

Correspondentieadres:
Dr. T.C.W. Nijboer
Helmholtz Instituut
Heidelberglaan 2
3584 cs Utrecht
t.c.w.nijboer@uu.nl

'Spiegelschrijven', een stoornis in mentale representaties?

Samenvatting

Spiegelschrijven is een zeldzaam fenomeen, waarbij zowel de schrijfrichting als de individuele letters gespiegeld worden. Er is gesuggereerd dat het een motorisch verschijnsel zou zijn. In deze casusbeschrijving wordt het neuropsychologisch profiel van patiënte GT besproken en wordt een mogelijk cognitieve functiestoornis voorgesteld.

'Spiegelschrijven'

Buchwald (1878) was de eerste die de term 'mirror writing' (spiegelschrijven) introduceerde voor de observatie dat schrijven in de tegenovergestelde richting dan gebruikelijk plaatsvindt, waarbij de individuele letters ook gespiegeld zijn. Als de geschreven tekst voor een spiegel wordt gehouden, kunnen de letters, woorden, en/of zinnen normaal gelezen worden. Het komt relatief vaak voor bij gezonde kinderen tussen de drie en zeven jaar, die leren schrijven, en dan vooral bij letters die spiegelbaar zijn, zoals de 'b' en 'd' (Cornell, 1985). Bij volwassenen kan dit fenomeen echter ook optreden na focale hersenbeschadiging (bijvoorbeeld een Cerebrovasculair Accident oftewel cva, trauma, abces) in voornamelijk de linkerhemisfeer (Buchwald, 1878; Fraenkel, 1908; Tashiro e.a., 1987), waarbij de pariëtaalkwab een cruciale rol lijkt te spelen (Balfour e.a., 2007). Bij volwassenen is spiegelschrijven een bijzonder zeldzaam fenomeen. In casusbeschrijvingen komt naar voren dat voornamelijk hemiplegiepatiënten spiegelschrijven laten zien, indien zij met hun non-dominante, linkerhand schrijven (de schattingen lopen van 2,4% tot 13% van de hemiplegiepatiënten; Balfour e.a., 2007; Della Sala & Cubelli, 2007). Dit suggereert dat motorische uitval van de dominante hand een belangrijke rol speelt bij het ontstaan van spiegelschrijven.

Vaak zijn de verschijnselen van voorbijgaande aard (een aantal dagen tot weken) en fragmentarisch (slechts enkele letters, woorden, zinnen). Dysfasie, dysarthrie, en spatiele verwarring zijn gerapporteerd als comorbide stoornissen (Heilman e.a., 1980). Spiegelschrijven is door de zeldzaamheid nog niet systematisch onderzocht en de onderliggende mechanismen zijn onbekend. Recent is gesuggereerd dat het eerder als een motorisch

verschijnsel zou moeten worden beschouwd dan als een cognitief fenomeen (Schott, 2007). In het huidige artikel wordt van een patiënte met verworven spiegelschrijven het cognitief profiel in kaart gebracht en wordt een mogelijke onderliggende cognitieve functiestoornis voorgesteld.

