

자폐 범주성 장애 아동·청소년의 실행기능 중재에 대한 체계적 고찰

김은영*, 유은영**

*연세대학교 대학원 작업치료학과

**연세대학교 보건과학대학 작업치료학과

국문초록

목적: 본 연구는 자폐 범주성 장애 아동·청소년을 대상으로 한 실행기능에 대한 중재 동향과 적용된 접근법을 분석하여 작업치료 임상에서 접근할 수 있는 근거중심의 중재 기반을 마련하고자 한다.

연구방법: 2006년 1월부터 2016년 12월까지 해외 학회지에 게재된 연구를 대상으로 MEDLINE, Scopus, PubMed, ProQuest, Cochrane Library 데이터베이스에서 검색하였다. 검색 키워드는 “Autism or ASD AND Executive function AND Intervention or therapy or approach or treatment or training” 이었고 최종 21편의 연구를 선정하였다.

결과: 선정된 연구는 연구의 질적수준, 연구 참여자의 특성, 중재종류, 종속변인으로 측정된 실행기능 영역, 실행기능과 함께 측정된 종속변인, 측정도구 중심으로 분석하였다. 근거수준은 수준 I에 해당하는 무작위 대조연구가 8편(38.1%)으로 가장 많았고 19편의 연구가 고기능 자폐 아동을 대상으로 하였다. 실행기능에 대한 중재의 종류는 총 11가지로 응용행동분석, 인지행동 접근, 보완 대체요법을 사용한 중재가 가장 많았다. 종속변인으로 많이 사용된 실행기능 영역은 인지적 유연성이었고 실행기능과 함께 측정된 종속변인은 사회적 기술과 행동문제가 가장 큰 비중을 차지하였다. 각 영역별 측정도구는 매우 다양하게 나타났는데 대표적으로 많이 사용하는 도구로는 스트롭 검사, 숫자 외우기 검사, 선로 잇기 검사, 런던타워 검사, 실행기능행동평정척도가 있었다.

결론: 연구를 통해 자폐 범주성 장애 아동·청소년의 실행기능 중재에 대한 동향 및 다양한 중재법, 평가도구를 알 수 있었다. 실행기능 중재에 대한 연구는 꾸준히 이루어지고 있으나 평가도구가 다양하고 혼재되어 있으며 실행기능 중재에 초점을 둔 연구는 여전히 제한적이다. 실행기능 결함이 자폐 범주성 장애의 주요 특징으로 나타나고 중요성이 커지고 있는 만큼 작업치료 분야에서도 실행기능에 관심을 가지고 평가도구 및 중재와 관련된 다양한 연구들이 활발하게 이루어져야 할 것이다.

주제어: 실행기능, 자폐 범주성 장애, 중재, 체계적 고찰

I. 서론

자폐 범주성 장애(Autism Spectrum Disorder; ASD)는 생물학적 근거에 의한 신경발달적 장애로 비슷한 증

ORCID: Kim, Eun-Young, <http://orcid.org/0000-0002-1049-7327>

Corresponding author: Yoo, Eun-Young (splash@yonsei.ac.kr/Dept. of Occupational Therapy, College of Health Science, Yonsei University)

Received 30 April 2017; Revised version received 31 May 2017; Accepted 24 June 2017

상을 보이는 여러 증후군을 통칭한 병명이다(Poustka, 2007). 사회적 의사소통과 사회적 상호작용의 지속적인 장애를 보이고 행동, 관심 혹은 활동이 한정되고 반복적인 양상이 주요한 특징이다(American Psychiatric Association, 2013).

많은 연구자들은 ASD의 원인을 밝히고자 노력을 해왔으며 최근에는 인지적 수준에서 자폐를 설명하려는 시도에 관심이 모아지고 있다. 즉, 유기체의 모든 행동은 자극에 대한 반응이라는 자극-반응 메커니즘을 전제할 때, 자폐 아동들이 보이는 행동의 특성들은 자극이 수용되고 처리되는 과정에서 이상성을 갖기 때문이라는 것이다. 뇌와 행동 간의 관계를 연구하는 신경심리학적 연구에서는 뇌와 행동의 관계를 설명하기 위한 중간 단계를 인지적 과정으로 보고 자극이 처리되는 인지과정에 대한 연구를 통해 ASD의 특성을 설명하고자 했다. ASD의 인지적 특성을 설명하는 세 가지 주된 이론으로 마음이론 결함, 실행기능 결함, 중심적 일관성 약화에 관한 이론이 있다(Hill, 2004b). 이 중 실행기능 결함에 대한 이론은 수년간 자폐 관련 문헌에서 광범위하게 주목을 받아왔다(Hughes & Russell, 1993; Ozonoff, Pennington, & Rogers, 1991).

일반적으로 실행기능은 사고와 행동을 감독하고 통제하기 위해 사용하는 일련의 인지적 기술을 의미한다(Carlson, 2003). 즉, 실행기능은 끊임없이 변화하는 환경에서 여러 정보에 집중하고 오류를 모니터링하며 사용 가능한 정보를 고려하여 의사 결정을 내리고 필요에 따라 계획을 수정할 수 있는 능력으로 가장 높은 인지수준에 해당하는 포괄적인 개념이다(Goldberg, 2001; Meltzer, 2010). Ozonoff (1998)는 실행기능의 검사들이 주로 인지적 유연성(cognitive flexibility), 계획 및 조직(planning/organization), 억제(inhibition)등을 측정한다고 하였다. 또 다른 연구에서는 실행기능 과제 of 근본적인 요소로 인지 유연성/전환(cognitive flexibility/shift), 작업 기억(working memory), 억제(inhibition), 계획(planning)을 제시하였다(Miyake et al., 2000; Pennington & Ozonoff, 1996). 이처럼 실행기능에 대해서는 연구자들마다 다양한 견해가 존재하지만 Diamond (2013)는 대부분의 연구자들이 반응 억제, 주의력, 인지억제를 포함한 억제(inhibition), 작업 기억

(working memory), 인지 유연성(cognitive flexibility, set shifting, mental flexibility, or mental set shifting)을 3가지 핵심기능으로 보는 것에 동의하며 이로부터 추론(reasoning), 문제 해결(problem solving) 및 계획(planning)과 같은 상위 실행기능이 구축된다고 하였다(Collins & Koechlin 2012; Lehto, Juujärvi, Kooistra, & Pulkkinen, 2003; Lunt et al., 2012; Miyake et al., 2000).

실행기능은 전두엽, 특히 전전두엽(prefrontal lobe) 기능과 관련 있으며 전두엽 손상 환자들에게서 보이는 행동을 설명하기 위해 신경심리분야에서 사용되어왔다. 전두엽 손상을 입은 환자들은 공통적으로 목표 지향적 행동이 요구되는 과제에서 같은 반응을 반복하는 모습을 보였고 자발적인 과제 시작이 어려웠으며 주의집중의 지속성도 짧은 등 그 행동특성이 자폐장애를 가진 사람의 특성과 매우 유사하여 자폐장애의 실행기능 연구가 시작되었다(Ozonoff, 1997; Stuss & Knight, 2002).

자폐 아동의 실행기능 특성에 관한 연구는 지속적으로 보고되고 있다(Ozonoff & Schetter, 2007). 자폐 집단과 정상 집단의 실행기능을 비교 측정해 보았을 때 정상 지능 및 언어능력을 가진 ASD일 경우에도 계획과 반응의 억제, 자기-모니터링에서 문제를 갖는 것으로 나타났다. 이를 통해 연구자들은 실행기능의 문제가 지능 장애 또는 언어적 어려움보다는 ASD의 특성이라고 보았다(Robinson, Goddard, Dritschel, Wisley, & Howlin, 2009). 실행기능의 구성요소 중 인지적 유연성의 부족은 자폐 아동들에게서 흔히 나타나는 문제로 ASD의 핵심 증상 중 하나인 같은 것을 고집하고 반복적인 행동을 보이는 문제와 관련 된 것으로 여겼다(Hill, 2004a; Reed, Watts, & Truzoli, 2013). 자폐 아동의 작업 기억에 대해서는 결과가 일관되지는 않지만 여러 연령과 기능 수준에서 결함을 보이는 것으로 나타났다(Geurts, Verte', Oosterlaan, Roeyers, & Sergeant, 2004; Ozonoff, 1997; Verte', Geurts, Roeyers, Oosterlaan, & Sergeant, 2006).

이와 같이 ASD의 실행기능 특성을 살펴보는 연구들은 꾸준히 제시되고 있지만 실행기능의 중재에 초점을 둔 연구는 제한적이다(Baltruschat et al., 2011a; Fisher & Happe, 2005; Kenworthy et al., 2014). 실

행기능의 결함이 ASD의 대표적인 문제점으로 지적되고 있음에도 불구하고 국내연구 또한 여러 장애에 대한 전반적인 동향을 분석하거나 실행기능에 관련된 측정도구를 분석하는 수준에 머물고 있다(Shin, Lee, Kwon, Yun, & Kim, 2009; Song & Byun, 2007). Jo 등(2010)은 국내·외 실행기능의 향상을 위한 프로그램(중재)의 동향을 분석하였으나 ASD에 대한 중재는 총 3편에 그쳐 그 특성을 알아보기에는 제한적이었다.

