

**De voorspellende rol van negatieve gebeurtenissen en mal-
adaptieve copingstrategieën op internaliserende problematiek bij
kinderen met Klinefelter (47,XXY) en Trisomie X (47,XXX)**



**Universiteit
Leiden**

Ria van Zanten (s1923358) – Master Orthopedagogiek

Supervisie: Nikki Nibbering - n.nibbering@fsw.leidenuniv.nl

Tweede begeleider: Sophie van Rijn – srijn@fsw.leidenuniv.nl

Leiden, 24-07-2018

VOORSPELLEN INTERNALISERENDE PROBLEMATIEK AAN DE HAND VAN NEGATIEVE
GEBEURTENISSEN EN MAL-ADAPTIEVE COPING

INHOUD

Abstract	3
Introductie	4
Methode	
• Participanten	8
• Procedure	8
• Meetinstrumenten	8
• Data-analyse	9
Resultaten	
• Descriptieve analyse	11
1. Extra X-chromosoom versus controlegroep	11
2. Internaliserende problematiek	12
Discussie	13
Referenties	17

VOORSPELLEN INTERNALISERENDE PROBLEMATIEK AAN DE HAND VAN NEGATIEVE GEBEURTENISSEN EN MAL-ADAPTIEVE COPING

ABSTRACT

Research has shown that internalizing problems of typical developed children are related to the number of negative events encountered and the degree of use of mal-adaptive coping strategies. It is still unknown how internalizing problems of children with one extra X chromosome arise. In order to get more insight into the development of internalizing problems of this population, this study will focus on; firstly, the comparison with typically developed children in negative events and poorly adaptive coping. Secondly, whether there is a causal relationship between the number of negative events and the degree of use of mal adaptive coping strategies on the amount of internalizing problems in children with an extra X chromosome. In total, 62 children with one extra X chromosome and 113 non-clinical control children were included. All participants were between the age of 9 and 18. The number of events and extent of use of mal-adaptive coping strategies were measured based on the Dutch parental report questionnaire “Vragenlijst Meegemaakte Gebeurtenissen” (VMG) and the self-report instrument Cognitive Emotion Regulation Questionnaire (CERQ). The parental report showed no difference between children with an extra X chromosome and the typically developed children in the number of negative events experienced. The self-report showed a difference in the extent of the use of mal-adaptive coping strategies. Children with an extra X chromosome use significantly more mal-adaptive coping strategies than typically developing children. In addition, negative events and the extent of use of mal-adaptive coping strategies both separately and together are not significant predictors of the amount of internalizing problems with children with an extra X chromosome. These findings suggest that internalizing problems in children with an extra X chromosome arise in a different way than in typical developing children.

Keywords: Extra X chromosome, internalizing problems, negative life events, mal-adaptive coping strategies

VOORSPELLEN INTERNALISERENDE PROBLEMATIEK AAN DE HAND VAN NEGATIEVE GEBEURTENISSEN EN MAL-ADAPTIEVE COPING

INTRODUCTIE

De afgelopen eeuw is er veelvuldig onderzoek gedaan naar de genetica van de mens. Bij iedere nieuwe ontdekking valt er een puzzelstukje op zijn plaats waardoor de puzzel die we erfelijkheid noemen steeds duidelijker wordt (Gans, Van Schil, Vandenbroucke & van Weel, 2016). In 1959 werd voor het eerst onderzoek naar afwijkingen aan geslachtschromosomen bij baby's gedaan (Maclean, Harnden & Court Brown, 1961). Toentertijd lag de focus vooral op lichamelijke kenmerken als gevolg van geslachtschromosomale syndromen. Hedendaagse studies richten zich juist op de implicaties die een dergelijk geslachtschromosomale syndroom kan hebben op het dagelijks functioneren en de psychische gezondheid (Jefferson & Weingarten, 2009; van Rijn & Swaab, 2015, Cover, Langehoff & van Rijn, 2017; Bender Harmon, Linden & Robinson, 1995, Bender, Harmon, Linden, Bucher-Bartelson & Robinson, 1999; Bender, Linden & Harmon, 2001). Zo ook in de huidige studie, er wordt onderzocht in hoeverre het aantal meegemaakte negatieve gebeurtenissen en mal-adaptieve copingstrategieën invloed hebben op de hoeveelheid internaliserende problematiek bij kinderen met een extra X-chromosoom.

