1993). Sex differences in higher functioning people with autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 23(2), 217–227. <https://doi.org/10.1007/BF01046216>
- Melo, C., Ruano, L., Jorge, J., Pinto Ribeiro, T., Oliveira, G., Azevedo, L., & Temudo, T. (2019). Prevalence and determinants of motor stereotypies in autism spectrum disorder: A systematic review and meta-analysis. *Autism*. <https://doi.org/10.1177/1362361319869118>
- Mick E, McGough J, Loo S, Doyle AE, Wozniak J, Wilens TE, Smalley S, McCracken J, Biederman J, F. S. (2011). Genome-Wide Association Study of the Child Behavior Checklist Dysregulation Profile. *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry*, 50(8), 807–817. <https://doi.org/10.1038/jid.2014.371>
- Militerni, R., Bravaccio, C., Falco, C., Fico, C., & Palermo, M. T. (2002). Repetitive behaviors in autistic disorder. *European Child and Adolescent Psychiatry*, 11(5), 210–218. <https://doi.org/10.1007/s00787-002-0279-x>
- Miller, M., Sun, S., Iosif, A. M., Young, G. S., Belding, A., Tubbs, A., & Ozonoff, S. (2021). Repetitive behavior with objects in infants developing autism predicts diagnosis and later social behavior as early as 9 months. *Journal of Abnormal Psychology*, 130(6), 665–675. <https://doi.org/10.1037/abn0000692>.Repetitive
- Miller, L. J., Anzalone, M. E., Lane, S. J., Cermak, S. A., Osten, E. T., & Lane, S. J. (2007). *Concept Evolution in Sensory Integration : A Proposed Nosology for Diagnosis*. 61(2), 135–140.
- Mirenda, P., Smith, I. M., Vaillancourt, T., Georgiades, S., Duku, E., Szatmari, P., Bryson, S., Fombonne, E., Roberts, W., Volden, J., Waddell, C., & Zwaigenbaum, L. (2010). Validating the repetitive behavior scale-revised in young children with autism spectrum disorder. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 40(12), 1521–1530. <https://doi.org/10.1007/s10803-010-1012-0>
- Morgan, L., Wetherby, A. M., & Barber, A. (2008). Spectrum Disorders Late in the Second Year of Life. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 49(8), 826–837. <https://doi.org/10.1111/j.1469-7610.2008.01904.x>.Repetitive
- Mostert-Kerckhoffs, M. A. L., Staal, W. G., Houben, R. H., & de Jonge, M. V. (2015). Stop and Change: Inhibition and Flexibility Skills Are Related to Repetitive Behavior in Children and Young Adults with Autism Spectrum Disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 45(10), 3148–3158. <https://doi.org/10.1007/s10803-015-2473-y>
- Muehlmann, A. M., & Lewis, M. H. (2012). Abnormal repetitive behaviours: Shared phenomenology and pathophysiology. *Journal of Intellectual Disability Research*, 56(5), 427–440. <https://doi.org/10.1111/j.1365-2788.2011.01519.x>
- Muhle, R. A., Reed, H. E., Stratigos, K. A., & Veenstra-VanderWeele, J. (2018). The emerging clinical neuroscience of autism spectrum disorder a review. *JAMA Psychiatry*, 75(5), 514–523. <https://doi.org/10.1001/jamapsychiatry.2017.4685>
- Muller, C. L., Anacker, A. M. J., & Veenstra-VanderWeele, J. (2016). The serotonin system in autism spectrum disorder: From biomarker to animal models. *Neuroscience*, 321, 24–41. <https://doi.org/10.1016/j.neuroscience.2015.11.010>
- Murray, C., & Healy, O. (2015). An examination of response variability in children with autism and the relationship to restricted repetitive behavior subtypes. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 11. <https://doi.org/10.1016/j.rasd.2014.11.012>
- Neil, L., Olsson, N. C., & Pellicano, E. (2016). The Relationship Between Intolerance of Uncertainty, Sensory Sensitivities, and Anxiety in Autistic and Typically Developing Children. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 46(6), 1962–1973. <https://doi.org/10.1007/s10803-016-2721-9>
- Nguyen, M., Roth, A., Kyzar, E. J., Poudel, M. K., Wong, K., Stewart, A. M., & Kalueff, A. V. (2014). Decoding the contribution of dopaminergic genes and pathways to autism spectrum disorder (ASD). *Neurochemistry International*, 66(1), 15–26. <https://doi.org/10.1016/j.neuint.2014.01.002>
- Ozonoff, S., Pennington, B. F., & Rogers, S. J. (1991). Executive function deficits in high- functioning autistic individuals:

- relationship to theory of mind. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 37(7), 1081–1105.