이에 본 연구에서는 ASD를 대상으로 실행기능에 대한 중재적용의 활성화를 위해 국외 선행 연구에서 중재의 특성과 동향을 고찰하고자한다. 이를 통해 작업치료 임상 연구의 확대 및 효율적이며 근거중심적인 중재를 제공할 수 있을 것으로 기대한다.

II. 연구 방법

1. 논문 검색 및 자료수집

본 연구는 2006년 1월부터 2016년 12월까지 해외 학회지에 게재된 연구를 대상으로 하였다. 문헌검색을 위한 데이터베이스로 MEDLINE, Scopus, PubMed, ProQuest, Cochrane Library를 사용하였다. 주요 검색

용어는 “Autism or ASD AND Executive function AND Intervention or therapy or approach or treatment or training” 이었다. 분석 대상 논문의 선정 기준 및 배제 기준은 다음과 같다.

1) 선정 기준

- (1) 연구 참여자가 ASD 아동·청소년 (5세~18세 이하)인 연구
- (2) 실행 기능을 종속변수로 중재가 실시된 실험연구
- (3) 전문을 볼 수 있는 연구
- (4) 영어로만 출판된 연구

2) 배제 기준

- (1) 조사연구 및 사례연구
- (2) 고찰 또는 학위 논문
- (3) 단행본

검색 용어는 연구의 초록에 모두 포함되도록 설정 하였고 실행기능에 대한 하위 영역의 정의가 연구자들 마다 다양하므로 ‘Executive function’ 용어로만 검색하였다. 이와 같은 기준을 토대로 검색한 결과 1차로 총 351편의 논문이 검색되었다. 검색된 연구는 제목 및 초록을 먼저 검토한 후, 필요시 원문확인을 함께 하였다. 중복 검색되었거나 선정기준에 부합하지 않은 논문은 제외하였고 의문이

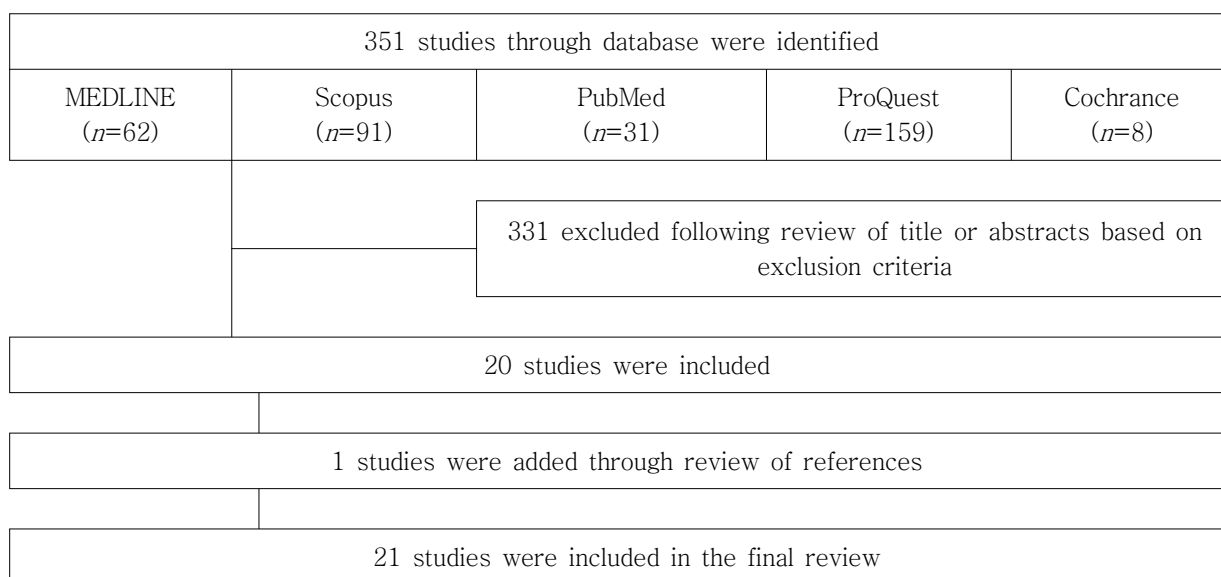


Figure 1. Flowchart for the Selection of Studies

드는 연구는 제 2저자와 의견을 나누어 결정하였다. 이러한 과정을 거쳐 총 20편의 논문을 선정하였다. 또한 키워드를 통해서 검색되지 않았지만 수집된 논문의 참고문헌을 검토하던 도중 논문 선정 기준과 일치하는 1편의 연구를 확인하여 최종적으로 21편의 논문이 선정되었다. 선정된 연구는 Diamond (2013)가 제시한 실행기능 영역(반응 억제·주의력·인지억제를 포함한 억제, 작업 기억, 인지 유연성, 추론, 문제 해결, 계획)에 따라 분류하였고 여기에 해당하지 않지만 다른 연구자들이 언급한 영역은 기타영역으로 특정 영역을 언급하지 않은 연구는 전반적 실행기능으로 분류하여 분석하였다(Figure 1).

2. 대상 연구의 질적 수준 분석

본 연구에 사용된 연구의 질적 수준을 분석하기 위해 Arbesman, Scheer와 Liverman (2008)이 개발한 질적 근거 수준 분석모델(hierarchy of levels of evidence for evidence-based practice)을 사용하였다. 수준 I에는 체계적 고찰, 메타 분석, 무작위 대조연구가 해당되고 수준 II는 두 집단 비무작위 연구, 수준III은 단일 집단 비무작위 연구, 수준IV는 개별실험연구와 조사연구, 수준V는 사례 연구, 질적 연구가 해당된다. 수준 I이 가장 상위에 있으며 수준V로 단위가 높아질수록 근거 수준은 낮아진다.

3. 자료의 제시 방법

본 연구에서는 최종 선정된 논문들의 특성을 분석하였다. 연구 참여자의 특성, 실행기능에 대한 중재, 종속변인으로 사용된 실행기능 영역 및 실행기능과 함께 측정된 종속변인을 분석하였다. 또한 실행기능 평가에 사용된 측정도구를 영역별로 분석하였다. 최종적으로 전체 연구들을 구체적이고 체계적으로 정리하기 위해 저자/연도, 연구대상, 중재, 기간/빈도, 측정도구, 결과 순으로 나열하였다(Appendix 1). 각 표에서 분석된 논문은 논문 번호를 통하여 제시하였으며 Appendix 1에서 관련 정보를 확인할 수 있다.

Ⅲ. 연구 결과

1. 연구의 질적 수준

Arbesman 등(2008)이 개발한 질적 근거 수준 분석 모델을 통해 대상연구를 분석한 결과 수준 I에 해당하는 무작위 대조연구는 8편(38.1%)이었고 수준II는 3편(14.3%), 수준III은 5편(23.8%), 수준IV는 5편(23.8%)으로 나타났다(Table 1).

Table 1. Level of Quality Among Each Study

(N=21)

Evidence level	Definition	Frequency
		n (%)
I	Systematic reviews	8 (38.1)
	Meta-analyses	
	Randomized controlled trials	
II	Two groups non-randomized studies	3 (14.3)
III	One group non-randomized studies	5 (23.8)
IV	Single subject designs	5 (23.8)
	Surveys	
V	Case reports	0 (0.0)
	Narrative literature reviews	
	Qualitative researches	
Total		21 (100.0)

Table 2. Participant Characteristics

(N=21)

Characteristics		Frequency n (%)
Age (yr)	Children(5–12)	10 (47.6)
	Adolescent(13–18)	1 (4.8)
	Mix(5–18)	10 (47.6)
	Total	21 (100.0)
Diagnosis	Autism spectrum disorder (autism, asperger, PDD, PDD–NOS)	18 (85.7)
	Combination with other diagnosis	3 (14.3)
	Total	21 (100.0)
Intelligence Quotient (IQ)	> 70	13 (61.9)
	< 70	1 (4.8)
	Mix	1 (4.8)
	Other criterion	6 (28.5)
Total		21 (100.0)

PDD: Pervasive Developmental Disorder, PDD–NOS: Pervasive Developmental Disorder–Not Otherwise Specified

Table 3. Types of Intervention for Executive Function

Categories	Types of intervention	Reference no.
Applied behavior analysis	Positive reinforcement	4, 5, 8
Cognitive behavioral intervention	CB–E intervention	1
	Social competence intervention	3
	UTO	15
Complementary Alternative medicine	Chan dietary intervention	9
	DMBI	6
	Intranasal herbal medicine	13
Biofeedback	EEG–biofeedback	10
	Neurofeedback training	2
Neuromodulation	Neurofeedback and rTMS	17
	rTMS	16
Physical activity	ACT	19
	Makoto arena intervention	14
Computer–based simulation	Virtual reality	11
	Virtual reality social cognition training	21
Computerized cognitive training	Working memory and flexibility training	18
Cognitive rehabilitation	Reading aloud	12
Animal assisted interventions	Equine–assisted therapy	20
Visual–verbal learning tools	Thinking maps	7