Typisch ontwikkelende kinderen worden geboren met 23 paren chromosomen waarvan één paar geslachtschromosomen. Een jongen heeft een X en een Y-chromosoom (46,XY) en een meisje twee keer een X-chromosoom (46,XX). Het Y-chromosoom bepaalt de seksuele differentiatie en het X-chromosoom is betrokken bij een groter en diverser repertoire aan genen (Cover et al., 2017). Verschillen in expressie en functie van geslachtschromosomen komen redelijk vaak voor (Jefferson & Weingarten, 2009). Een geslachtschromosoom afwijking wordt bij mensen een aneuploidie van de geslachtschromosomen (Sex Chromosome Aneuploidy, SCA) genoemd. Hier vallen alle mensen onder met een ongewoon aantal geslachtschromosomen (Van Rijn & Swaab, 2015). Er zijn twee groepen die met één extra X-chromosoom geboren worden, bij jongens wordt dit Klinefelter genoemd (47,XXY) en bij meisjes Trisomie X (47,XXX). Geschat wordt dat 1 op de 600 jongens geboren wordt met Klinefelter en 1 op de 1000 meisjes met Trisomie X (Cover et al., 2017). Deze kinderen hebben bij de geboorte geen opvallende uiterlijke afwijkingen waardoor het vaak niet wordt herkend door een arts met als gevolg onder-diagnose van de syndromen Klinefelter en Trisomie X (Bojesen, Juul & Gravholt, 2003). Hoewel er zowel bij Klinefelter als Trisomie X een groep is die niet of nauwelijks problemen ervaart, is er ook een groep die lichte tot ernstige mate problematiek ondervindt (Van Rijn & Swaab, 2015). Kinderen met Klinefelter kunnen afwijkingen hebben in de somatische-, cognitieve-, sociale- en gedragsontwikkeling. Zo hebben sommige kinderen een vertraagde taalontwikkeling, problemen met fijne en grove motoriek, leerproblemen, last van angst, problemen met concentratie en/of aandachts- of emotionele problemen (Cover et al., 2017). De defecten die kinderen met Trisomie X laten zien zijn vaak op het gebied van de somatische-, cognitieve- en emotionele ontwikkeling. Ze leren vaak iets later lopen, hebben problemen met het leren praten en met de verwerking van taal, hebben een zwak kortetermijngeheugen, problemen met aandacht en concentratie, last van angst en/of

VOORSPELLEN INTERNALISERENDE PROBLEMATIEK AAN DE HAND VAN NEGATIEVE GEBEURTENISSEN EN MAL-ADAPTIEVE COPING

moeite met uiten van frustraties (Cover et al., 2017). Van Rijn et al. (2014) speculeren dat jongens met Klinefelter en meisjes met Trisomie X een gedeeld sociaal fenotype hebben, dit zou toegeschreven kunnen worden aan gedeelde genetische mechanismen. Veel van de problematiek die kan voorkomen bij deze kinderen past ook bij andere stoornissen, het gebeurt dan ook regelmatig dat er een verkeerde diagnose wordt gesteld (Cover et al., 2017).

Hoewel er nog weinig bekend is over de manier hoe het hebben van één extra X-chromosoom invloed heeft op de ontwikkeling van een kind zijn er al een aantal onderzoeken bekend die (jong)volwassenen met SCA hebben onderzocht en de implicatie die het syndroom op hun leven heeft gehad. Volwassenen met SCA hebben gemiddeld een intelligentiequotiënt (IQ) dat 21 punten lager ligt dan het gemiddelde van de typisch ontwikkelende populatie (Bender et al., 1999). Bij Klinefelter ligt het IQ gemiddeld 15 punten lager dan hun broers en zussen. Bij Trisomie X is dit gemiddeld 15-20 punten lager (Cover et al., 2017). Ondanks educatieve interventies lukt het deze groep vaker dan hun broer(s) en/of zus(sen) niet om af te studeren (Bender et al., 1995). Ze hebben in totaal een derde minder kans om na de middelbare school een vervolgstudie af te ronden (Bender et al., 2001). Tevens is de psychosociale aanpassing (gemeten met GAF; Tungström, Söderberg & Armelius, 2005) bij volwassenen met SCA over het algemeen lager dan dat van hun broer(s) en/of zus(sen). Bij de vrouwen met Trisomie X is dit zelfs een significant lagere score (Bender et al., 2001). Het lijkt erop dat de broer(s) en/of zus(sen) van volwassenen met SCA die opgevoed zijn in hetzelfde gezin met grotendeels gedeelde omgevingsfactoren, een gezondere psychosociale aanpassingsstijl hebben ontwikkeld (Bender et al., 1995). Dergelijke resultaten worden eveneens teruggevonden wanneer volwassenen met SCA worden vergeleken met typisch ontwikkelende leeftijdsgenoten zonder familiäre banden. Het verschil in psychosociaal functioneren is niet te verklaren door een lager IQ (Bender et al., 1999). Bij typisch ontwikkelende kinderen zijn problemen met het psychosociaal functioneren zoals een negatief zelfbeeld, eenzaamheid, depressieve gevoelens, sociale isolatie, sociale incompetentie en verminderde acceptatie door leeftijdsgenoten significant gecorreleerd met internaliserende problemen (Hymel, Rubin, Rowden & LeMare, 1990; Junger, Mesman & Meeus, 2003).

Typische internaliserende problemen zijn sociale teruggetrokkenheid, angst, depressie en psychosomatische klachten (Hymel et al. 1990). Internaliserende problemen komen relatief vaak voor bij typisch ontwikkelende adolescenten, de prevalentie schommelt rond 20% (Van Steijn, de Winter & Reijneveld, 2014). Ook bij adolescenten met Klinefelter komen internaliserende problemen veelvuldig voor, zo is er een significant percentage dat problemen ervaart op het gebied van angst, depressie, somatische klachten en sociale terugtrekking (Tartaglia, Cordeiro, Howell, Wilson & Janusz, 2010). Kenmerken van laatstgenoemde problemen worden gelinkt aan psychiatrische stoornissen zoals depressie, angst en somatische stoornissen (Strauss, Forehand, Frame & Smith, 1984; Achenbach & McConaughy, 1992). Bij adolescenten met SCA is er een verhoogde incidentie van psychiatrische

VOORSPELLEN INTERNALISERENDE PROBLEMATIEK AAN DE HAND VAN NEGATIEVE GEBEURTENISSEN EN MAL-ADAPTIEVE COPING

stoornissen ontdekt. Depressie was de meest voorkomende psychiatrische diagnose (Bender et al., 1995).