Casusbeschrijving

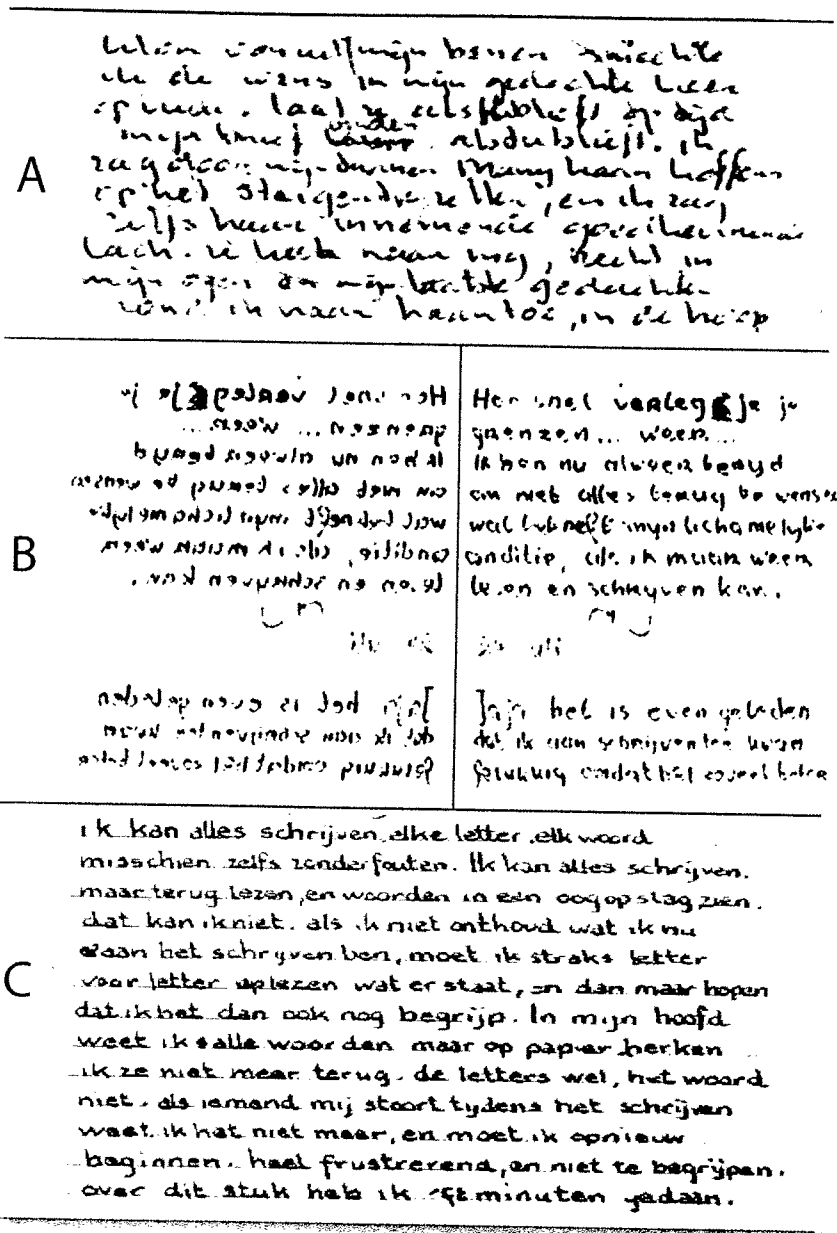
In januari 2010 komt patiënte GT voor een wetenschappelijk (neuropsychologisch) onderzoek in ons laboratorium om meer inzicht te verkrijgen in een mogelijke onderliggende oorzaak van haar verworven spiegelschrijven.

GT is een rechtshandige, vijftigjarige vrouw, die in 2003 voor het eerst geconfronteerd werd met acute hoofdpijn, waarna ze het bewustzijn verloor. In de dagen kort na deze gebeurtenis, die zij zelf 'een aanval' noemt, ging het steeds slechter met patiënte; ze was vermoeid en kreeg problemen met praten. Uit neurologisch, psychologisch en radiologisch onderzoek kwam geen duidelijke oorzaak naar voren. Omdat hyperventilatie in de voorgeschiedenis voorkomt, werd dit als mogelijke oorzaak genoemd door de behandelend artsen. In 2005 werd patiënte voor een tweede keer overvallen door een dergelijke 'aanval'; er was sprake van krachtverlies in beide benen en GT had problemen met de aansturing van haar rechterzijde (inclusief gelaat). Ook was er sprake van dysarthrie. Na intensieve revalidatie verdwenen de klachten, maar de problemen met de aansturing van de benen bleven bestaan. In mei 2009 werd GT door een van haar dochters gevonden met een scheef gezicht en trage spraak; beide verschijnselen verdwenen na een dag. Na een paar dagen kwamen haar dochters erachter dat ze, met haar dominante rechterhand, in spiegelbeeld schreef; ze begon haar zinnen rechts op papier en de individuele letters waren gespiegeld. Ze kon vervolgens de geschreven letters niet herkennen en geen woorden lezen. Daarbij was haar handschrift veranderd (zie Figuur 1).