<https://builtsurvey.utm.my/>
- Patterson, S. Y., Smith, V., & Jelen, M. (2010). Behavioural intervention practices for stereotypic and repetitive behaviour in individuals with autism spectrum disorder: A systematic review. *Developmental Medicine and Child Neurology*, 52(4), 318–327. <https://doi.org/10.1111/j.1469-8749.2009.03597.x>
- Pérez-Crespo, L., Prats-Urbe, A., Tobias, A., Duran-Tauleria, E., Coronado, R., Hervás, A., & Guxens, M. (2019). Temporal and Geographical Variability of Prevalence and Incidence of Autism Spectrum Disorder Diagnoses in Children in Catalonia, Spain. *Autism Research*, 12(11), 1693–1705. <https://doi.org/10.1002/aur.2172>
- Péter, Z., Oliphant, M. E., & Fernandez, T. V. (2017). Motor stereotypies: A pathophysiological review. *Frontiers in Neuroscience*, 11(MAR), 1–6. <https://doi.org/10.3389/fnins.2017.00171>
- Pfeiffer, B., Kinnealey, M., Reed, C., & Herzberg, G. (2005). Sensory modulation and affective disorders in children and adolescents with Asperger's disorder. *American Journal of Occupational Therapy*, 59(3), 335–345.
<https://doi.org/10.5014/ajot.59.3.335>
- Proff, I., Williams, G. L., Quadt, L., & Garfinkel, S. N. (2022). Sensory processing in autism across exteroceptive and interoceptive domains. *Psychology & Neuroscience*, 15(2), 105–130.
<https://doi.org/https://doi.org/10.1037/pne0000262>
- Purpura, G., Cerroni, F., Carotenuto, M., Nacinovich, R., & Tagliabue, L. (2022). Behavioural Differences in Sensorimotor Profiles: A Comparison of Preschool-Aged Children with Sensory Processing Disorder and Autism Spectrum Disorders. *Children*, 9(3). <https://doi.org/10.3390/children9030408>
- R, D. (1986). Behavioral, physiological and functional aspects of stereotyped behavior: a review and re-interpretation. *J. Anim. Sci.*, 62, 1776–1786.
- Ramaswami, G., & Geschwind, D. H. (2018). Genetics of autism spectrum disorder. *Handbook of Clinical Neurology*, 147, 321–329. <https://doi.org/10.1016/B978-0-444-63233-3.00021-X>
- Ray-Subramanian, C. E., & Weismer, S. E. (2012). *Receptive and Expressive Language as Predictors of Restricted and Repetitive Behaviors in Young Children with Autism Spectrum Disorders*. 42(2010), 2113–2120.
<https://doi.org/10.1007/s10803-012-1463-6>
- Richler, Jennifer, Huerta Marisela, Bishop Somer I., L. C. (2010). Developmental Trajectories of Restricted and Repetitive Behaviors and Interests in Children with Autism Spectrum Disorders. *Dev Psychopathol*, 22(1), 55–69.
<https://doi.org/10.1017/S0954579409990265>
- Richler, J., Bishop, S. L., Kleinke, J. R., & Lord, C. (2007). Restricted and repetitive behaviors in young children with autism spectrum disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 37(1), 73–85. <https://doi.org/10.1007/s10803-006-0332-6>
- Robert, C., Pasquier, L., Cohen, D., Fradin, M., Canitano, R., Damaj, L., Odent, S., & Tordjman, S. (2017). Role of genetics in the etiology of autistic spectrum disorder: Towards a hierarchical diagnostic strategy. *International Journal of Molecular Sciences*, 18(3), 1–30. <https://doi.org/10.3390/ijms18030618>
- Robertson, C. E., & Baron-Cohen, S. (2017). Sensory perception in autism. *Nature Reviews Neuroscience*, 18(11), 671–684. <https://doi.org/10.1038/nrn.2017.112>
- Rodgers, J., Glod, M., Connolly, B., & McConachie, H. (2012). The relationship between anxiety and repetitive behaviours in autism spectrum disorder. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 42(11), 2404–2409.