ACT: Assisted Cycling Therapy, CB–E: Cognitive–Behavioral–Ecological, DMBI: Dejian Mind–Body Intervention, EEG: Electroencephalography, rTMS: repetitive Transcranial Magnetic Stimulation, UTO: Unstuck and on Target

2. 연구 참여자의 특성

연구 참여자의 특성은 참여자의 연령, 장애유형, 지능지수로 나누어 분석하였다. 참여자의 연령을 살펴보면 아동과 청소년 모두를 대상으로 한 연구와 아동을 대상으로 한 연구는 10편 (47.6%)으로 같았고 청소년을 대상으로 한 연구는 1편(4.8%)으로 나타났다. 장애유형과 관련해서는 자폐(autism), 아스퍼거(asperger), 전반적발달장애(Pervasive Developmental Disorder; PDD), 달리 분류되지 않은 전반적발달장애(Pervasive Developmental Disorder-Not Otherwise Specified; PDD-NOS)를 포함한 ASD가 18편(85.7%)으로 가장 많았고 주의력결핍과잉행동장애(Attention Deficient Hyperactivity Disorder; ADHD)나 지적장애 등 다른 진단을 함께 받은 경우는 3편(14.3%)이었다. 참여자의 지능지수는 70 이상에 해당하는 연구가 13편(61.9%)이었고 지능지수

70 이하는 1편(4.8%), 지능지수 70 이상 및 이하의 참여자가 함께 있는 경우는 1편(4.8%)으로 나타났다. 지능지수 대신 좋은 언어능력(표현언어, 수용언어)을 요구하는 연구는 6편(28.5%)으로 총 19편(90.5%)의 연구가 고기능 ASD를 대상으로 하였다(Table 2).

3. 실행기능에 대한 중재

본 연구에 선정된 21개의 논문을 분석한 결과 실행기능에 대한 중재 접근은 총 11가지로 나타났다. 응용행동 분석, 인지행동 접근, 보완 대체요법을 사용한 중재가 각각 3편으로 가장 많았고 바이오피드백 훈련, 반복적인 경두개자극자극, 신체활동, 가상현실 프로그램을 적용한 중재도 각각 2편으로 나타났다. 그 외 컴퓨터 기반 인지 훈련, 말을 이용한 보조치료, 큰 소리로 책 읽기, 사고지도를 사용한 중재가 각각 1편씩 있었다(Table 3).

Table 4. Component of Executive Functions Used as Dependent Variable

Reference no.	Inhibition	Working memory	Cognitive flexibility	Planning	Problem solving	Reasoning	Overall executive function	Others
1			v		v	v		v
2	v		v					v
3					v	v	v	
4		v						
5		v						
6	v		v				v	
7			v					v
8		v						
9	v		v	v				
10	v	v	v	v				
11							v	
12		v	v			v		
13	v		v	v			v	
14							v	
15			v	v	v			
16								v
17								v
18	v	v	v				v	
19	v		v	v				v
20				v	v			
21	v		v			v		
Total	8	6	12	6	4	4	6	6

4. 종속변인으로 사용된 실행기능 영역

Diamond (2013)가 제시한 실행기능 영역에 따라 선정연구들이 어떤 실행기능 영역들을 종속변인으로 보았는지 분석하였다. 이 분류에 없는 영역을 언급한 연구들은 기타영역에 포함시켰고 특정 영역을 언급하지 않은 실행기능 연구일 경우에는 전반적 실행기능 영역으로 분류하였다. 종속변인으로 가장 많이 사용된 실행기능 영역은 인지적 유연성으로 총 12편의 논문이 해당하였다. 그 다음으로는 억제기능(8편), 작업기억(6편), 계획하기(6편), 문제해결(4편), 추론(4편) 순으로 나타났다.

전반적 실행기능을 본 연구는 총 6편이었으며 기준으로 제시된 실행기능 영역 외 다른 영역으로 실행기능을 본 연구는 6편이었다(Table 4).

5. 실행기능과 함께 측정된 종속변인

실행기능과 함께 측정된 종속변인을 분석한 결과 사회적 기술과 행동문제를 함께 본 경우가 가장 많았고 뇌파 활성화 정도를 함께 측정한 연구도 있었다. 그 외 감정이해, 운동기술, 언어기술, 기타 영역들이 있었다(Table 5).

Table 5. Another Dependent Variable

Categories	Variables in the study	Reference no.
Social skill	Adaptive functioning: communication, socialization	20
	Communication skills	2, 9, 10
	Cooperative skills	1
	Social abilities	3
	Social and behavioral function	16, 17
	Social attribution	21
	Social behavior	18
	Social interaction	2
	Social skill	15, 11
	Theory of mind	1, 3
Behavior problems	ADHD-behavior	18
	Behavioral problems	2, 9, 10, 13, 15, 19
	Social and behavioral function	16, 17
	Psychological and behavioral problems	12
EEG data	EEG data	2, 6, 9, 10, 13, 16, 17
Emotion understanding	Facial affect recognition	21
	Emotion recognition	3
	Emotional understanding	1
Motor skill	Adaptive functioning: motor abilities	20
	Manual dexterity	19
	Motor performance	14
Language skill	Figurative language comprehension	7
	Language structure	2
Others	Adaptive functioning: Daily living skills	20
	Attitudes towards exercise	19
	Memory	6
	Quality of life	18

ADHD: Attention Deficient Hyperactivity Disorder, EEG: Electroencephalographic

6. 실행기능 영역별 측정도구 분석

Diamond (2013)가 제시한 실행기능 영역에 따라 선정연구들이 사용한 측정도구들을 분석하였다. 여기에 해당하지 않은 영역을 언급한 연구들은 기타영역에 포함시켰고 특정 영역을 언급하지 않은 실행기능 연구일 경우에는 전반적 실행기능 영역으로 분류하였다. 억제 영역은 다시 반응 억제와 주의력으로 세분화하였고 구체적

으로 언급하지 않은 억제기능은 일반적인 억제에 포함시켰다.

분석결과, 각 영역별 측정도구는 매우 다양하게 나타났다. 연구마다 서로 혼재되어 사용하고 있었다. 억제기능을 측정하는 도구는 스트롭 검사(stroop test)가 3편으로 가장 많았다. 작업기억 영역은 작업기억 검사 배터리(Arbeitsgedächtnis Testbatterie: AGTB) 및 웨슬러 아동 지능검사(Wechsler Intelligence Scale for

Table 6. Measurement According to Component of Executive Functions

Component		Tests	Reference no.
Inhibition	General	CCTT	6
		HKLLT	
		NEPSY-II response set	21
		Stop task	18
		Stroop task	10, 19
	Response Inhibition	D2 test of attention	9, 13
		Go/no-go task	9
		Stroop test	
		TOSSA	2
	Attention	CPT	2
		D2 test of attention	9, 13
		Go/no-go task	9
		NEPSY-II auditory attention	21
		SART	18
		Subtest of the neurocognitive test battery CNSVS	2
		TOSSA	2, 10
	Working memory	AGTB	4
		Complex span subtest of the AGTB	5
		Corsi-BTT	18
		Digit span backwards subtest of the AGTB	8
		Digit span in the WISC-III	10, 12
		N-back task	18
		Span-board in the WAIS-RNI	12
		Subdomains of BRIEF	18
Cognitive flexibility		CT	15
		CCTT	6, 9, 13
		FPT	9
		Go/no-go task	
		Gender-emotion switch-task	18
		Homophone meaning generations test	7

Table 6. Measurement According to Component of Executive Functions (Cont.)