Van typisch ontwikkelende depressieve adolescenten is bekend dat ze minder gebruik maken van effectieve emotieregulatie strategieën en dat ze er minder goed in slagen om de adaptieve strategieën die ze wel in hun repertoire hebben, te gebruiken (Garber, Braafladt & Weiss, 1995). Emotieregulatie is een proces van monitoring, evaluatie en modificatie van de emoties die worden ervaren. Het doel van emotieregulatie is om niet overweldigd te raken door de intensiteit van emoties (Gross, 1998). Wanneer de gevoelens van negatieve emoties minder goed gereguleerd kunnen worden, duurt de periode van depressieve stemming of verdriet ook langer. Bij kinderen met SCA is bekend dat ze moeite hebben met het reguleren van hun emoties (Van Rijn & Swaab, 2015; Van Rijn, Swaab, Aleman & Kahn, 2006).

Coping onderscheidt zich van emotieregulatie door de primaire focus te leggen op het verminderen van negatieve emoties (Compas et al., 2017). Skinner en Wellborn (1994) omschrijven coping als 'actie regulatie onder stress' (p. 113). Voorbeelden van copingstrategieën zijn plannen van een actie, oriënteren, vermijden, relativiseren en verwijderen van de stressoren (Skinner & Wellborn, 1994). Grofweg kunnen copingstrategieën opgedeeld worden in adaptieve en mal-adaptieve strategieën. Adaptieve strategieën worden geassocieerd met positieve uitkomsten en mal-adaptieve met negatieve. Adaptieve strategieën kunnen zorgen voor een lagere kans op psychopathologie en mal-adaptieve strategieën worden sterk geassocieerd met psychopathologie (Aldao & Nolen-Hoeksema, 2010a). Zowel internaliserende als externaliserende problemen worden bij typisch ontwikkelende kinderen gelinkt aan mal-adaptieve strategieën (Garnefski, Kraaij & van Etten, 2005). Dit verband lijkt een stuk sterker te zijn bij internaliserende problemen dan bij externaliserende problemen (Garnefski et al., 2005).

De frequentie van het meemaken van stressvolle gebeurtenissen is positief geassocieerd met internaliserende problematiek zoals depressie, angst en posttraumatische stress-stoornis (PTSS) (Cameron, Palm & Folette, 2010; Francis, Moitra, Dyck & Keller, 2012; Kessler, 1997). Wanneer er zich een stressvolle gebeurtenis voordoet zullen kinderen proberen deze situatie te veranderen of de gevolgen ervan te kunnen bevatten door middel van het gebruik van copingstrategieën (Aldao, Nolen-Hoeksema, & Schweitzer, 2010b). Het is afhankelijk van de betekenis die een persoon aan een gebeurtenis en/of situatie hangt of het als stressvol wordt ervaren (Compas, 1987). Elke gebeurtenis kan als stressvol worden ervaren (Coddington, 1972). Echter, mensen met SCA reageren soms sterker dan gemiddeld op vrij gewone gebeurtenissen (Cover et al., 2017). Zo ervaren mannen met Klinefelter verhoogde niveaus van emotionele opwinding tijdens gebeurtenissen waarin er een beroep wordt gedaan op hun sociale- en emotionele vaardigheden (Van Rijn et al., 2006). Dit zou er voor kunnen zorgen dat gebeurtenissen eerder negatief worden ervaren dan bij typisch ontwikkelende kinderen het geval is.

VOORSPELLEN INTERNALISERENDE PROBLEMATIEK AAN DE HAND VAN NEGATIEVE GEBEURTENISSEN EN MAL-ADAPTIEVE COPING

De huidige studie beoogt na te gaan of er een verband is tussen het aantal meegemaakte negatieve gebeurtenissen en de mate van gebruik van mal-adaptieve copingstrategieën op de hoeveelheid internaliserende problematiek bij kinderen met een extra X-chromosoom. Allereerst wordt er verwacht dat deze groep in vergelijking met typisch ontwikkelende kinderen meer negatieve gebeurtenissen rapporteren als gevolg van zowel afwijkingen in de somatische-, cognitieve-, sociale- en gedragsontwikkeling als de gevoeligheid voor hogere niveaus van emotionele opwinding op gewone gebeurtenissen (Cover et al., 2017; Bender et al., 1999; Bender et al., 2001; Van Rijn et al., 2006). Ten tweede wordt er verwacht dat kinderen met een extra X-chromosoom ten gevolge van problemen met emotieregulatie en psychosociaal functioneren meer gebruik maken van mal-adaptieve copingstrategieën dan typisch ontwikkelende kinderen (Van Rijn & Swaab, 2015; Van Rijn et al., 2006; Bender et al., 1995; Bender et al., 2001). Ten derde wordt er verwacht dat meer negatieve levensgebeurtenissen zorgen voor meer internaliserende problematiek bij kinderen met een extra X-chromosoom wegens de positieve associatie die er is teruggevonden bij typisch ontwikkelende kinderen (Cameron et al., 2010; Francis et al., 2012; Kessler, 1997). Er is ook een positieve associatie gevonden bij typisch ontwikkelende kinderen tussen mal-adaptieve copingstrategieën en internaliserende problematiek (Garnefski et al., 2005). Door deze relatie wordt er verwacht dat kinderen met een extra X-chromosoom die meer gebruik maken van mal-adaptieve copingstrategieën ook meer internaliserende problematiek hebben. Tot slot wordt er verwacht dat het meemaken van meer negatieve gebeurtenissen en het meer inzetten van mal-adaptieve copingstrategieën samen zorgen voor meer internaliserende problematiek bij kinderen met een extra X-chromosoom. Dit wordt verwacht omdat typisch ontwikkelende kinderen in stressvolle situaties proberen de situatie te veranderen aan de hand van copingstrategieën (Aldao et al., 2010b). Als er geen copingstrategieën aanwezig zijn die het kind meer grip op de situatie kunnen bieden, kunnen de negatieve emoties niet worden verminderd (Compas et al., 2017) waardoor een situatie eerder al negatief kan worden ervaren. Mal-adaptieve coping en negatieve gebeurtenissen zijn positief geassocieerd met internaliserende problematiek bij typisch ontwikkelende kinderen (Garnefski et al., 2005; Cameron et al., 2010; Francis et al., 2012; Kessler, 1997). De uitkomsten van dit onderzoek kunnen verwerkt worden in een model waarmee er mogelijk vroegtijdige signalering kan plaatsvinden bij kinderen met een extra X-chromosoom die meer kans hebben op het ontwikkelen internaliserende problematiek.