<https://doi.org/10.1007/s10803-012-1531-y>
- Rojahn, J., Matlock, S. T., & Tassé, M. J. (2000). The stereotyped behavior scale: Psychometric properties and norms. *Research in Developmental Disabilities*, 21(6), 437–454. [https://doi.org/10.1016/S0891-4222\(00\)00057-3](https://doi.org/10.1016/S0891-4222(00)00057-3)
- Rojahn, J., Wilkins, J., Matson, J. L., & Boisjoli, J. (2010). A comparison of adults with intellectual disabilities with and without ASD on parallel Journal of Mental Health Research in Intellectual Disabilities measures of challenging behaviour: The Behavior Problems Inventory-01 (BPI-01) and Autism Spectrum Disorder. *Journal of Applied Research in Intellectual Disabilities*, 23(2), 179–185. <http://search.ebscohost.com/login.aspx?direct=true&db=psyh&AN=2010-03738-009&site=ehost-live%0Ahttp://johnmatson@aol.com>
- Roman-Urrestarazu, A., Van Kessel, R., Allison, C., Matthews, F. E., Brayne, C., & Baron-Cohen, S. (2021). Association of Race/Ethnicity and Social Disadvantage with Autism Prevalence in 7 Million School Children in England. *JAMA*

- Pediatrics*, 175(6). <https://doi.org/10.1001/jamapediatrics.2021.0054>
- Rubenstein, J. L. R., & Merzenich, M. M. (2003). Model of autism: Increased ratio of excitation/inhibition in key neural systems. *Genes, Brain and Behavior*, 2(5), 255–267. <https://doi.org/10.1034/j.1601-183X.2003.00037.x>
- Samson, A. C., Hardan, A. Y., Podell, R. W., Phillips, J. M., & Gross, J. J. (2015). Emotion regulation in children and adolescents with autism spectrum disorder. *Autism Research*, 8(1), 9–18. <https://doi.org/10.1002/aur.1387>
- Samson, A. C., Huber, O., & Gross, J. J. (2012). Emotion regulation in Asperger's syndrome and high-functioning autism. *Emotion*, 12(4), 659–665. <https://doi.org/10.1037/a0027975>
- Samson, A. C., Phillips, J. M., Parker, K. J., Shah, S., Gross, J. J., & Hardan, A. Y. (2014). Emotion dysregulation and the core features of autism spectrum disorder. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 44(7), 1766–1772. <https://doi.org/10.1007/s10803-013-2022-5>
- Samson, A. C., Wells, W. M., Phillips, J. M., Hardan, A. Y., & Gross, J. J. (2015). Emotion regulation in autism spectrum disorder: evidence from parent interviews and children's daily diaries. *Journal of Child Psychology and Psychiatry and Allied Disciplines*, 56(8), 903–913. <https://doi.org/10.1111/jcpp.12370>
- Sardiniero E, Pedreira Massa JL, M. J. (1997). El cuestionario CBCL de Achenbach: Adaptación española y aplicaciones clínicoepidemiológicas. *Clínica y Salud*, 8(3), 447–480.
- Schoen, S. A., Miller, L. J., Brett-Green, B. A., & Nielsen, D. M. (2009). Physiological and behavioral differences in sensory processing: A comparison of children with Autism Spectrum Disorder and Sensory Modulation Disorder. *Frontiers in Integrative Neuroscience*, 3(NOV), 1–11. <https://doi.org/10.3389/neuro.07.029.2009>
- Schulz, S. E. (2018). *Relating Sensory Sensitivity and Repetitive Behaviours in Autism Spectrum Disorders*.
- Schulz, S. E., & Stevenson, R. A. (2018). Sensory hypersensitivity predicts repetitive behaviours in autistic and typically-developing children. *Autism*, 136236131877455. <https://doi.org/10.1177/1362361318774559>
- Shafer, R. L., Lewis, M. H., Newell, K. M., & Bodfish, J. W. (2021). Atypical neural processing during the execution of complex sensorimotor behavior in autism. *Behavioural Brain Research*, 409(July 2020), 113337. <https://doi.org/10.1016/j.bbr.2021.113337>
- Shafer, R. L., Newell, K. M., Lewis, M. H., & Bodfish, J. W. (2017). A cohesive framework for motor stereotypy in typical and atypical development: The role of sensorimotor integration. *Frontiers in Integrative Neuroscience*, 11(August), 1–8. <https://doi.org/10.3389/fnint.2017.00019>