Component	Tests	Reference no.
Cognitive flexibility	MCST	2
	NEPSY-II response set	21
	Number-gnome switch-task	18
	Sorting subtest of the D-KEFS	1
	Subdomains of BRIEF	15, 18
	TMT	2, 10, 19
	VBM and VIM of the CNSVS	2
Planning	WCST	2, 12
	CT	15
	Subdomains of BRIEF	9, 13
	TOL	10, 19, 20
Problem solving	Sorting subtest of the D-KEFS	1
	TOL	20
	TOPS-3	3
	WAIS block design	15
Reasoning	Analogical reasoning task	21
	Sorting subtest of the D-KEFS	1
	TOPS-3	3
	RCPM	12
Overall executive function	BRIEF	3, 6, 13, 14, 18
	TEVISA protocol	11
Others	Conceptualization	Sorting subtest of the D-KEFS
	Goal setting	TOL
	Information processing	Lafayette instrument visual reaction time apparatus and an economy clock/counter
		Three-stimuli oddball task with Kanizsa figures
	Speed and efficiency	SDC of the CNSVS
	Verbal fluency	Fluency test

AGTB: Arbeitsgedächtnis Testbatterie, BRIEF: Behaviour Rating Inventory of Executive Function, CCTT: Children's Color Trails Test, CNSVS: CNS Vital Signs, Corsi-BTT: Corsi Block Tapping Task, CPT: Continuous Performance Test, CT: Challenge Task, D-KEFS: Delis - Kaplan Executive Function System, FPT: Five-Point Test, HKLLT: Hong Kong List Learning Test, MCST: Milwaukee Card Sorting Test, NEPSY-II: Developmental Neuropsychological Assessment-II, RCPM: Raven's Colored Progressive Matrices, SART: Sustained Attention Response Task, SDC of the CNSVS: Symbol Digit Coding of the CNS Vital Signs, TMT: Trail Making Test, TOC: Tower Of California, TOL: Tower Of London, TOPS-3: Test Of Problem Solving-3, TOSSA: Test Of Sustained Selective Attention, VBM and BIM of the CNSVS: Verbal Memory Test and Visual Memory Test of the CNS Vital Signs, WAIS: Wechsler Adult Intelligence Scale, WAIS-RNI: Wechsler Adult Intelligence Scale-Revised, WCST: Wisconsin Card Sorting Test, WISC-III: Wechsler Intelligence Scale for Children-III

Children-III: WISC-III)의 하위영역인 숫자 외우기 검사(digit span test)를 주로 사용하였다(4편). 인지 유연성 영역에서 많이 사용된 도구는 아동 색 선로 검사(Children's Color Trails Test: CCTT)와 선로 잇기 검사(Trail Making Test: TMT)였고(각 3편), 계획하기는 런던타워(Tower Of London: TOL)와 캘리포니아 타워(Tower Of California: TOC) 검사가 많았다(총 5편). 문제해결은 Delis - Kaplan 실행기능 시스템(Delis - Kaplan Executive Function System: D-KEFS)의 하위 영역인 분류하기(sorting subtest), 웨슬러 성인용 지능검사(Wechsler Adult Intelligence Scale: WAIS)의 블록 디자인(block design), TOL 등으로 검사하였고 추론 영역은 D-KEFS의 하위 영역인 분류하기, 유추추론과제(analogical reasoning task)를 사용하였다. 전반적 실행기능 영역은 실행기능 행동평정척도(Behaviour Rating Inventory of Executive Function: BRIEF)를 많이 사용하였고 총 5편의 연구에 나타났다(Table 6).

IV. 고찰

본 연구는 ASD 아동·청소년을 대상으로 실시한 실행기능 중재에 대한 고찰을 통해 작업치료 연구 분야를 확대하고 근거중심의 중재를 제공할 수 있는 토대를 마련하고자 하였다. 해외 학회지에 게재된 연구들을 대상으로 포함 및 배제기준에 따라 총 21개의 연구가 선정되었고 질적수준, 연구 참여자의 특성, 중재종류, 종속변인으로 사용된 실행기능 영역, 실행기능과 함께 측정된 종속변인, 측정도구에 대해 분석하였다.

선정된 연구의 근거수준은 수준 I에 해당하는 무작위 대조연구가 가장 많았다. 무작위 대조연구는 중재 효과를 평가하기 위한 가장 신뢰할 만한 방법으로 고려되는 만큼 이러한 연구들이 ASD 실행기능에 대한 영향력 있고 효과적인 중재방법을 제공해줄 수 있을 것으로 여겨진다.

ASD에 대한 실행기능 연구는 꾸준히 증가하고 있어 ASD에 대한 실행기능 연구가 중요한 이슈가 되고 있음을 볼 수 있었다. 연구 참여자의 대부분은 지능지수 70이상의 고기능 자폐에 해당하였다. 지적장애를 동반하지 않은 고기능 자폐의 유병률 증가는 자폐장애와 관련된

연구에 큰 변화를 초래하였고 자폐장애의 특성에 관한 사실들을 밝혀내는데 도움이 되었다(Croen, Crether, Hoogstrate, & Selvin, 2002). 고기능 자폐는 자폐증상의 원인을 밝히기 위한 신경심리학적 연구 대상에 적합하며 대부분의 연구에서 대상의 포함기준으로 나타나 있다(Lee, 2007). 그러나 지적장애 아동에서도 실행기능의 결함이 중요한 문제이고 중재를 통해 지적장애를 동반한 ASD 아동의 실행기능이 향상된다는 연구도 제시되어 있는 만큼 다양한 지적 능력을 가진 ASD를 대상으로 한 연구가 필요 할 것으로 사료된다(Chan et al., 2011; Park, 2011).

실행기능에 대한 중재 접근은 총 11가지로 다양하게 나타났다. 이 중 응용행동분석, 인지행동 접근, 보완 대체 요법을 사용한 중재가 가장 많은 비중을 차지하였다. 바 이오퍼드백 훈련, 반복적인 경두개자극과 같은 중재를 통해 뇌파의 변화를 확인하는 연구도 진행되고 있었다. 그 외 신체활동, 가상현실 프로그램을 적용한 중재가 있었다. 행동치료에 기초한 응용행동분석은 인지, 사회적 기술, 행동, 언어 등 ASD의 핵심 증상을 개선하는데 강력한 근거가 있음이 입증되었고 ASD 아동을 교육하는 가장 바람직한 접근법으로 이해되고 있다(Charlop, Schreibman, & Kurtz, 1991). 본 연구에 선정된 연구에서는 응용행동분석이 작업기억 향상을 위해 주로 사용되었다(Baltruschat et al., 2012). Baltruschat 등 (2011a)은 작업기억 개선을 위해 긍정 강화를 사용한 응용행동분석이 수행에 효과적임을 확인하였고 실제 생활에서 작업기억의 변화를 볼 수 있는 연구가 함께 필요 하다고 하였다. 인지-행동접근은 행동의 변화가 인지 변화를 가져올 수 있고 인지 변화는 행동의 변화를 가져올 수 있다는 원리에 기초한다. 이 접근은 ASD 아동이 일반적으로 가지고 있는 정동 및 불안 장애의 중재에 유용하고 실행기능 향상 및 사회기술 증진, 정서이해에 효과가 있는 것으로 나타났다(Bauminger, 2007; Kenworthy et al., 2014; Ollendick, King, & Chorpita, 2006; Stichter et al., 2010; Walkup et al., 2008). 보완 대체 요법은 현재 주류의학의 일부가 아니라고 여겨지는 의료 및 건강관리 체계, 기술 및 제품으로 정의되며 식이 및 건강식요법, 심신수련, 한의학, 민간요법 등이 있다(Barnes, Bloom, & Nahin, 2008; Frass et al., 2012).

ASD 아동을 대상으로 보완 대체요법의 사용을 조사한 Levy, Mandell, Merhar, Ittenbach와 Pinto-Martic (2003)의 연구에서는 31.7%의 ASD 아동이 하나 이상의 보완 대체요법을 이용하고 있다고 보고하였다. 균형 잡힌 식이조절 중재를 통해 자폐아동의 실행기능과 뇌파 변화를 살펴본 Chan, Sze, Han, & Cheung (2012)의 연구에서 실행기능 및 대뇌전방피질에서 사건 관련 뇌파 활동이 유의하게 향상된 것으로 나타났다. 바이오피드백, 뉴로피드백, 반복적인 경두개자극 중재는 자폐아동의 정보처리와 행동 반응의 향상을 가져왔으며 인지적 유연성에 효과가 있었다(Kouijzer, van Schie, Gerrits, Buitelaar, & de Moor, 2013; Sokhadze, El-Baz, Sears, Opris, & Casanova, 2014a). 이 외에도 신체활동 및 가상현실 프로그램을 적용한 연구에서도 작업기억과 운동기술이 향상되었고 사회적 기술을 증진시키는데 효과적인 것으로 나타났다(Didehbani, Allen, Kandalaft, Krawczyk, & Chapman, 2016; Hilton, et al., 2014).

ASD 대상 중재 연구에서 종속변인으로 가장 많이 사용된 실행기능 영역은 인지적 유연성이었고 억제기능, 작업기억 및 계획하기 순이었다. 인지적 유연성은 상황의 변화에 맞추어 사고나 행동을 바꿀 수 있는 능력으로 흔히 자폐아동에게서 발견되는 경직되고 반복적인 행동, 고집적 행동과 가장 관련이 크다(Hill, 2004b; Lezak, 1995). 억제기능과 계획하기의 결합은 ASD 아동에게 일반적으로 나타나지만 ADHD나 다른 진단에서도 나타나고 있어 ASD만의 특징으로 보기에는 제한적이다(Lee, 2007; Ozonoff, 1998). 따라서 실행기능 영역 가운데 ASD의 특징을 가장 잘 반영하는 인지적 유연성에 대한 중재가 가장 활발하게 연구되는 것으로 사료된다.