VOORSPELLEN INTERNALISERENDE PROBLEMATIEK AAN DE HAND VAN NEGATIEVE GEBEURTENISSEN EN MAL-ADAPTIEVE COPING

METHODE

Participanten

In de huidige studie zijn 62 kinderen met een extra X-chromosoom (36 jongens en 26 meisjes) en 113 niet-klinische controle kinderen (47 jongens en 66 meisjes) geïncludeerd. De gemiddelde leeftijd van de kinderen met een extra X-chromosoom is dertien jaar ($M=12.88$, $SD=3.03$) en van de controlegroep is de gemiddelde leeftijd twaalf jaar ($M=12.03$, $SD= 2.25$). Het inclusiecriteria was dat de leeftijd van de participanten tussen de negen en achttien jaar oud lag en Nederlands als primaire taal hadden. Recent middelenmisbruik, een neurologische conditie en een cognitieve beperking ($IQ < 60$) werden gehanteerd als exclusiecriteria. Van de groep met een extra X-chromosoom heeft 18.9 % een klinische score op de internaliserende schaal van de Childhood Behavior Checklist (CBCL). Alle kinderen in de controlegroep hebben geen klinische score (>70) op de Childhood Behavior Checklist (CBCL).

Procedure

De participanten met een extra X-chromosoom zijn op twee verschillende manieren verzameld. De eerste groep is via academische medische centra in Nederland en België gevonden. De centra zochten in hun database naar gezinnen die een prenatale diagnose Klinefelter of Trisomy X hadden gehad. De tweede groep bestond uit gezinnen die actief op zoek waren naar informatie over hun kind met een extra X-chromosoom. Deze gezinnen zijn gerekruteerd via steungroepen, oproepen voor deelnemers, via kinderartsen, psychologen, psychiaters en klinisch genetica afdelingen. De participanten van de controlegroep zijn gerekruteerd via scholen in het westelijk deel van Nederland. Ze zijn gescreend op psychopathologie met behulp van de Childhood Behavior Checklist (CBCL).

Meetinstrumenten

De Vragenlijst Meegemaakte Gebeurtenissen (VMG) is een screeningsinstrument dat vaststelt hoeveel positieve en negatieve levensgebeurtenissen er hebben plaatsgevonden in het leven van het kind. Het gaat om gebeurtenissen die in ieder leven kunnen voorkomen, voorbeelditems zijn: *'Het kind is opgenomen geweest in het ziekenhuis'*, *'Eén van de ouders is langer dan een half jaar werkloos geweest'*, *'Het kind kreeg een stiefvader of een stiefmoeder'* (Veerman, Janssen, ten Brink, van der Horst & Koedoot, 2003). De vragenlijst wordt door ouders ingevuld en heeft in totaal 24 items waar met ja (1) en nee (0) op geantwoord kan worden. Als een levensgebeurtenis heeft opgetreden wordt de ouder gevraagd wanneer dit voor het laatst is gebeurd en of het in de beleving van het kind een positieve of negatieve ervaring was (Veerman et al., 2003). Aan de hand van deze ervaringen worden er twee schalen gevormd: een schaal met positieve gebeurtenissen en een schaal negatieve gebeurtenissen. In dit onderzoek wordt er gebruik gemaakt van de schaal met negatieve gebeurtenissen. De totaalscore die wordt gebruikt in dit onderzoek wordt berekend door alle a priori negatief geachte gebeurtenissen bij elkaar op te tellen (Veerman & Ten Brink, 1993). Een hoge score representeert meer negatief geachte levensgebeurtenissen in het leven van het kind. De interne

VOORSPELLEN INTERNALISERENDE PROBLEMATIEK AAN DE HAND VAN NEGATIEVE GEBEURTENISSEN EN MAL-ADAPTIEVE COPING

consistentie van de vragenlijst is goed, de Cronbach's alfa is 0.8 (Veermeer et al., 2003). De COTAN heeft de betrouwbaarheid als onvoldoende beoordeeld vanwege coëfficiënten die te laag waren en de validiteit als voldoende (criteriumvaliditeit is nog onvoldoende omdat hier geen onderzoek naar is gedaan) (COTAN, 2017).