Radiologisch onderzoek (MR cerebraal screening) in 2009 laat een (oude) gliotische laesie in de rechterhemisfeer, juxtacorticaal frontopariëtaal (zie Figuur 2), zien. Sulci en gyri zijn passend bij de leeftijd, met normale differentiatie tussen de grijze en witte stof. Basale kernen, hersenstam, cerebellum en ventrikels zijn normaal.

Patiënte is in 2001 (moeizaam) gescheiden van haar man. Ze is met haar dochters elders gaan wonen en heeft in 2003 een nieuwe man ontmoet, met wie ze is gaan samenwonen. Na een drukke periode van een verbouwing en een langdurig herstelproces is die relatie beëindigd.

Ten tijde van het onderzoek, acht maanden na de laatste episode, is, zoals GT aangeeft, het herkennen van letters en lezen nog altijd problematisch. GT schrijft in spiegelschrift, zodra zij zich niet bewust concentreert op het schrijfproces. Indien haar gevraagd wordt iets te schrijven, gaat zij heel bewust en geconcentreerd aan de slag en weet dan van links naar rechts de juiste letters te 'tekenen'. Indien haar expliciet gevraagd wordt om in spiegelbeeld te schrijven, schrijft zij van rechts naar links maar spiegelt hierbij de individuele letters niet. Ze schrijft nog altijd met haar dominante, rechterhand.

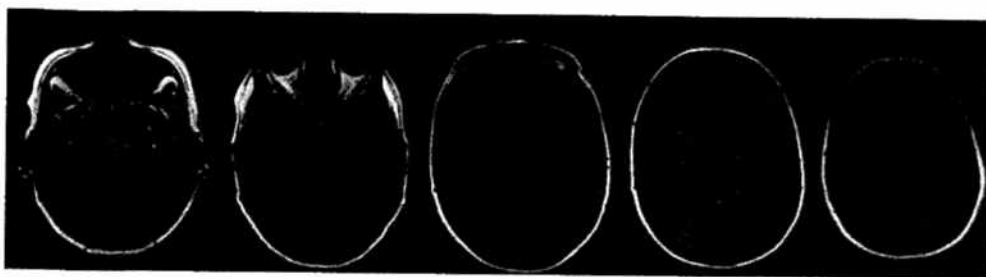


FIGUUR 1A Voorbeeld van geschreven tekst van GT voordat spiegelschrijven ontstond.

FIGUUR 1B Fragment van geschreven tekst van GT in 2009. Links staat de originele tekst; rechts de (leesbare) gespiegelde tekst. Opvallend is de verandering van het handschrift.

FIGUUR 1C Fragment van geschreven tekst na intensieve revalidatie in 2009. Op het moment dat GT dit schreef, had ze nog geen training gehad in het schrijven van cijfers. Dit verklaart waarom de cijfers nog gespiegeld worden geschreven in tegenstelling tot de letters. Duidelijk is te zien dat sommige letters nog gespiegeld geschreven worden, maar worden gecorrigeerd.

Tijdschrift voor Neuropsychologie 2011, jrg. 6, nr. 2, Casuïstiek



FIGUUR 2 MRI-scan uit 2009, met een gliotisch letsel, rechts juxtacorticaal frontopariëtaal.