실행기능과 함께 측정된 종속변인으로는 사회적 기술과 행동문제가 가장 많았다. ASD의 주요 특징 가운데 사회적 의사소통의 어려움은 마음읽기의 결함으로 설명하고 제한적이고 반복적인 행동이나 언어, 사고 등에 대해서는 실행기능의 결함으로 보는 연구들이 많다(Happe, 1995; Hill, 2004a). 실행기능의 증진이 마음읽기의 향상을 가져왔다는 연구에서 보듯이 실행기능과 마음읽기는 밀접하게 관련되어 있으며 중재를 통해 서로 영향을 주고받을 수 있다(Fisher & Happe, 2005; Moses, 2001; Perner & Lang, 2000). 따라서 다양한

연구들에서 실행기능과 사회적인 기술, 행동문제에 대한 종속변수를 함께 고려하여 측정하는 것으로 여겨진다.

실행기능을 측정하는 도구들을 영역별로 살펴보았을 때 연구마다 매우 다양하게 나타났고 같은 도구를 영역마다 혼재하여 사용하는 경우가 많았다. 실행기능은 상위 인지 처리 기능으로써 여러 영역들이 함께 영향을 주고받는 만큼 이를 적절하게 평가할 수 있는 측정도구의 개발이 필요하겠다(Song & Byun, 2007).

이상의 연구를 통해 ASD 아동·청소년에 대한 실행기능 중재와 관련된 내용을 살펴보았다. 다양한 분야에서 ASD에 대한 실행기능 연구가 꾸준히 이루어지고 있고 중재에 대한 근거들을 입증하고 있지만 실행기능에 대한 일관되고 명확한 개념 정의가 불충분하고 연구들 간에 동일하위영역을 검사하기 위한 평가도구가 상이하거나 다른 하위영역임에도 같은 평가도구를 사용하는 등의 객관성이 부족하여 타당도와 신뢰도에 대한 논란의 여지가 있다. 또한 여러 중재 접근에 대한 후속연구가 한정적이고 연구대상의 실제 생활에서의 변화를 함께 살펴보는 중재연구가 미비하므로 제한점을 갖는다. ASD 아동은 작업치료의 주요 대상이지만 현재 국내·외 작업치료 분야에서는 관련연구가 매우 미흡한 실정이다. 실행기능 결함이 ASD의 특징으로 대두 되는 만큼 이에 대한 관심을 갖고 작업치료 분야로 확대되어야 할 필요가 있으며 다양한 임상 연구가 함께 진행되어야 할 것이다.

V. 결 론

본 연구는 ASD 아동·청소년의 실행기능 중재에 대한 접근법을 알아보고 근거를 마련하기 위한 것으로 최근 10년간 연구된 ASD 아동·청소년의 실행기능 중재에 대해 체계적 고찰을 실시하였다. 중재 종류는 11가지로 분류되었으며 응용행동분석과 인지행동 접근, 보완 대체요법을 사용한 중재가 가장 많았다. ASD에 대한 실행기능 연구는 꾸준히 이루어지고 있지만 국내 작업치료 분야에서는 관련연구가 전무한 실정이다. 실행기능 결함이 ASD의 주요한 특징인 만큼 이에 대한 작업치료사의 인식을 높일 필요성이 있으며 관련 연구가 진행되어야 할 것이다.

References

- American Psychiatric Association. (2013). *Diagnostic and statistical manual of mental disorders (DSM-V)*. Arlington, VA: American Psychiatric Publishing.
- Arbesman, M., Scheer, J., & Lieberman, D. (2008). Using AOTA's Critically Appraised Topic (CAT) and Critically Appraised Paper (CAP) series to link evidence to practice. *OT Practice*, 13(5), 18–22.
- Baltruschat, L., Hasselhorn, M., Tarbox, J., Dixon, D. R., Najdowski, A. C., Mullins, R. D., & Gould E. R. (2011a). Addressing working memory in children with autism through behavioral intervention. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 5, 267 – 276. doi:10.1016/j.rasd.2010.04.008
- Baltruschat, L., Hasselhorn, M., Tarbox, J., Dixon, D. R., Najdowski, A. C., Mullins, R. D., & Gould E. R. (2011b). Further analysis of the effects of positive reinforcement on working memory in children with autism. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 5, 855 – 863.
- Baltruschat, L., Hasselhorn, M., Tarbox, J., Dixon, D. R., Najdowski, A. C., Mullins, R. D., & Gould E. R. (2012). The effects of multiple exemplar training on a working memory task involving sequential responding in children with autism. *Psychological Record*, 62, 549 – 562.
- Barnes, P. M., Bloom, B., & Nahin, R. L. (2008). Complementary and alternative medicine use among adults and children: United States, 2007. *National Health Statistics Report*, 12, 1–23.
- Bauminger, N. (2007). Brief report: Group social–multimodal intervention for HFASD. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 37, 1605–1615. doi:10.1007/s10803-006-0246-3
- Borgil, M., Loliva, D., Cerino, S., Chiarotti, F., Venerosi, A., Bramini, M., ... Cirulli, F. (2016). Effectiveness of a standardized equine–assisted therapy program for children with autism spectrum disorder. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 46, 1–9. doi:10.1007/s10803-015-2530-6
- Carlson, S. M. (2003). Executive function in context: Development, measurement, theory, and experience. *Monographs of Society for Research in Child Development*, 68(3), 138–151. doi:10.1111/j.1540-5834.2003.06803012.x
- Chan, A. S., Sze, S. L., Cheung, M. C., Han, Y. M. Y., Leung, W. W. M., & Shi, D. (2011). Dejian mind–body intervention improves the cognitive functions of a child with autism. *Evidence-Based Complementary and Alternative Medicine*, 2011, 1–7. doi:10.1155/2011/549254
- Chan, A. S., Sze, S. L., & Han, Y. M. Y. (2014). An intranasal herbal medicine improves executive functions and activates the underlying neural network in children with autism. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 8, 681 – 691.
- Chan, A. S., Sze, S. L., Han, Y. M. Y., & Cheung, M. C. (2012). A chan dietary intervention enhances executive functions and anterior cingulate activity in autism spectrum disorders: A randomized controlled trial. *Evidence-Based Complementary and Alternative Medicine*, 2012, 1–11. doi:10.1155/2012/262136
- Charlop, M. H., Schreibman, L., & Kurtz, P. F. (1991). Childhood autism. In T. R. Kratochwill, & R. J. Morris (Eds.), *The practice of child therapy* (pp. 257–297). New York, NY; Pergamon Press.
- Collins, A., & Koechlin, E. (2012). Reasoning, learning, and creativity: Frontal lobe function and human decision–making. *PLoS Biology*, 10, 1–16. doi:10.1371/journal.pbio.1001293
- Croen, L. A., Crether, J. K., Hoogstrate, J., & Selvin, S. (2002). The changing prevalence of autism in

- California. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 32, 207–215. doi:10.1023/A:1015453830880
- Diamond, A. (2013). Executive functions. *Annual Review of Psychology*, 64, 135–168. doi:10.1146/annurev-psych-113011-143750
- de Vries, M., Prins, P. J. M., Schmand, B. A., & Geurts, H. M. (2015). Working memory and cognitive flexibility—training for children with an autism spectrum disorder: A randomized controlled trial. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 56, 566–576. doi:10.1111/jcpp.12324
- Didehban, N., Allen, T., Kandalaf, M., Krawczyk, D., & Chapman, S. (2016). Virtual reality social cognition training for children with high functioning autism. *Computers in Human Behavior*, 62, 703–711. doi:10.1016/j.chb.2016.04.033
- Fisher, N., & Happe, F. (2005). A training study of theory of mind and executive function in children with autistic spectrum disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 35, 757–771. doi:10.1007/s10803-005-0022-9
- Frass, M., Strassl, R. P., Friehs, H., Mullner, M., Kundi, M., & Kaye, A. D. (2012). Use and acceptance of complementary and alternative medicine among the general population and medical personnel: A systematic review. *Ochsner Journal*, 12, 45–56. doi:10.1043/1524-5012-12.1.45
- Geurts, H., Verte', S., Oosterlaan, J., Roeyers, H., & Sergeant, J. (2004). How specific are executive functioning deficits in attention deficit hyperactivity disorder and autism? *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 45, 836–854. doi:10.1111/j.1469-7610.2004.00276.x
- Goldberg, E. (2001). *The executive brain: Frontal lobe and the civilized mind*. Oxford, England: Oxford University Press.
- Happe, F. G. E. (1995). The role of age and verbal ability in ability in theory of mind task performance of subjects with autism. *Child Development*, 66, 843–855. doi:10.1111/j.1467-8624.1995.tb00909.x
- Hill, E. L. (2004a). Executive dysfunction in autism. *TRENDS in Cognitive Sciences*, 8, 26–32. doi:10.1016/j.tics.2003.11.003
- Hill, E. L. (2004b). Evaluating the theory of executive dysfunction in autism. *Developmental Review*, 24, 189–233. doi:10.1016/j.dr.2004.01.001
- Hilton, C. L., Cumpata, K., Klohr, C., Gaetke, S., Artner, A., Johnson, H., & Dobbs, S. (2014). Effects of exergaming on executive function and motor skills in children with autism spectrum disorder: A pilot study. *American Journal of Occupational Therapy*, 68, 57–65. doi:10.5014/ajot.2014.008664
- Hughes, C., & Russell, J. (1993). Autistic children's difficulty with mental disengagement from an object: Its implications for theories of autism. *Developmental Psychology*, 29, 498–510. doi:10.1037/0012-1649.29.3.498
- Jo, J. Y., Yun, J. Y., Shin, Y. H., Song, H. J., Bae, M. J., & Gu, H. J. (2010). Direction of the executive functional improvement program according to trends. *Journal of Emotional and Behavioral Disorders*, 26(3), 127–149.
- Kenworthy, L., Anthony, L. G., Naiman, D. Q., Cannon, L., Wills, M. C., Luong-Tran, C., ... Wallace, G. L. (2014). Randomized controlled effectiveness trial of executive function intervention for children on the autism spectrum. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 55, 374–383. doi:10.1111/jcpp.12161
- Kouijzer, M. E. J., de Moor, J. M. H., Gerrits, B. J. L., Congedo, M., & van Schie, H. T. (2009). Neurofeedback improves executive functioning in children with autism spectrum disorders.