Het meetinstrument Cognitive Emotion Regulation Questionnaire (CERQ) is gebruikt om verschillende cognitieve copingstrategieën te meten, algemeen en naar aanleiding van een specifieke gebeurtenis (Datec, 2017). De CERQ is een zelfrapportage vragenlijst. Hij bestaat uit 36 items en gebruikt de 5-punts Likertschaal, waarbij het cijfer 1 correspondeert met het antwoord 'helemaal eens' en het cijfer 5 met 'helemaal oneens'. De CERQ bestaat uit negen schalen die allemaal 4 items hebben. De schalen zijn onder te verdelen in adaptieve en mal-adaptieve strategieën. In dit onderzoek is er gebruik gemaakt van de somscore die een kind heeft op de mal-adaptieve strategieën, hier vallen de volgende schalen onder: jezelf de schuld geven ('*Ik voel dat ik degene ben die verantwoordelijk is voor wat er is gebeurd*'), rumineren ('*Ik denk vaak na over hoe ik me voel over wat ik heb meegemaakt*'), catastroferen ('*Ik blijf maar denken aan hoe vreselijk het is wat ik heb meegemaakt*') en anderen de schuld geven ('*Ik denk aan de fouten die anderen in deze kwestie hebben gemaakt*') (Garnefski, Kraaij & Spinhoven, 2002). Als een participant 80% of meer van de items heeft ingevuld wordt de somscore meegenomen in het onderzoek. De CERQ heeft een hoge betrouwbaarheid en een goede validiteit met Cronbach's scores tussen de 0.8 en 0.9 (Garnefski & Kraaij, 2007). De criteriumvaliditeit heeft een onvoldoende gekregen van de COTAN omdat het niet duidelijk is of de verschillen significant zijn of op toeval berusten (NJI, 2017).

De Child Behavior Checklist (CBCL) is een vragenlijst die door ouders wordt ingevuld om probleemgedrag en vaardigheden van kinderen en adolescenten in kaart te brengen. Er zijn in totaal 99 items en de antwoordcategorieën gaan van 0 t/m 2, 0 = helemaal niet, 1 = een beetje of soms en 2 = duidelijk of vaak. Er zijn twee schalen: de internaliserende en externaliserende schaal. In dit onderzoek wordt gebruik gemaakt van de somscore die een kind heeft op de internaliserende schaal. Voorbeelditems zijn; '*Voelt zich waardeloos of minderwaardig*', '*Heeft het gevoel dat hij/zij perfect moet zijn*', '*Voelt zich erg schuldig*' (Verhulst, van der Ende & Koot, 1996). De somscore van een participant wordt gebruikt als er 80% of meer van de items is ingevuld. Bij een score van <70 wordt er uitgegaan van internaliserende problematiek (Tak, Bosch, Begeer & Albrechts, 2014). De schaal internaliserende problemen is betrouwbaar gebleken bij de test-hertest betrouwbaarheid ($r = 0,87$) en heeft een interne consistentie die tussen de 0.78 en 0.85 (Verhulst et al., 1996). De construct validiteit en criterium-gerelateerde validiteit zijn hoog (Verhulst et al., 1996).

Data-analyse

Alle data is geanalyseerd met behulp van IBM SPSS Statistics 23. Vooraf aan het uitvoeren van de statistische toetsen, zoals beschreven hieronder, zal gecontroleerd worden of de data voldoet aan de volgende assumpties: normale verdeling, lineariteit, homogeniteit van varianties, een interval

VOORSPELLEN INTERNALISERENDE PROBLEMATIEK AAN DE HAND VAN NEGATIEVE GEBEURTENISSEN EN MAL-ADAPTIEVE COPING

meetniveau van de responsvariabele, homoscedasticiteit, multicollineariteit en geen significante uitbijters. Schending van deze assumpties zullen worden gerapporteerd in het resultatenhoofdstuk. Voor dit onderzoek is een significantieniveau van $\alpha < .05$ gekozen en er wordt eenzijdig getoetst. Uitbijters zijn in deze studie gedefinieerd als cases welke drie standaarddeviaties of meer van het gemiddelde liggen. Na detectie worden deze per variabel nader geïnspecteerd. Om selectiebias te voorkomen worden uitbijters alleen verwijderd wanneer deze een positieve invloed hebben op de verdeling. Alle cases worden gecontroleerd op missende waarde, de missende waarden worden gecodeerd en als deze systematisch zijn worden ze uit de dataset verwijderd.

Om de hoofdvraag 'Is er een verband is tussen het aantal meegemaakte negatieve gebeurtenissen en de mate van gebruik van mal-adaptieve copingstrategieën op de hoeveelheid internaliserende problematiek bij kinderen met een extra X-chromosoom' te kunnen beantwoorden worden er vijf deelvragen getoetst. Om te kijken of kinderen met een extra X-chromosoom meer negatieve gebeurtenissen meemaken dan typisch ontwikkelende kinderen wordt er een onafhankelijke t-toets uitgevoerd. Eveneens wordt de vraag of kinderen met een extra X-chromosoom gemiddeld meer mal-adaptieve copingstrategieën gebruiken dan typisch ontwikkelende kinderen getoetst met een onafhankelijke t-toets. Vervolgens worden er enkelvoudige regressies gebruikt om te toetsen of er een verband is tussen het aantal meegemaakte negatieve gebeurtenissen en de hoeveelheid internaliserende problematiek bij kinderen met een extra X-chromosoom en of er een verband is tussen de mate van het gebruik van een mal-adaptieve copingstrategieën en de hoeveelheid internaliserende problematiek bij kinderen met een extra X-chromosoom. Tot slot wordt er met behulp van een multiple lineaire regressie getoetst of er een verband is tussen stressvolle gebeurtenissen en de mate van het gebruik van een mal-adaptieve copingstrategieën op de hoeveelheid internaliserende problematiek bij kinderen met een extra X-chromosoom.