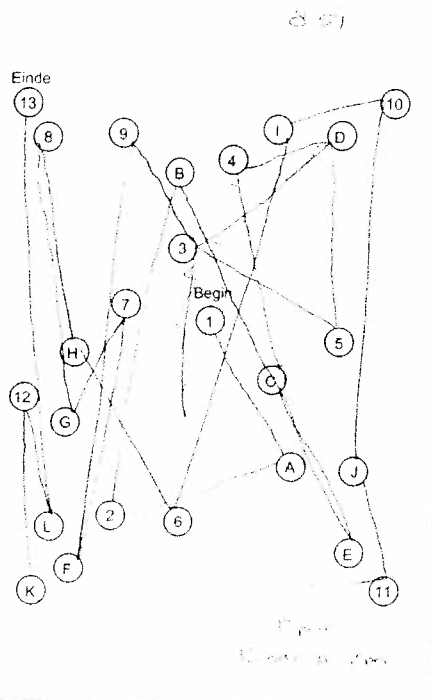
Neuropsychologisch onderzoek

De resultaten van het neuropsychologisch onderzoek zijn weergegeven in Tabel 1. Uit het neuropsychologisch onderzoek komt naar voren dat taal en werkgeheugen ongestoord zijn. Ook worden er geen aanwijzingen gevonden voor agnosie, neglect of apraxie.

Op de Trailmaking-test kostte het GT veel tijd om de juiste volgorde van cijfers (A; 228 seconden) en cijfers en letters (B; 531 seconden) te vinden. Daarbij maakte ze opmerkelijke fouten: in de A-versie draaide ze de 6 en de 9 om en in de B-versie de E en de 3 en de 6 en de 9 (zie Figuur 3). Door het niet goed herkennen van de cijfers en letters en de gemaakte fouten had patiënte te veel tijd nodig, waardoor geen uitspraak te doen is over snelheid van informatieverwerking, mentale flexibiliteit en/of executieve functies.

Er is sprake van een benedengemiddeld verbaal geheugen; informatie kan worden aangeleerd, maar wordt niet adequaat voor langere tijd vastgehouden. Ook de herkenning van verbaal materiaal blijft wat achter.

Op de Corvist (Cortical Vision Screening Test) werden wat betreft gezichtsscherpte, vorm- en grootte-discriminatie, vormdetectie, kleurperceptie en gezichtsperceptie geen afwijkingen gevonden (zie Tabel 1). Op de test waarbij gefragmenteerde nummers moesten worden geïdentificeerd tekende GT de figuren een aantal keren na, waarna zij tot een beslissing kwam. Daarbij maakte zij opvallende fouten: ze verwisselde 6 en 9 en 2 en 7. Ook bij de crowding taak, waarbij een reeks letters en cijfers moet worden opgelezen die in verschillende afstanden ten opzichte van elkaar staan, had patiënte problemen om de cijfers en letters te identificeren.



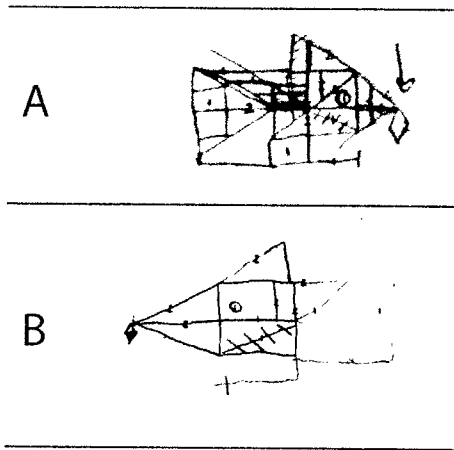
FIGUUR 3 Prestatie op de Trailmaking-test-B. Opvallend zijn de gemaakte fouten: de E en de 3 zijn omgewisseld. Dit geldt ook voor de 6 en de 9.