- Research in Autism Spectrum Disorders*, 3, 145 - 162. doi:10.1016/j.rasd.2008.05.001
- Kouijzer, M. E. J., van Schie, H. T., Gerrits, B. J. L., Buitelaar, J. K., de Moor, J. M. H. (2013). Is EEG-biofeedback an effective treatment in autism spectrum disorders? A randomized controlled trial. *Applied Psychophysiology and Biofeedback*, 38, 17-28. doi:10.1007/s10484-012-9204-3
- Lee, H. Y. (2007). *The effect of modeling intervention on cognitive flexibility of high function autistic disorder* (Master's thesis). Daegu University, Kyungbuk.
- Lehto, J. E., Juujärvi, P., Kooistra, L., & Pulkkinen, L. (2003). Dimensions of executive functioning: Evidence from children. *British Journal of Developmental Psychology*, 21, 59 - 80. doi:10.1348/026151003321164627
- Levy, S. E., Mandell, D. S., Merhar, S., Ittenbach, R. F., Pinto-Martin, J. A. (2003). Use of complementary and alternative medicine among children recently diagnosed with autistic spectrum disorder. *Journal of Developmental Behavioral Pediatrics*, 24, 418-423.
- Lezak, M. D. (1995). *Neuropsychological assessment* (3th ed). Oxford, England: Oxford University Press.
- Lorenzo, G., Pomares, J., & Lledó, A. (2013). Inclusion of immersive virtual learning environments and visual control systems to support the learning of students with asperger syndrome. *Computers and Education*, 62, 88-101. doi:10.1016/j.compedu.2012.10.028
- Lunt, L., Bramham, J., Morris, R. G., Bullock, P. R., Selway, R. P., Xenitidis, K., & David, A. S. (2012). Prefrontal cortex dysfunction and 'jumping to conclusions': Bias or deficit? *Journal of Neuropsychology*, 6, 65 - 78. doi:10.1111/j.1748-6653.2011.02005.x
- Mashal, N., & Kasirer, A. (2011). Thinking maps enhance metaphoric competence in children with autism and learning disabilities. *Research in Developmental Disabilities*, 32, 2045 - 2054. doi:10.1016/j.ridd.2011.08.012
- Meltzer L. (2010). *Promoting executive function in the classroom*. New York, NY: Guilford Press.
- Miyake, A., Friedman, N. P., Emerson, M. J., Witzki, A. H., Howerter, A., & Wager, T. D. (2000). The unity and diversity of executive functions and their contributions to complex "frontal lobe" tasks: A latent variable analysis. *Cognitive Psychology*, 41, 49-100. doi:10.1006/cogp.1999.0734
- Moses, L. J. (2001). Executive accounts of theory of mind and executive control. *Trends in Cognitive Sciences*, 3, 337-344.
- Ollendick, T. H., King, N. J., & Chorpita, B. F. (2006). Empirically supported treatments for children and adolescents. In P. C. Kendall (Ed.), *Child and adolescents therapy: Cognitive-behavioral procedures* (3rd. ed., pp. 492 - 520). New York, NY: Guilford Press.
- Ozonoff, S. (1997). Components of executive function in autism and other disorders. In J. Russell (Ed.), *Autism as an executive disorder* (pp. 179 - 211). Oxford, England: Oxford University Press.
- Ozonoff, S. (1998). Assessment and remediation of executive dysfunction in autism and asperger syndrome. In E. Schopler, G. B. Mesibov, & L. J. Kuncie (Eds.), *Asperger Syndrome or High-Functioning Autism?* (pp. 263-292). New York, NY: Plenum Press.
- Ozonoff, S., & Schetter, P. L. (2007). Executive dysfunction in autism spectrum disorders. In Meltzer, L. (Ed.), *Executive function in education* (p. 133). New York, NY: Guilford Press.
- 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 and Allied Disciplines*, 32, 1081 - 1105. doi:10.1111/j.1469-7610.1991.tb00351.x
- Park, H. O. (2011). The effect of self-determination training using visual aid on the executive functioning of students with intellectual disabilities. *Journal of Intellectual Disabilities*, 13(4), 163-178.
- Pennington, B. F., & Ozonoff, S. (1996). Executive functions and developmental psychopathology. *Journal of Child Psychology and Psychiatry and Allied Disciplines*, 37, 51-87. doi:10.1111/j.1469-7610.1996.tb01380.x
- Perner, J., & Lang, B. (2000). Theory of mind and executive function: Is there a developmental relationship? In B. C. Simon, T. F. Helen, & D. J. Cohen (Eds), *Understanding other minds: Perspectives from developmental cognitive neuroscience* (2nd. ed., pp. 150-181). Oxford, England: Oxford University Press
- Poustka, R. (2007). The neurobiology of autism. In F. Volkmar (Ed.), *Autism and pervasive developmental disorders* (2nd ed., pp. 179-220). Cambridge, MA: Cambridge University Press.
- Reed, P., Watts, H., & Truzoli, R. (2013). Flexibility in young people with autism spectrum disorders on a card sort task. *Autism*, 17, 162 - 171. doi:/10.1177/1362361311409599
- Ringenbach, S. D. R., Lichtsinn, K. C., & Holzapfel, S. D. (2015). Assisted Cycling Therapy (ACT) improves inhibition in adolescents with autism spectrum disorder. *Journal of Intellectual and Developmental Disability*, 40, 376-387. doi:10.3109/13668250.2015.1080352
- Robinson, S., Goddard, L., Dritschel, B., Wisley, M., & Howlin, P. (2009). Executive functions in children with autism spectrum disorders. *Brain and Cognition*, 71, 362-368. doi:10.1016/j.bandc.2009.06.007
- Shin, Y. H., Lee, H. S., Kwon, M. O., Yun, J. Y., Kim K. S. (2009). An analysis of executive function studies and EF's tasks' trends for ADHD and autism. *Journal of Emotional and Behavioral Disorders*, 25(4), 21-45.
- Sokhadze, E., El-Baz, A. S., Sears, L. L., Opris, I., & Casanova, M. F. (2014a). rTMS neuromodulation improves electrocortical functional measures of information processing and behavioral responses in autism. *Frontiers in Systems Neuroscience*, 8, 1-17, doi:10.3389/fnsys.2014.00134
- Sokhadze, E., El-Baz, A. S., Tasman, A., Sears, L. L., Wang, Y., Lamina, E. V., & Casanova, M. F. (2014b). Neuromodulation integrating rTMS and neurofeedback for the treatment of autism spectrum disorder: An exploratory study. *Applied Psychophysiology and Biofeedback*, 39, 237-257. doi:10.1007/s10484-014-9264-7
- Song, C. W., & Byun, C. S. (2007). Current trends of research related to executive function. *Journal of Emotional and Behavioral Disabilities*, 23(1), 143-162.
- Stichter, J. P., Herzog, M. J., Visovsky, K., Schmidt, C., Randolph, J., Schultz, T., & Gage, N. (2010). Social competence intervention for youth with asperger syndrome and high-functioning autism: An initial investigation. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 40, 1067-1079. doi:10.1007/s10803-010-0959-1
- Stuss, D. T., & Knight, R. T. (2002). *Principles of frontal lobe function*. Oxford, England: Oxford University Press.
- Tachibana, Y., Hwang, Y., Abe, Y., Goto, S., Sugai, K., & Kawashima, R. (2013). Reading aloud improves executive function of children with autism spectrum disorder: A pilot randomized controlled trial. *International Journal on Disability and Human Development*, 12, 91 - 101. doi:10.

- 1515/ijdhhd-2012-0128
- Verte', S., Geurts, H. M., Roeyers, H., Oosterlaan, J., & Sergeant, J. A. (2006). The relationship of working memory, inhibition, and response variability in child psychopathology. *Journal of Neuroscience Methods*, 151, 5 - 14. doi:10.1016/j.jneumeth.2005.08.023
- Walkup, J., Albano, A., Piacentini, J., Birmaher, B., Compton, S. Sherril, J., & Kendall, P. C. (2008). Cognitive-behavioral therapy, sertraline, or a combination in childhood anxiety. *New England Journal of Medicine*, 359, 2753 - 2766. doi:10.1056/NEJMoa0804633

Abstract

A Systematic Review of Intervention on Executive Function in Children and Adolescent With Autism Spectrum Disorder

Kim, Eun-Young*, B.H.Sc., O.T., Yoo, Eun-Young**, Ph.D., O.T.