- Shao, Y., Cuccaro, M. L., Hauser, E. R., Raiford, K. L., Menold, M. M., Wolpert, C. M., Ravan, S. A., Elston, L., Decena, K., Donnelly, S. L., Abramson, R. K., Wright, H. H., Delong, G. R., Gilbert, J. R., & Pericak-Vance, M. A. (2003). Fine Mapping of Autistic Disorder to Chromosome 15q11-q13 by Use of Phenotypic Subtypes. *Am. J. Hum. Genet*, 72, 539–548. <https://doi.org/10.1086/367846>
- Shuid, A. N., Jayusman, P. A., Shuid, N., Ismail, J., Nor, N. K., & Mohamed, I. N. (2020). Update on atypicalities of central nervous system in autism spectrum disorder. *Brain Sciences*, 10(5), 1–20. <https://doi.org/10.3390/brainsci10050309>
- Simonoff, E., Pickles, A., Charman, T., Chandler, S., Loucas, T., & Baird, G. (2008). Psychiatric disorders in children with autism spectrum disorders: Prevalence, comorbidity, and associated factors in a population-derived sample. *Journal of the American Academy of Child and Adolescent Psychiatry*, 47(8), 921–929. <https://doi.org/10.1097/CHI.0b013e318179964f>
- Singer, H. S. (2009). Motor Stereotypies. *Seminars in Pediatric Neurology*, 16(2), 77–81. <https://doi.org/10.1016/j.spen.2009.03.008>
- Sofronoff, K., Attwood, T., & Hinton, S. (2005). A randomised controlled trial of a CBT intervention for anxiety in children with Asperger syndrome. *Journal of Child Psychology and Psychiatry and Allied Disciplines*, 46(11), 1152–1160. <https://doi.org/10.1111/j.1469-7610.2005.00411.x>
- Sofronoff, K., Attwood, T., Hinton, S., & Levin, I. (2007). A randomized controlled trial of a cognitive behavioural intervention for anger management in children diagnosed with Asperger syndrome. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 37(7), 1203–1214. <https://doi.org/10.1007/s10803-006-0262-3>
- South, M., Ozonoff, S., & McMahon, W. M. (2005). Repetitive behavior profiles in asperger syndrome and high-functioning autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 35(2), 145–158. <https://doi.org/10.1007/s10803-004-1992-8>
- Spiker, M. A., Lin, C. E., Van Dyke, M., & Wood, J. J. (2012). Restricted interests and anxiety in children with autism. *Autism*, 16(3), 306–320. <https://doi.org/10.1177/1362361311401763>

- Stark, K. H., Barnes, J. C., Young, N. D., & Gabriels, R. L. (2015). Brief Report: Understanding Crisis Behaviors in Hospitalized Psychiatric Patients with Autism Spectrum Disorder—Iceberg Assessment Interview. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, *45*(11), 3468–3474. <https://doi.org/10.1007/s10803-015-2552-0>
- Subramanian, K., Brandenburg, C., Orsati, F., Soghomonian, J. J., Hussman, J. P., & Blatt, G. J. (2017). Basal ganglia and autism – a translational perspective. *Autism Research*, *10*(11), 1751–1775. <https://doi.org/10.1002/aur.1837>
- Sukhodolsky, D. G., Scahill, L., Gadow, K. D., Arnold, L. E., Aman, M. G., McDougle, C. J., McCracken, J. T., Tierney, E., Williams White, S., Lecavalier, L., & Vitiello, B. (2008). Parent-rated anxiety symptoms in children with pervasive developmental disorders: Frequency and association with core autism symptoms and cognitive functioning. *Journal of Abnormal Child Psychology*, *36*(1), 117–128. <https://doi.org/10.1007/s10802-007-9165-9>
- Sullivan, W.E., Zangrillo, A. N., Kalb, L. G., Mazefsky, C. A. (2021). (2021). Screening, Assessment, and Measurement of Challenging Behavior in Autism Spectrum Disorder. In A. Speaks (Ed.), *Autism Speaks Thought Leadership Summit on Challenging Behaviors*.
- Supekar, K., Ryali, S., Mistry, P., & Menon, V. (2021). Aberrant dynamics of cognitive control and motor circuits predict distinct restricted and repetitive behaviors in children with autism. *Nature Communications*, *12*(1), 1–8. <https://doi.org/10.1038/s41467-021-23822-5>
- Swain, D., Scarpa, A., White, S., & Laugeson, E. (2015). Emotion Dysregulation and Anxiety in Adults with ASD: Does Social Motivation Play a Role? *Journal of Autism and Developmental Disorders*, *45*(12), 3971–3977. <https://doi.org/10.1007/s10803-015-2567-6>