TABEL 1		
NEUROPSYCHOLOGISCHE TAAK	RUWE SCORE	BEWOORDING
Boston Benoemtaak	152 (percentiel 15)	Laaggemiddeld
Fonologische woordvloeiendheid	33 (percentiel 90-95)	Bovengemiddeld
Woord opnoemen	27 (percentiel 23-24)	Gemiddeld
Verkorte Tokentaak	19/21	Niet afwijkend
Cijferreeksen		
Totaal	16 (percentiel 67)	Gemiddeld
Vooruit	10	
Achteruit	6	
15-Woordentest		
Direct	3/7/7/8/10	
Direct	35 (deciel 2)	Gemiddeld/benedengemiddeld
Uitgesteld (res. score 1)	3 (deciel 1)	Benedengemiddeld/afwijkend
Herkenning	25	Afwijkend
Figuur van Rey recall	19 (percentiel > 50)	Gemiddeld
Judgment of Line Orientation		
Judgment of Line Orientation	34 (percentiel > 86)	Bovengemiddeld
Benton Facial Recognition Test		
Benton Facial Recognition Test	41 (percentiel 16-21)	Laag gemiddeld
Star cancellation		
Star cancellation	55/56	Niet afwijkend
Figuur van Rey copy		
Figuur van Rey copy	24 (percentiel < 5)	Benedengemiddeld/afwijkend
Natekenen		
Ster		Niet afwijkend
Kubus		Afwijkend ¹
Bloem		Niet afwijkend
Corvist		
Gezichtsscherpte	36/36	
Vormdiscriminatie	4/4	
Groottediscriminatie	4/4	
Vormdetectie	4/4	
Kleurperceptie	4/4	
Stippen tellen	3/4	
Gefragmenteerde cijfers	4/8	
Gezichtsperceptie	4/4	
Crowding	0/4	
Apraxietest		
Apraxietest	17/18	Niet afwijkend

De visuoperceptie en -constructie zoals gemeten met de Figuur van Rey is beneden-gemiddeld tot afwijkend, waarbij opvalt dat patiënte het overzicht niet lijkt te hebben: ze kopieert fragmentarisch en komt dan niet goed uit. Natekenen van simpelere figuren gaat echter goed. De uitgestelde herinnering van de Figuur van Rey gaat goed. Opvallend is dat de goed onthouden details in spiegelbeeld in de figuur worden geplaatst (zie Figuur 4); met andere woorden, de complete figuur wordt in spiegelbeeld getekend. Deze spiegeling

komt ook tot uitdrukking in de Location Learning Task, waarbij plaatjes op gespiegelde locaties worden geplaatst. Deze test is niet gescoord.

Tot slot is er een perimetrisch onderzoek afgenomen, waaruit naar voren kwam dat de gezichtsvelden van beide ogen niet afwijkend waren.



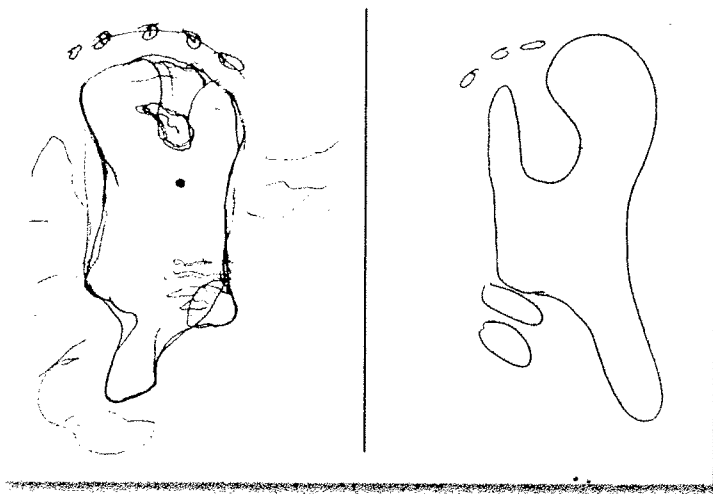
FIGUUR 4A Kopiëren van de Figuur van Rey.

FIGUUR 4B Uitgestelde herinnering van de Figuur van Rey. Opvallend zijn de details die in spiegelbeeld worden getekend.