VOORSPELLEN INTERNALISERENDE PROBLEMATIEK AAN DE HAND VAN NEGATIEVE GEBEURTENISSEN EN MAL-ADAPTIEVE COPING

RESULTATEN

Descriptieve analyses

De descriptieve analyse voor internaliserende problematiek, Vragen Meegemaakte Gebeurtenissen (VMG) negatieve gebeurtenissen en mal-adaptieve coping zijn weergegeven in Tabel 1. Om te kijken of de data aan de vooropgestelde eisen voldoet is er een data-inspectie uitgevoerd. De data-inspectie toonde enkele cases met missende waarde op één of meerdere variabelen. Echter zijn deze missende waarde geen systematische missings ($p = .719$). Aan alle assumpties van onafhankelijke t-toetsen en lineaire regressies is voldaan (normaliteit, lineariteit, homogeniteit van varianties, interval meetniveau van de responsvariabele, homoscedasticiteit, multicollineariteit en geen significante uitbijters) behalve de normaalverdeeldheid van de VMG-variabele bij zowel de extra X-chromosoom als bij de controlegroep. Er zijn bij de extra X-groep drie en bij de controlegroep twee uitbijters gedetecteerd die de verdeling scheeftrekken. De uitbijters zijn verwijderd waarna de data van de VMG-variabele bij de extra X-chromosoom en de controlegroep normaal verdeeld is.

Tabel 1 *Beschrijvende statistiek van internaliserende problematiek, VMG negatieve gebeurtenissen, en mal-adaptieve coping. Internaliserende problematiek van de controlegroep wordt niet vermeld omdat alleen kinderen onder de cut-off score geselecteerd zijn voor de controlegroep.*

	Controlegroep			Extra X-chromosoomgroep		
	<i>N</i>	<i>M</i>	<i>SD</i>	<i>N</i>	<i>M</i>	<i>SD</i>
Internaliserende problematiek	.	.	.	53	63.93	10.48
VMG negatieve gebeurtenissen	105	2.73	2.09	51	2.59	2.18
Mal-adaptieve coping	109	33.27	8.87	54	35.74	9.58

1. Extra X-chromosoom versus controlegroep

Om te toetsen of er significante verschillen zitten in het gemiddelde aantal meegemaakte negatieve gebeurtenissen en het toepassen van mal-adaptieve copingstrategieën tussen kinderen met een extra X-chromosoom en de controlegroep zijn er twee onafhankelijke t-toetsen uitgevoerd. De assumptie homogeniteit van varianties wordt gecontroleerd aan de hand van de Levene's toets.

1.1 De Levene's toets is niet significant bevonden ($F(1, 154) = .69, p = .407$) bij het aantal meegemaakte negatieve gebeurtenissen, er mag uitgegaan worden van gelijkheid van varianties. In tegenstelling tot de verwachting verschillen de extra X-chromosoomgroep ($M = 2.47; SD = 1.81$) en de controlegroep ($M = 2.59; SD = 1.86$) niet significant van elkaar in het aantal meegemaakte negatieve gebeurtenissen: $t(154) = -.381, p = .704$, vanwege het eenzijdige toetsen wordt de p-waarde gehalveerd: $p = .352$.

VOORSPELLEN INTERNALISERENDE PROBLEMATIEK AAN DE HAND VAN NEGATIEVE GEBEURTENISSEN EN MAL-ADAPTIEVE COPING

1.2 Varianties tussen de groepen is gelijk bij de variabele mal-adaptieve coping ($F(1, 161) = .29, p = .591$). Conform de verwachting verschillen de extra X-chromosoomgroep ($M = 36.24; SD = 9.59$) en de controlegroep ($M = 33.28; SD = 8.87$) significant van elkaar op mal-adaptieve copingstrategieën: $t(161) = -1.96, p = .052$, vanwege het eenzijdige toetsen wordt de p-waarde gehalveerd: $p = .026$.

2. *Internaliserende problematiek*

Allereerst is er een lineaire regressieanalyse uitgevoerd om te achterhalen of er een causale relatie bestaat tussen het aantal meegemaakte negatieve gebeurtenissen en de hoeveelheid internaliserende problematiek bij kinderen met een X-chromosomale afwijking. Vervolgens is met behulp van een lineaire regressie getoetst of de mate van gebruik van mal-adaptieve copingstrategieën de hoeveelheid internaliserende problematiek voorspelt bij deze groep kinderen. Tot slot is de bijdrage van de predictoren samen (aantal meegemaakte negatieve gebeurtenissen en hoeveelheid gebruik van mal-adaptieve copingstrategieën) in een multiële lineaire regressie onderzocht.

2.1 In tegenstelling tot de verwachting is het verband tussen het aantal meegemaakt negatieve gebeurtenissen en internaliserende problematiek niet significant bevonden ($F(1, 50) = 2.16, p = .148$). Het aantal meegemaakte negatieve levenservaring draagt niet significant bij aan het voorspellen van de hoeveelheid internaliserende problematiek bij kinderen met een extra X-chromosoom ($b^* = 0.20, t = 1.47, p = .148$).

2.2 Eveneens is het model met mal-adaptieve coping als predictor van internaliserende problematiek niet significant ($F(1, 45) = 1.79, p = .188$) en niet bruikbaar als voorspeller ($b^* = 0.16, t = 1.05, p = .299$).