- Szatmari, P., Georgiades, S., Bryson, S., Zwaigenbaum, L., Roberts, W., Mahoney, W., Goldberg, J., & Tuff, L. (2006). Investigating the structure of the restricted, repetitive behaviours and interests domain of autism. *Journal of Child Psychology and Psychiatry and Allied Disciplines*, *47*(6), 582–590. <https://doi.org/10.1111/j.1469-7610.2005.01537.x>
- Szatmari, P., Liu, X. Q., Goldberg, J., Zwaigenbaum, L., Paterson, A. D., Woodbury-Smith, M., Georgiades, S., Duku, E., & Thompson, A. (2012). Sex differences in repetitive stereotyped behaviors in autism: Implications for genetic liability. *American Journal of Medical Genetics, Part B: Neuropsychiatric Genetics*, *159 B*(1), 5–12. <https://doi.org/10.1002/ajmg.b.31238>
- Sztainberg, Y., & Zoghbi, H. Y. (2016a). Lessons learned from studying syndromic autism spectrum disorders. *Nature Neuroscience*, *19*(11), 1408–1418. <https://doi.org/10.1038/nn.4420>
- Sztainberg, Y., & Zoghbi, H. Y. (2016b). Lessons learned from studying syndromic autism spectrum disorders. *Nature Neuroscience*, *19*(11), 1408–1418. <https://doi.org/10.1038/nn.4420>
- Thelen, E. (1979). Rhythmical stereotypies in normal human infants. *Animal Behaviour*, *27*(3), 699–715. [https://doi.org/10.1016/0003-3472\(79\)90006-X](https://doi.org/10.1016/0003-3472(79)90006-X)
- Tian, J., Gao, X., & Yang, L. (2022). Repetitive Restricted Behaviors in Autism Spectrum Disorder: From Mechanism to Development of Therapeutics. *Frontiers in Neuroscience*, *16*, 105–126. <https://doi.org/10.3389/fnins.2022.780407>
- Tillmann, J., Uljarevic, M., Crawley, D., Dumas, G., Loth, E., Murphy, D., Buitelaar, J., Charman, T., Ahmad, J., Ambrosino, S., Auyeung, B., Baumeister, S., Beckmann, C., Bourgeron, T., Bours, C., Brammer, M., Brandeis, D., Brogna, C., De Bruijn, Y., ... Zwiers, M. P. (2020). Dissecting the phenotypic heterogeneity in sensory features in autism spectrum disorder: A factor mixture modelling approach. *Molecular Autism*, *11*(1), 1–15. <https://doi.org/10.1186/s13229-020-00367-w>
- Tomchek, S. D., & Dunn, W. (2007). Sensory processing in children with and without autism: a comparative study using the short sensory profile. *American Journal of Occupational Therapy*, *61*(2), 190–200. <https://doi.org/10.5014/ajot.61.2.190>
- Troyb, E., Knoch, K., Herlihy, L., Stevens, M. C., Chen, C. M., Barton, M., ... & Fein, D. (2016). Restricted and repetitive behaviors as predictors of outcome in autism spectrum disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, *46*(4), 1282–1296. (2011). *Restricted and Repetitive Behaviors as Predictors of Outcome in Autism Spectrum Disorders*. 1–61.
- Troyb, E., Knoch, K., Herlihy, L., Stevens, M. C., Chen, C. M., Barton, M., Treadwell, K., & Fein, D. (2016). Restricted and Repetitive Behaviors as Predictors of Outcome in Autism Spectrum Disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, *46*(4). <https://doi.org/10.1007/s10803-015-2668-2>
- Tsai, C. H., Chen, K. L., Li, H. J., Chen, K. H., Hsu, C. W., Lu, C. H., Hsieh, K. Y., & Huang, C. Y. (2020). The symptoms of

- autism including social communication deficits and repetitive and restricted behaviors are associated with different emotional and behavioral problems. *Scientific Reports*, 10(1), 1–8. <https://doi.org/10.1038/s41598-020-76292-y>
- Tseng, M. H., Fu, C. P., Cermak, S. A., Lu, L., & Shieh, J. Y. (2011). Emotional and behavioral problems in preschool children with autism: Relationship with sensory processing dysfunction. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 5(4), 1441–1450. <https://doi.org/10.1016/j.rasd.2011.02.004>
- Turner, M. (1999). Annotation: Repetitive Behaviour in Autism: A Review of Psychological Rese. *J Child Psychol Psychiat*, 40(6), 839–849. <https://doi.org/10.1111/1469-7610.00502>
- U., F. (2003). *Autism: Explaining the enigma* (F. U (Ed.)). Blackwell Publishing.