Discussie en conclusie

Uit het neuropsychologisch onderzoek komt naar voren dat vooral de prestatie op die taken waarbij mentale representaties van visueel materiaal van cruciaal belang zijn, minder is dan zou mogen worden verwacht. Het lijkt daarbij alsof de visuele representatie niet goed in het visuele geheugen wordt opgeslagen. We hebben GT gevraagd om uit haar hoofd een schematische kaart van Nederland te tekenen (zie Figuur 5; aan de rechterkant een schets van een gezonde leeftijdsgematchte controle) en ook die tekende ze gespiegeld; zo tekende ze de provincie Limburg in het westen van Nederland en de provincie Zeeland in het oosten. De Waddeneilanden benoemde ze in omgekeerde volgorde (van links/west naar rechts/oost: Schiermonnikoog (op de locatie van Texel), Ameland, Terschelling, Vlieland, en Texel (op de locatie van Schiermonnikoog)). De volgorde van de eilanden was correct. Pas nadat GT een echte kaart van Nederland te zien kreeg, zag ze in dat haar schematische tekening niet klopte.

De visuele perceptie is relatief intact, zeker waar het gaat om basale visuele kenmerken en simpele natekentaken. Indien de visuele stimuli complexer worden, lijkt de visuele perceptie aangedaan te zijn, wellicht doordat patiënte het overzicht mist. Het visuele geheugen is echter aangedaan; hoewel visuele details kunnen worden onthouden, is de locatie van deze details gespiegeld. Interessant hierbij is de observatie dat deze gespiegelde representatie ook geldt voor taken waarbij niet geschreven hoeft te worden. Vooral het



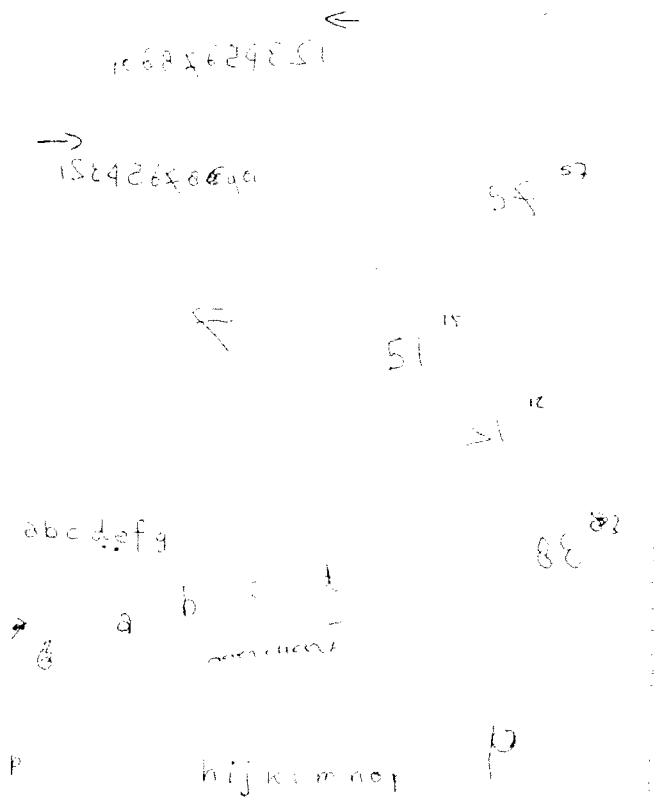
FIGUUR 5 Het tekenen van een schematische kaart van Nederland. Aan de linkerkant staat de tekening van GT, aan de rechterkant de tekening van een controle. Opvallend is de spiegeling bij de tekening van GT. GT gaf aan dat de Noordzee aan de rechterkant van de tekening lag, België in het zuiden, en Duitsland aan de linkerkant. De volgorde van de Waddeneilanden wist ze te geven, maar ook deze in spiegelbeeld.

tekenen van elementen uit het visuele geheugen is problematisch; zowel het tekenen van de uitgestelde kopie van de Figuur van Rey als een schematische kaart van Nederland gebeurt in spiegelbeeld. De mate van detail in deze gespiegelde tekeningen is echter hoog.