*Dept. of Occupational Therapy, The Graduate School, Yonsei University

**Dept. of Occupational Therapy, College of Health Science, Yonsei University

Objective : The aim of this systematic review was to examine the intervention on executive function in children and adolescent with Autism Spectrum Disorder(ASD) and to provide evidence regarding occupational therapy.

Methods : Studies for this review were collected by searching the MEDLINE, Scopus, PubMed, ProQuest, Cochrane Library database for articles from January 2006 to December 2016, using the following key word: "Autism or ASD AND Executive function AND Intervention or therapy or approach or treatment or training" A total of 21 studies were included in the analysis.

Results : The results indicated the level of quality, participant characteristics, the type of intervention, component of executive functions used as dependent variable, another dependent variable, and measurement. The articles reviewed eight Level 1 evidence articles(38.1%) and 19 studies were conducted on high-functioning children with ASD. Applied behavior analysis, cognitive-behavioral intervention, complementary and alternative medicine were the most commonly applied interventions. The component of executive function used as a dependent variable was the most cognitive flexibility. The other variables were social skills and behavioral problems, and the measurement tools for each area varied widely. A typical tool were stroop test, digit span, TMT, TOL, BRIEF.

Conclusion : Through this systematic review, we were able to find and understand the trend of intervention on executive function in children and adolescent with ASD. As the executive function defect is a major feature of ASD, various researches related to the evaluation tool and intervention should be actively carried out in the occupational therapy field with an interest in the executive function.

Key words : Autism spectrum disorder, Executive function, Intervention, Systemic review

Appendix 1.

Summary of Interventions on ASD's Executive Function in Review Studies

No.	Reference	Participants N/Age (years)	Intervention Duration/Frequency	Measurement	Results
1	Bauminger (2007)	HFASD Asperger N=26 8-9	Cognitive- behavioral- ecological (CB-E) intervention 2/weekly for 7 month Total 50 lessons	▶ Executive functions: Sorting subtest of the D-KEFS ▶ Cooperative skills: Companionship measure, Social interaction observation scale ▶ Problem solving: Problem solving measure ▶ Theory of mind: Strange story measure ▶ Emotional recognition and knowledge: Affective matching measure, Emotion inventory	▶ Treatment effects in promoting social cognition and problem-solving capabilities ▶ Improvement in ability to define and recognize emotions, social situations, and constructs ▶ Both groups showed a better understanding of others and improved awareness of others ▶ Increase of sorting ability

ASD: Autism Spectrum Disorder, D-KEFS: Delis-Kaplan Executive Function, HFASD: High-Functioning Children with Autism Spectrum Disorder

Summary of Interventions on ASD's Executive Function in Review Studies (Cont.)

No.	Reference	Participants N/Age(years)	Intervention Duration/Frequency	Measurement	Results
2	Kouijzer, de Moor, Gerrits, Congedo, & van Schie (2009)	ASD N=14 8-12	Exp group: Neurofeedback training Con group: Waiting-list group 2/week, total 40 sessions	► Executive function: CPT, TOSSA, Stroop test, TOL, TMT, MCST, WCST, Subtest of the neurocognitive test battery CNSVS, VBM and VIM of the CNSVS, SDC of the CASVS ► Questionnaire: CCC-2-NL, AUTI-R, Social validity ► QEEG	► Reduction of theta power and increase of low beta power in neurofeedback training ► Significant improvement in attentional control, cognitive flexibility and goal setting ► Improvement of social, communicative and typical behavior

CCC-2-NL: Children's Communication Checklist, CNSVS: CNS Vital Signs, CPT: Continuous Performance Test, MCST: Milwaukee Card Sorting Test, QEEG: Quantitative Electroencephalogram, SDC of the CNSVS: Symbol Digit Coding of the CNS Vital Signs, TMT: Trail Making Test, TOL: Tower Of London, TOSSA: Test of Sustained Selective Attention, VBM and VIM of the CNSVS: Verval Memory Test and Visual Memory Test of the CNS Vital Signs

Summary of Interventions on ASD's Executive Function in Review Studies (Cont.)

No.	Reference	Participants N/Age(years)	Intervention Duration/Frequency	Measurement	Results
3	Stichter et al. (2010)	HFA Asperger N=27 11-14	Social competence intervention 20 h of group intervention, 2/weekly for 10 weeks	▶ Executive function: BRIEF, TOPS-3 ▶ Social abilities: SRS ▶ Theory of mind: Sally - anne false belief task, Smarties false belief task ▶ Emotion recognition: DANVA-2-CF, Reading the mind in eyes test	▶ Parent reports of social skills and executive functioning improved significantly ▶ Significant improvement on theory of mind, facial expression recognition and problem solving
4	Baltruschat et al. (2011a)	ASD N=3 7, 9, 11	Basic behavioral procedure of positive reinforcement 2-4 times/day, 2-3 days/week	▶ Working memory: AGTB	▶ Positive reinforcement effectively improved central-executive WM abilities ▶ Effects of positive reinforcement were maintained and were generalized to novel stimuli and behaviors

AGTB: Arbeitsgedächtnis Testbatterie, BRIEF: Behavior Rating Inventory of Executive Function, DANVA-2-CF: Diagnostic Analysis of

Non-Verbal Accuracy-2-Child Facial Expressions, HFA: High Functioning Autism, SRS: Social Responsiveness Scale, TOPS-3: Test of Problem Solving-3, WM: Working Memory

Summary of Interventions on ASD's Executive Function in Review Studies (Cont.)

No.	Reference	Participants N/Age(years)	Intervention Duration/Frequency	Measurement	Results
5	Baltruschat et al. (2011b)	ASD N=3 6, 8, 8	Basic behavioral procedure of positive reinforcement 2-4 times/day, 2-3 days/week	▶ Working memory: Complex span subtest of the AGTB	▶ Performance of participants significantly improved and accurate responding to an untrained stimuli was maintained and was generalized

AGTB: Arbeitsgedächtnis Testbatterie, WM: Working Memory

Summary of Interventions on ASD's Executive Function in Review Studies (Cont.)

No.	Reference	Participants N/Age(years)	Intervention Duration/Frequency	Measurement	Results
6	Chan et al. (2011)	ASD+MR N=1 9	Dejian Mind-Body Intervention(DMBI) Conventional behavioural/ Cognitive Intervention(CI)	▶ Executive function: BRIEF, CCTT, HKLLT ▶ QEEG assessment	▶ Significantly improvement in cognitive flexibility, Inhibitory control and memory function ▶ Anterior cordance Increased and global brain state were concordant increasingly
			DMBI: 15 min/weekly for 1 month and 15 min/monthly for 7 month		
			CI: 30 min/week for a year		

BRIEF: Behavior Rating Inventory of Executive Function, CCTT: Children's Color Trails Test, HKLLT: Hong Kong List Learning Test, MR: Mental Retardation, QEEG: Quantitative Electroencephalogram

Summary of Interventions on ASD's Executive Function in Review Studies (Cont.)

No.	Reference	Participants N/Age(years)	Intervention Duration/Frequency	Measurement	Results
7	Mashal & Kasirer (2011)	ASD, LD, TD N=60 12-15	Thinking maps 2 sessions	▶ Executive function: Semantic fluency test, Phonemic fluency test, Homophone meanings generation test ▶ Figurative language comprehension tests: Idioms, Metaphors	▶ Two groups(ASD and LD) improved the metaphorical understanding of items and were able to understand the metaphor by using thinking maps ▶ ASD group were not able to generalize the thinking maps to novel metaphors
8	Baltruschat et al. (2012)	ASD N=3 6, 7, 9	Basic behavioral procedure of positive reinforcement 2-4 times/day 2-3 days/week	▶ Working memory: Digit span backwards subtest of AGTB	▶ All participants showed improved performance on directly trained stimuli ▶ Maintenance and generalization to untrained stimuli were obtained

AGTB: Arbeitsgedächtnis Testbatterie, LD: Learning Disabilities, TD: Typically Developed children

Summary of Interventions on ASD's Executive Function in Review Studies (Cont.)