- Uljarević, M., Carrington, S. J., Hardan, A. Y., & Leekam, S. R. (2022). Subdomains of restricted and repetitive behaviors within autism: Exploratory structural equation modeling using the diagnostic interview for social and communication disorders. *Autism Research*, 15(5), 861–869. <https://doi.org/10.1002/aur.2687>
- Uljarević, M., Evans, D. W., Alvares, G. A., & Whitehouse, A. J. O. (2016). Short report: Relationship between restricted and repetitive behaviours in children with autism spectrum disorder and their parents. *Molecular Autism*, 7(1), 1–5. <https://doi.org/10.1186/s13229-016-0091-y>
- Uljarević, M., Lane, A. E., Kelly, A., & Leekam, S. (2016). Sensory subtypes and anxiety in older children and adolescents with autism spectrum disorder. *Autism Research*, 9(10), 1073–1078. <https://doi.org/10.1002/aur.1602>
- Vaquerizo-Serrano, J., De Pablo, G. S., Singh, J., & Santosh, P. (2022). Catatonia in autism spectrum disorders: A systematic review and meta-analysis. *European Psychiatry*, 65, e4. <https://doi.org/10.1111/j.1469-8749.2011.03980.x>
- Verhoeven, J. S., Cock, P. De, Lagae, L., & Sunaert, S. (2010). Neuroimaging of autism. *Neuroradiology*, 52(1), 3–14. <https://doi.org/10.1007/s00234-009-0583-y>
- Vicente, A. M., Martins, G. J., & Costa, R. M. (2020). Cortico-basal ganglia circuits underlying dysfunctional control of motor behaviors in neuropsychiatric disorders. *Current Opinion in Genetics and Development*, 65, 151–159. <https://doi.org/10.1016/j.gde.2020.05.042>
- Vorstman, J. A. S., Parr, J. R., Moreno-De-Luca, D., Anney, R. J. L., Nurnberger, J. I., & Hallmayer, J. F. (2017). Autism genetics: Opportunities and challenges for clinical translation. *Nature Reviews Genetics*, 18(6), 362–376. <https://doi.org/10.1038/nrg.2017.4>
- W, B. C. & D. (2002). *Adolescent/Adult Sensory Profile. User 's Manual*. San Antonio: Pearson. Pearson.
- Watson, L. R., Patten, E., Baranek, G. T., Poe, M., Boyd, B. A., Freuler, A., & Lorenzi, J. (2011). Differential associations between sensory response patterns and language, social, and communication measures in children with autism or other developmental disabilities. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 54(6), 1562–1576. [https://doi.org/10.1044/1092-4388\(2011/10-0029\)](https://doi.org/10.1044/1092-4388(2011/10-0029))
- Watt, N., Wetherby, A. M., Barber, A., & Morgan, L. (2008). Repetitive and Stereotyped Behaviors in Children with Autism Spectrum Disorders in the Second Year of Life. *J Autism Dev Disord*, 38(8), 1518–1533. <https://doi.org/10.1111/j.1469-7610.2008.01904.x>Repetitive
- Webster, P., Lewis, J., Kurowski-burt, A., Otr, L., & Long, K. (2019). *Sensory Pro fi les , Functional Magnetic Resonance Imaging , and Temporal Binding Windows : A Comparison of Data of Autistic Individuals Copyright of American Journal of Occupational Therapy is the property of American Occupational Therapy Association and. 73(4)*. <https://doi.org/10.1111/14401630.12025>
- Wechsler, D. (1997). *Test de inteligencia para niños Wechsler - Tercera Edición: WISC-III* (2a. ed). Paidós.
- Weisbrot, D. M., Gadow, K. D., DeVincent, C. J., & Pomeroy, J. (2005). The presentation of anxiety in children with pervasive developmental disorders. *Journal of Child and Adolescent Psychopharmacology*, 15(3), 477–496. <https://doi.org/10.1089/cap.2005.15.477>
- Werkman, M. F., Landsman, J. A., Fokkens, A. S., Dijkxhoorn, Y. M., van Berckelaer-Onnes, I. A., Begeer, S., & Reijneveld, S. A. (2022). The Impact of the Presence of Intellectual Disabilities on Sensory Processing and Behavioral Outcomes Among Individuals with Autism Spectrum Disorders: a Systematic Review. *Review Journal of Autism and Developmental Disorders*, 0123456789. <https://doi.org/10.1007/s40489-022-00301-1>