2.3 In een multiële regressie is getest of stressvolle gebeurtenissen en mal-adaptieve coping samen voorspellers zijn van internaliserende problematiek bij kinderen met een extra X-chromosoom. Het model is niet significant bevonden ($F(2, 43) = 2.482, p = .096$), het aantal meegemaakte negatieve gebeurtenissen en de mate van mal-adaptieve coping kunnen samen niet de hoeveelheid internaliserende problematiek voorspellen bij de groep met een extra X-chromosoom (VMG, $b^* = 0.26, t = 1.79, p = .081$, mal-adaptieve coping, $b^* = 0.19, t = 1.30, p = .199$).

VOORSPELLEN INTERNALISERENDE PROBLEMATIEK AAN DE HAND VAN NEGATIEVE GEBEURTENISSEN EN MAL-ADAPTIEVE COPING

DISCUSSIE

De manier hoe één extra X-chromosoom van invloed is op de ontwikkeling van een kindlijkt aanzienlijk te verschillen. Er is een groep die niet of nauwelijks problemen ervaart en er is een groep die een lichte tot ernstige mate van problematiek ondervindt (Van Rijn & Swaab, 2015). Bij de groep die wel problematiek ondervindt is er een verhoogde incidentie van internaliserende problemen (Tartaglia et al., 2010), psychiatrische stoornissen (Bender et al., 1995) en een gemiddeld lagere psychosociale aanpassing dan biologische broers en/of zussen (Bender et al. 2001). Ook is het bekend dat kinderen met een extra X-chromosoom moeite hebben met het reguleren van hun emoties (Van Rijn & Swaab, 2015). Het is nog onbekend welke factoren bijdragen aan dit verschil. Er zijn tot op heden weinig studies uitgevoerd die specifiek kijken naar kinderen met één extra X-chromosoom. Waar meer onderzoek naar is gedaan is de gehele groep kinderen met een ongewoon aantal geslachtschromosomen, ook wel aneuploidie van de geslachtschromosomen (SCA) genoemd, en typisch ontwikkelende kinderen. Bij typisch ontwikkelende kinderen is er een relatie gevonden tussen het aantal negatieve levensgebeurtenissen en de mate van gebruik van mal-adaptieve coping op internaliserende problematiek.

De huidige studie beoogt de relatie tussen het aantal negatieve meegemaakte levensgebeurtenissen op de hoeveelheid internaliserende problematiek bij kinderen met één extra X-chromosoom te onderzoeken. Tevens wordt onderzocht of het gebruik van mal-adaptieve copingstrategieën een verklarende factor kan zijn voor de hoeveelheid internaliserende problematiek. Ten slotte wordt er gekeken of het aantal negatieve meegemaakte levensgebeurtenissen en het gebruik van mal-adaptieve copingstrategieën samen invloed hebben op de hoeveelheid internaliserende problematiek. Allereerst is onderzocht of de kinderen met een extra X-chromosoom in de huidige steekproef verschillen wat betreft de hoeveelheid negatieve meegemaakte levensgebeurtenissen en het gebruik van mal-adaptieve copingstrategieën in vergelijking met typisch ontwikkelende kinderen zonder chromosomale afwijkingen.

In contradictie met de verwachting is er geen significant verschil gevonden tussen kinderen met één extra X-chromosoom en typisch ontwikkelende kinderen in de hoeveelheid meegemaakte negatieve gebeurtenissen. Dit is eveneens niet in lijn met de studie van, van Rijn et al. (2006) die met behulp van zelfrapportage aantoonde dat mannen met Klinefelter meer emotionele opwinding dan gemiddeld ervaren tijdens situaties die dagelijks terugkeren, wat ervoor zou kunnen zorgen dat situaties eerder als negatief en stressvol worden bestempeld. Het is denkbaar dat er geen verschil is gevonden omdat er niet apart is gekeken naar jongens met een extra X-chromosoom (Klinefelter) en meisjes met een extra X-chromosoom (Trisomie X) terwijl de literatuur waarop de hypothese gebaseerd is enkel over jongens met Klinefelter gaat. Het verschil is mogelijk weggevalen door het samenvoegen van de twee groepen. Het is ook mogelijk dat het uitblijven van een verband te verklaren is doordat de vragenlijst door ouders en niet door kinderen zelf wordt ingevuld (Veerman &

VOORSPELLEN INTERNALISERENDE PROBLEMATIEK AAN DE HAND VAN NEGATIEVE GEBEURTENISSEN EN MAL-ADAPTIEVE COPING

Ten Brink, 1993). Omdat kinderen met een extra X-chromosoom hun emoties niet goed kunnen reguleren (Van Rijn & Swaab, 2015; Van Rijn et al., 2006) zullen ze een andere beleving van situaties hebben dan hun typisch ontwikkelde ouders die hier beter toe in staat zijn.

In overeenstemming met de gevonden literatuur is uit de huidige studie gebleken dat kinderen met een extra X-chromosoom meer gebruik maken van mal-adaptieve copingstrategieën (Van Rijn & Swaab, 2015; Bender et al., 1995; Bender et al., 2001) dan typisch ontwikkelende kinderen. Deze groep heeft problemen met emotieregulatie en psychosociaal functioneren, hierdoor hebben ze meer moeite met het plannen van een actie, oriënteren, relativiseren en het verwijderen van stressoren waardoor het ze minder lukt om negatieve emoties te verminderen.