No.	Reference	Participants N/Age(years)	Intervention Duration/Frequency	Measurement	Results
9	Chan et al. (2012)	Autism PDD-NOS N=24 7-17	<u>Exp group:</u> Chanyi approach (specific diet modification) <u>Con group:</u> No treatment	▶ Executive function: CCTT, D2 test of attention, Go/no-go task, FPT, TOC ▶ Parental evaluation on behavioral measure: Autism treatment evaluation checklist ▶ EEG assessment	▶ Significant improvements in inhibitory control and mental flexibility ▶ Exp group' parents rated positively on social communication abilities and inhibitory control of daily behaviors ▶ Event-related EEG activity enhanced significantly
10	Kouijzer et al. (2013)	Autism Asperger PDD-NOS N=38 12-18	<u>Exp group:</u> EEG-biofeedback, • SC-biofeedback, • waiting list group <u>Con group:</u> • SC-biofeedback, • waiting list group 2/week Total 40 sessions	▶ Executive function: Stroop task, TOL, TOSSA, TMT, Subtest digit span of WISC-III ▶ Symptoms of ASD: SCQ, Clinical global impression ▶ 19-Channel EEG	▶ Significant reductions of delta and/or theta power during EEG-biofeedback sessions ▶ EEG-biofeedback group improved significantly in cognitive flexibility ▶ Reductions of ASD' symptoms was not significant

CCTT: Children's Color Trails Test, EEG: Electroencephalography, FPT: Five-Point Test, PDD-NOS: Pervasive Developmental Disorder-Not Otherwise Specified, SC: Skin Conductance, SCQ: Social Communication Questionnaire, TMT: Trail Making Test, TOC: Tower of California, TOL: Tower of London, TOSSA: Test of Sustained Selective Attention, WISC-III: Wechsler Intelligence Scale for Children-III

Summary of Interventions on ASD's Executive Function in Review Studies (Cont.)

No.	Reference	Participants N/Age(years)	Intervention Duration/Frequency	Measurement	Results
11	Lorenzo, Pomares, & Lledó (2013)	Asperger N=20 8-15	Virtual reality 2 session/week 25 min, total 80 individual sessions	▶ TEVISA protocol ▶ PIAV protocol	▶ Improvement in the executive functions and social skills ▶ Behavior of the students improved significantly
12	Tachibana et al. (2013)	ASD N=11 8-10	<u>Exp group:</u> Read books aloud group <u>Con group:</u> Waiting-list group 30 min/day 5 days/week for 5 weeks	▶ Executive function: WCST, Digit span of WISC-III, Span-board task of WAIS-RNI, RCPM ▶ Behavioral problems: CBCL	▶ Significant improvements in 'perseverative errors' and 'categories achieved' of the WCST and depression/anxiety of the CBCL

CBCL: Child Behavior check List, WAIS-RNI: Wechsler Adult Intelligence Scale-Revised, WCST: Wisconsin Card Sorting Test, WISC-III: Wechsler Intelligence Scale for Children-III, RCPM: Raven's Colored Progressive Matrices

Summary of Interventions on ASD's Executive Function in Review Studies (Cont.)

No.	Reference	Participants N/Age(years)	Intervention Duration/Frequency	Measurement	Results
13	Chan, Sze, & Han (2014)	Autism Asperger PDD-NOS N=30 7-17	<u>Exp group:</u> Intra nasal application of the herbal formula TOC <u>Con group:</u> No treatment 10 ml/day for 6 month	► Executive function: D2 test of attention, CCTT-2, TOC ► Behavioral measure: BRIEF, CPRS ► EEG assessment	► Significant improvement in mental flexibility, inhibitory control, and planning abilities ► Reduced daily dysexecutive behaviors
14	Hilton et al. (2014)	ASD N=7 6-13	Makoto arena intervention Minimum of 3 times/week total 30 sessions	► Executive function: BRIEF ► Motor skills: BOT-2	► Increased average reaction speed ► Significant improvement in the EF areas of metacognition, working memory and the motor skill of strength and agility

BOT-2: Bruininks-Oseretsky Test of Motor Proficiency-2, BRIEF: Behavior Rating Inventory of Executive Function,
 CCTT-2: Children's Color Trails Test-2, CPRS: Children's Psychiatric Rating Scale, EEG: Electroencephalography, EF: Executive Function,
 PDD-NOS: Pervasive Developmental Disorder-Not Otherwise Specified, TOC: Tower of California Test

Summary of Interventions on ASD's Executive Function in Review Studies (Cont.)

No.	Reference	Participants N/Age(years)	Intervention Duration/Frequency	Measurement	Results
15	Kenworthy et al. (2014)	ASD N=67 7-11	<u>Exp group</u> : Unstuck and On Arget(UOT) intervention <u>Con group</u> : Social skills intervention 30 - 40 min/lessons for 1 school-year total 28 lessons	▶ Executive function: WASI BD, CT ▶ Parent and teacher report: BRIEF, SRS, Classroom observations coding form	▶ Significant improvements for UOT in flexibility, planning/organizing, problem-solving, ability to follow rules, and make transitions ▶ Both groups' social skills are equivalent improvements
16	Sokhadze et al. (2014a)	Autism Asperger N=54 14-17	<u>Exp group</u> : rTMS group <u>Con group</u> : Waiting list group 18 session	▶ Executive function: Three-stimuli oddball task with kanizsa ▶ Social and behavioral function: ABC, SRS, RBS-R	▶ Significant changes in behavioral responses(accuracy, post-error, RT slowing) ▶ Significant decrease in restricted behavior patterns and stereotype repetitive

ABC: Aberrant Behavior Checklist, BRIEF: Behavior Rating Inventory of Executive Function, CT: Challenge Task,
RBS-R: Repetitive Behavior Scale-Revised, RT: Reaction Time, rTMS: repetitive Transcranial Magnetic Stimulation,
SRS: Social Responsiveness Scale, WASI BD: WASI Block Design

Summary of Interventions on ASD's Executive Function in Review Studies (Cont.)

No.	Reference	Participants N/Age(years)	Intervention Duration/Frequency	Measurement	Results
17	Sokhadze et al. (2014b)	ASD N=42 11-17	Exp group: TMS-NFB treatment group Con group: Waiting list group 30 min/ session, total 18 session	► Executive function: Three-stimuli oddball task with kanizsa ► Social and behavioral function: ABC, RBS-R	► Significant decrease of commission error rate ► Significant improvements in behavioral and functional outcomes ► Not significant in RT to targets
18	de Vries, Prins, Schmand, & Geurts (2015)	ASD N=86 8-12	Exp group: WM-training Con group • Cognitive flexibility training • Mock-training 6 session /week, total 25 sessions	► Executive functions: Corsi-BTT, N-back task, Gender emotion switch-task, Number gnome switch-task, Stop-task, SART ► Questionnaires: • BRIEF, CSBQ, DBDRS-ADHD, PedsQL	► Improvements in working memory, flexibility, attention, and on parent rated executive function, social behavior, ADHD-behavior, and quality of life ► WM-training did tend to induce more improvement in WM(near-transfer) and ADHD-behavior (far-transfer) then the other intervention-conditions

ABC: Aberrant Behavior Checklist, BRIEF: Behavior Rating Inventory of Executive Function, Corsi-BTT: Corsi Block Tapping Task, CSBQ: Children's Social Behavior Questionnaire, DBDRS-ADHD: Disruptive Behavior Disorders Rating Scale-Attention Deficient Hyperactivity Disorder, PedsQL: Pediatric Quality of Life Inventory, RBS-R: Repetitive Behavior Scale-Revised, RT: Reaction Time, SART: Sustained Attention Response Task, TMS-NFB: rTMS-neurofeedback combination, WM: Working Memory

Summary of Interventions on ASD' s Executive Function in Review Studies (Cont.)

No.	Reference	Participants N/Age(years)	Intervention Duration/Frequency	Measurement	Results
19	Ringenbach, Lichtsinn, & Holzapfel (2015)	ASD N=10 8-16	<u>Exp group:</u> Assisted cycling therapy <u>Con group:</u> • Voluntary cycling • No cycling 20min / nonconsecutive days	<u>Executive function:</u> Stroop task, TMT, TOL, Lafayette instrument visual reaction time apparatus and an economy clock/counter <u>Mental dexterity:</u> Purdue pegboard test	<u>Exp group'</u> inhibition improved significantly and improvements in cognitive planning and set-switching
20	Borgi et al. (2016)	ASD N=28 6-12	<u>Exp group:</u> Equine-assisted therapy (EAT) program <u>Con group:</u> No treatment 60-70 min/session, 1time/week for 6 months 25 sessions	<u>Executive function:</u> TOL <u>Adaptive function:</u> VAVS	<u>EAT group'</u> social and executive functioning improved -increase in the socialization scores -significant reduction of planning time

TMT: Trail Making Test, TOL: Tower of London, VAVS: Vineland Adaptive Behavior Scale

Summary of Interventions on ASD's Executive Function in Review Studies (Cont.)

No.	Reference	Participants N/Age(years)	Intervention Duration/Frequency	Measurement	Results
21	Didehbani et al. (2016)	ASD, ASD+ADHD N=30 7-16	Virtual Reality Social Cognition Training (VR-SCT) 1 h/session, 2 session/week, total 10 sessions	► Executive function: NEPSY-II-auditory attention and response set, Analogical reasoning task ► Affect recognition: NEPSY-II-facial affect recognition ► Social attribution task	► Improvements on measures of social attribution, emotion recognition and analogical reasoning ability

ADHD: Attention Deficient Hyperactivity Disorder, NEPSY-II: Developmental Neuropsychological Assessment-II