- Wetherby, A. M., Guthrie, W., Woods, J., Schatschneider, C., Holland, R. D., Morgan, L., & Lord, C. (2014). Parent-implemented social intervention for toddlers with autism: An RCT. *Pediatrics*, 134(6), 1084–1093. <https://doi.org/10.1542/peds.2014-0757>

- White, S. W., Mazefsky, C. A., & Dichter, Gabriel S, Chiu Pearl H, Richey John A, O. T. H. (2014). *Social-cognitive, physiological, and neural mechanisms underlying emotion regulation impairments: Understanding anxiety in autism spectrum disorder*. 540, 22–36. <https://doi.org/10.1016/j.jdevneu.2014.05.012>. Social-cognitive
- Whitehouse, C. M., & Lewis, M. H. (2015). *Repetitive Behavior in Neurodevelopmental Disorders : Clinical and Translational Findings*. 163–178. <https://doi.org/10.1007/s40614-015-0029-2>
- Wigham, S., Rodgers, J., South, M., McConachie, H., & Freeston, M. (2015). The Interplay Between Sensory Processing Abnormalities, Intolerance of Uncertainty, Anxiety and Restricted and Repetitive Behaviours in Autism Spectrum Disorder. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 45(4), 943–952. <https://doi.org/10.1007/s10803-014-2248-x>
- Williams, K. L., Campi, E., & Baranek, G. T. (2021). Associations among sensory hyperresponsiveness, restricted and repetitive behaviors, and anxiety in autism: An integrated systematic review. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 83(March), 101763. <https://doi.org/10.1016/j.rasd.2021.101763>
- Williams, K. L., Kirby, A. V., Watson, L. R., Sideris, J., Bulluck, J., & Baranek, G. T. (2018). Sensory Features as Predictors of Adaptive Behaviors: A Comparative Longitudinal Study of Children with Autism Spectrum Disorder and other Developmental Disabilities. *Res Dev Disabil.*, 81, 103–112. <https://doi.org/10.1016/j.ridd.2018.07.002>. Sensory
- Witwer, A. N., & Lecavalier, L. (2010). Validity of comorbid psychiatric disorders in youngsters with autism spectrum disorders. *Journal of Developmental and Physical Disabilities*, 22(4), 367–380. <https://doi.org/10.1007/s10882-010-9194-0>
- Wolff, J. J., Dimian, A. F., Botteron, K. N., Dager, S. R., Elison, J. T., Estes, A. M., Hazlett, H. C., Schultz, R. T., Zwaigenbaum, L., Piven, J., Chappell, C., Shaw, D., McKinsty, R., Constantino, J., Pruett, J., Pandey, J., Paterson, S., Elison, J., Evans, A. C., ... Gu, H. (2019). A longitudinal study of parent-reported sensory responsiveness in toddlers at-risk for autism. *Journal of Child Psychology and Psychiatry and Allied Disciplines*, 60(3), 314–324. <https://doi.org/10.1111/jcpp.12978>
- Wolff, J. J., Swanson, M. R., Elison, J. T., Gerig, G., Jr, J. R. P., Styner, M. A., Vachet, C., Botteron, K. N., Dager, S. R., Estes, A. M., Hazlett, H. C., Schultz, R. T., Shen, M. D., Zwaigenbaum, L., Piven, J., & Network, T. I. (2017). *Neural circuitry at age 6 months associated with later repetitive behavior and sensory responsiveness in autism*. 1–12. <https://doi.org/10.1186/s13229-017-0126-z>
- Wolff, J. J., Swanson, M. R., Elison, J. T., Gerig, G., Pruett, J. R., Styner, M. A., Vachet, C., Botteron, K. N., Dager, S. R., Estes, A. M., Hazlett, H. C., Schultz, R. T., Shen, M. D., Zwaigenbaum, L., Piven, J., Piven, J., Hazlett, H. C., Dager, S., Estes, A., ... Gu, H. (2017). Neural circuitry at age 6 months associated with later repetitive behavior and sensory responsiveness in autism. *Molecular Autism*, 8(1), 1–12. <https://doi.org/10.1186/s13229-017-0126-z>
- Yoon, S. H., Choi, J., Lee, W. J., & Do, J. T. (2020). Genetic and epigenetic etiology underlying autism spectrum disorder. *Journal of Clinical Medicine*, 9(4). <https://doi.org/10.3390/jcm9040966>
- Young RB, L. A. (2021). The measurement of restricted and repetitive behaviors in Autism Spectrum Disorder. In *Repetitive and restrictive behaviors and interests in Autism Spectrum Disorders* (pp. 115–142). Springer.