Verworven spiegelschrijven is een zeldzaam fenomeen, dat wordt geassocieerd met schade in de linkerpariëtaalkwab. Bij patiënte GT is geen duidelijke hersenbeschadiging te objectiveren die in verband kan worden gebracht met spiegelschrijven, herkennen van letters/cijfers, en/of visueel geheugen, waardoor er geen uitspraak over de onderliggende neurale mechanismen kan worden gedaan. Door het gebrek aan een duidelijke koppeling tussen een (corticale) laesie en spiegelschrijven kan men op de gedachte komen dat er mogelijk sprake zou kunnen zijn van conversie. Wij zijn van mening dat de kans dat deze verschijnselen ontstaan door een conversiestoornis heel klein is. In 2003 is patiënte psychiatrisch onderzocht en de psychiaters vonden haar beeld niet passend bij een conversiestoornis. Er is voor patiënte geen gewin te behalen door deze verschijnselen. Daarnaast worden verschijnselen niet erger bij conflicten of andere stressveroorzakende factoren, wat in de DSM-IV een belangrijk criterium is voor conversie.

Tevens zijn in het recente neuropsychologische profiel geen aanwijzingen gevonden voor aggraving of malingering. Indien de eenvoudige vuistregel van verschil tussen de actieve reproductie en passieve herkenning in de 15-Woordentest wordt toegepast, is de herkenning niet slechter dan mag worden verwacht; de herkenning (25 items) valt binnen het 95% betrouwbaarheidsinterval (aantal items + 20) op basis van de actieve reproductie na twintig minuten (3 items). Daarnaast is de score op Cijferreeksen gemiddeld, wat de waarschijnlijkheid van onderpresteren doet afnemen.

Opvallend is dat GT, in tegenstelling tot de bekende casusbeschrijvingen, spiegelschrijven liet zien terwijl zij met haar dominante rechterhand schreef. Een ander groot verschil is dat het bij GT om alle tekst gaat, terwijl in de literatuur vooral spiegelschrijven voor een aantal letters, woorden, of korte zinnen gerapporteerd wordt. Na intensieve revalidatie heeft GT opnieuw leren schrijven, maar dit schrijven is een cognitief proces geworden; alleen *die* letters waarmee zij intensief geoefend heeft, kan zij weer normaal schrijven. Cijfers, waarmee GT ten tijde van het onderzoek nog niet geoefend had, schreef zij dan ook nog van rechts naar links, in spiegelbeeld (zie Figuur 6). Het schrijven van de geofende letters is een traag proces waarbij fouten worden gemaakt. Het schrijven in normaal schrift kan dan ook gezien worden als een onnatuurlijke bezigheid, zoals ook duidelijk wordt door de inhoud van de tekst in Figuur 1c. Hierin geeft GT aan dat schrijven nog zeer moeizaam gaat.



FIGUUR 6 Bij het schrijven van de cijfers van 1 tot en met 10 begon GT aan de rechterzijde en schreef de individuele cijfers in spiegelbeeld. Pas nadat zij hierop gewezen werd, zag zij dat de cijfers niet goed geschreven waren. Bij een tweede poging (hierboven), waarbij zij de expliciete opdracht kreeg links te beginnen, schreef zij een groot deel van de individuele cijfers wederom in spiegelbeeld.