- Yu, Y., Chaulagain, A., Pedersen, S. A., Lydersen, S., Leventhal, B. L., Szatmari, P., Aleksic, B., Ozaki, N., & Skokauskas, N. (2020). Pharmacotherapy of restricted/repetitive behavior in autism spectrum disorder: a systematic review and meta-analysis. *BMC Psychiatry*, 20(1), 1–11. <https://doi.org/10.1186/s12888-020-2477-9>
- Zeidan, J., Fombonne, E., Scoriah, J., Ibrahim, A., Durkin, M. S., Saxena, S., Yusuf, A., Shih, A., & Elsabbagh, M. (2022). Global prevalence of autism: A systematic review update. *Autism Research*, 15(5), 778–790. <https://doi.org/10.1002/aur.2696>
- Zetler, N. K., Cermak, S. A., Engel-Yeger, B., Baranek, G., & Gal, E. (2022). Association Between Sensory Features and High-Order Repetitive and Restricted Behaviors and Interests Among Children With Autism Spectrum Disorder. *The American Journal of Occupational Therapy : Official Publication of the American Occupational Therapy Association*, 76(3), 1–9. <https://doi.org/10.5014/ajot.2022.048082>

ANEXOS

MATERIAL SUPLEMENTARIO

Tabla S-1. Resumen de los modelos lineales ajustados por la variable SBS -F

	Variable dependiente SBS-EM-F			
	Modelo 1 EDI-IR	Modelo 2 AASP HOS	Modelo 3 AASP BS	Modelo 4 AASP HRS
EDI-IR	0.434 (-0.073, 0.940) p = 0.098*	0.255 (-0.238, 0.749) p = 0.314	0.386 (-0.108, 0.880) p = 0.130	0.372 (-0.145, 0.888) p = 0.163
AASP-HOS		0.659 (0.269, 1.049) p = 0.002***		
AASP-BS			0.552 (0.128, 0.976) p = 0.013**	
AASP-HRS				0.175 (-0.053, 0.403) p = 0.137
Edad	0.955 (0.354, 1.555) p = 0.003***	0.853 (0.283, 1.424) p = 0.005***	1.029 (0.447, 1.611) p = 0.001***	0.889 (0.282, 1.496) p = 0.006***
DI	3.086 (-4.898, 11.071) p = 0.451	3.858 (-3.805, 11.521) p = 0.327	2.355 (-5.455, 10.164) p = 0.557	3.917 (-4.347, 12.181) p = 0.356
TOTASEBA	4.702 (-4.285, 13.690) p = 0.309	0.219 (-8.782, 9.220) p = 0.963	5.088 (-3.657, 13.834) p = 0.258	3.702 (-5.455, 12.859) p = 0.431
N	86	84	84	84
R ²	0.196	0.308	0.272	0.233
R ² corregido	0.157	0.264	0.225	0.184
Error estandar residual	17.056 (df = 81)	16.030 (df = 78)	16.445 (df = 78)	16.875 (df = 78)
F	4.952*** (df = 4; 81)	6.956*** (df = 5; 78)	5.832*** (df = 5; 78)	4.752*** (df = 5; 78)

*p<0.1 **p<0.05 ***P<0.01AASP: Adolescent/Adult sensory profile; AASP-HOS: hiperreactividad sensorial escala AASP; AASP-BS: búsqueda sensorial escala AASP; AASP-HRS: hiperreactividad sensorial escala AASP; EDI: inventario de desregulación emocional;EDI-IR: índice de reactividad emocional escala EDI;SBS-EM-F: gravedad de EM escala SBS. TOTASEBA: significación clínica de la dimensión total del inventario ASEBA.

Tabla S-2. Resumen de los modelos lineales ajustados por la variable SBS-G

	Variable dependiente SBS-EM-G			
	Modelo 1 EDI-IR	Modelo 2 AASP HOS	Modelo 3 AASP BS	Modelo 4 AASP HRS
EDI-IR	0.224 (-0.039, 0.487) p = 0.100*	0.135 (-0.128, 0.397) p = 0.318	0.195 (-0.068, 0.458) p = 0.150	0.150 (-0.113, 0.414) p = 0.267
AASP HOS		0.268 (0.060, 0.475) p = 0.014**		
AASP BS			0.173 (-0.053, 0.398) p = 0.137	
AASP HRS				0.132 (0.016, 0.248) p = 0.030**
Edad	0.240 (-0.072, 0.552) p = 0.136	0.185 (-0.118, 0.489) p = 0.236	0.252 (-0.057, 0.562) p = 0.115	0.168 (-0.141, 0.478) p = 0.291
DI	1.591 (-2.555, 5.738) p = 0.455	2.243 (-1.836, 6.321) p = 0.285	1.633 (-2.521, 5.788) p = 0.444	2.805 (-1.409, 7.020) p = 0.196
TOTASEBA	4.417 (-0.250, 9.084) p = 0.068*	1.971 (-2.820, 6.762) p = 0.423	3.950 (-0.703, 8.603) p = 0.101	2.901 (-1.768, 7.571) p = 0.227
N	86	84	84	84
R²	0.195	0.241	0.203	0.228
R² corregido	0.155	0.193	0.151	0.179
Error estandar residual	8.856 (df = 81)	8.532 (df = 78)	8.749 (df = 78)	8.606 (df = 78)
F	4.890*** (df = 4; 81)	4.966*** (df = 5; 78)	3.962*** (df = 5; 78)	4.616*** (df = 5; 78)

*p<0.1 **p<0.05 ***P<0.01 AASP: Adolescent/Adult sensory profile; AASP-HOS: hiperreactividad sensorial escala AASP; AASP-BS: búsqueda sensorial escala AASP; AASP-HRS: hiperreactividad sensorial escala AASP; EDI: inventario de desregulación emocional; EDI-IR: índice de reactividad emocional escala EDI; SBS-EM-G: gravedad de EM escala SBS. TOTASEBA: significación clínica de la dimensión total del inventario ASEBA