Recent is gesuggereerd dat spiegelschrijven eerder als een motorisch verschijnsel zou moeten worden beschouwd, dan als een cognitief fenomeen (Schott, 2007; Della Salla & Cubelli, 2007). Er zijn een aantal kenmerken in het gedrag van GT die deze verklaring tegenspreken. Ten eerste schrijft GT nog steeds met haar dominante rechterhand, waardoor haar gedrag niet verklaard kan worden door een verkeerde koppeling tussen het gewenste motorische programma dat nodig is om een letter te schrijven en de hand die daarvoor gebruikt moet worden. Ten tweede vindt een spiegeling ook plaats tijdens het herkennen van letters en cijfers. Dit wordt evident door de resultaten van de Trailmaking-test waarin onder andere de E en de 3 worden verwisseld. Tevens kan zij geschreven normale tekst niet lezen. Bij GT beperkt het spiegelschrijven zich dus niet tot het schrijven, maar betreft het ook het lezen. Aangezien lezen geen motorische activiteit is, weerlegt dit de verklaring dat spiegelschrijven bij GT een puur motorisch verschijnsel is.

Mogelijk is een verstoord visueel geheugen de onderliggende oorzaak voor spiegelschrijven. Als dit zo is, betreft dit niet een beperkte capaciteit van het visuele geheugen, zoals duidelijk wordt uit de uitgestelde Figuur van Rey, waarin de mate van detail hoog is. De vraag is nu waar de spiegeling dan precies plaatsvindt. Het lijkt uitgesloten dat dit gebeurt bij de opslag van nieuwe elementen in het visuele geheugen. Dit wordt duidelijk door de observatie dat niet alleen nieuw aangeleerde informatie wordt gespiegeld, maar ook oude informatie, zoals de schematische kaart van Nederland. Het lijkt er dus op dat de spiegeling plaatsvindt bij het opdiepen van informatie uit het visuele werkgeheugen. Deze spiegeling wordt duidelijk als GT informatie uit het visuele werkgeheugen haalt, of dit nu gebruikt moet worden om een motorisch programma te maken voor het schrijven of om objecten te herkennen.

Voor patiënte is spiegelschrijven in het dagelijks leven behoorlijk beperkend. In het dagelijks leven bestaat een groot deel van de visuele stimuli uit geschreven tekst. GT heeft grote problemen met het ontcijferen van de individuele letters en kan vaak niet onthouden welke letters ze al ontcijferd heeft. Deze specifieke problematiek zorgt voor vergaande beperking in het dagelijks leven.

Dank

We willen graag GT bedanken voor haar inzet tijdens de onderzoeken. Daarnaast dank aan Jetske Oostelbos voor het doorsturen van deze patiënte.

Literatuur

- Balfour, S., Borthwick, S., Cubelli, R. & Della Salla, S. (2007). Mirror writing and reversing single letters in stroke patients and normal elderly. *Journal of Neurology*, 254, 436-441.
- Buchwald. (1878). Spiegelschrift bei Hirnkranken. *Berliner Klinische Wochenschrift*, 5, 6-8.
- Cornell, J. (1985). Spontaneous mirror-writing in children. *Canadian Journal of Psychology*, 39, 174-179.
- Della Sala, S. & Cubelli, R. (2007). 'Directional apraxia': A unitary account of mirror writing following brain injury or as found in normal young children. *Journal of Neuropsychology*, 1, 3-26.
- Fraenkel, M. (1908). Spiegelschrift und Fehlhandlungen der linken Hand bei Rechtsgelähmten (Apraxie). *Archiv für Psychiatrie und Nervenkrankheiten*, 43, 1275-1311.
- Heilman, K.M., Howell, G., Valenstein, E. & Rothi, L. (1980). Mirror-reading and writing in association with right-left spatial disorientation. *Journal of Neurology, Neurosurgery & Psychiatry*, 43, 774-780.
- Schott, G.D. (2007) Mirror writing: Neurological reflections on an unusual phenomenon. *Journal of Neurology, Neurosurgery & Psychiatry*, 78, 5-13.
- Tashiro, K., Matsumoto, A., Hamada, T. & Moriwaka, F. (1987). The aetiology of mirror writing: A new hypothesis. *Journal of Neurology, Neurosurgery & Psychiatry*, 50, 1572-1578.