Kinderen met een extra X-chromosoom wijken in de huidige steekproef niet af van typisch ontwikkelende kinderen wat betreft het aantal meegemaakte negatieve gebeurtenissen, wel maken ze meer gebruik van mal-adaptieve copingstrategieën. Ondanks deze wisselende uitkomsten is er onderzocht of binnen deze groep kinderen de hoeveelheid internaliserende problematiek te voorspellen is aan de hand van deze twee variabelen. Op basis van eerdere studies die zijn uitgevoerd bij typisch ontwikkelende jongeren werd er verwacht dat negatieve gebeurtenissen een voorspeller voor internaliserende problematiek konden zijn (Cameron et al., 2010; Francis et al., 1997). In tegenstelling tot de verwachting is dit verband niet teruggevonden. Bij typisch ontwikkelende kinderen worden internaliserende problemen gelinkt aan het gebruik van mal-adaptieve copingstrategieën (Garnefski et al., 2005). Hierdoor werd verwacht dat mal-adaptieve coping een predictor zou kunnen zijn voor de hoeveelheid internaliserende problematiek bij kinderen met een extra X-chromosoom. Dit onderzoek laat zien dat de mate van gebruik van mal-adaptieve copingstrategieën geen voorspeller is voor de hoeveelheid internaliserende problematiek bij kinderen met een extra X-chromosoom. Het model waar negatieve gebeurtenissen en mal-adaptieve coping samen als voorspellers voor internaliserende problematiek worden gebruikt is niet bruikbaar gebleken. Deze resultaten zijn niet consistent met eerdere studies met typisch ontwikkelende kinderen (Aldao & Nolen-Hoeksema, 2010a; Cameron et al., 2010; Francis et al., 1997; Garnefski et al., 2005). Mogelijkerwijs kan dit verschil verklaard worden door het feit dat de literatuur die is gebruikt in de huidige studie gebaseerd is op typisch ontwikkelende kinderen, niet specifiek op kinderen met één extra X-chromosoom. Het is denkbaar dat de problematiek, en de relaties hiertussen, die bekend is bij typisch ontwikkelende kinderen, niet in zijn geheel of in mindere mate aanwezig is bij de groep kinderen met Klinefelter en Trisomie X. Ook hier geldt dat er niet apart naar geslacht is gekeken terwijl de literatuur laat zien dat er wel degelijk verschillen zijn tussen jongens met Klinefelter en meisjes met Trisomie X (Cover et al., 2017). Omdat de exacte verschillen tussen deze twee groepen nog niet duidelijk zijn wordt er aangeraden om geslacht altijd mee te nemen in een onderzoek naar kinderen met één extra X.

De studie had enkele beperkingen. De controlegroep is niet gescreend op het hebben van een extra X-chromosoom. Er is sprake bij onder-diagnose bij dit syndroom en de geschatte prevalentie in

VOORSPELLEN INTERNALISERENDE PROBLEMATIEK AAN DE HAND VAN NEGATIEVE GEBEURTENISSEN EN MAL-ADAPTIEVE COPING

de algemene bevolking is bij jongens met Klinefelter 1 op de 600 en bij meisjes met Trisomie X 1 op de 1000. Mogelijk zit er een niet gediagnosticeerd kind in de controlegroep, dit kan invloed op de resultaten hebben gehad. Een andere beperking van dit onderzoek is dat het gebruik maakt van cross-sectionele data. Er kunnen geen conclusies getrokken worden over de richting van het causale verband. Een toekomstige verbetering zou zijn als er longitudinaal onderzoek wordt uitgevoerd bij deze doelgroep, zo kan er meer gezegd worden over oorzaak-gevolg relaties van de variabelen. Tot slot is de data die is gebruikt afkomstig uit zelfrapportage vragenlijsten, deels ingevuld door de primaire ouder. Dit kan zorgen voor een vertekend beeld, de onderzoeksuitkomsten kunnen een over- of onderschatting zijn van de mate van internaliserende problematiek, het aantal negatief meegemaakte gebeurtenissen en de hoeveelheid mal-adaptieve copingstrategieën die in het dagelijks leven worden toegepast.

Deze bevindingen hebben zowel klinisch als theoretisch implicaties. Het klinische belang is dat er met de huidige studie wordt geïmpliceerd dat kinderen met een extra X-chromosoom gemiddeld meer mal-adaptieve copingstrategieën gebruiken dan typisch ontwikkelende kinderen. Professionals kunnen behandelingen en interventies inzetten om deze kinderen meer adaptieve copingstrategieën aan te leren. Theoretische implicaties zijn dat er gesuggereerd kan worden dat theoretische modellen, die zijn ontworpen om internaliserende gedrag bij typisch ontwikkelende kinderen te kunnen voorspellen, niet zomaar overgenomen kunnen worden voor kinderen met een extra X-chromosoom. Het is een doelgroep die wellicht meer onderlinge verschillen kent dan van te voren gedacht werd. Van belang is dat er gezocht blijft worden naar de neurologische-, cognitieve-, sociale- en emotionele onderliggende mechanismen van deze problematiek. De relevantie van dergelijk onderzoek is dat er specifieke interventies voor deze doelgroep ontwikkeld kunnen worden gericht op de vermindering van internaliserende problematiek.

De huidige studie is ondanks zijn beperkingen een aanvulling op de bestaande literatuur. Kinderen met een extra X-chromosoom maken meer gebruik van mal-adaptieve copingstrategieën dan typisch ontwikkelende kinderen. Ze maken echter niet meer negatieve gebeurtenissen mee. Negatieve gebeurtenissen en de mate van gebruik van mal-adaptieve copingstrategieën zijn zowel apart als samen geen significante voorspellers voor de hoeveelheid internaliserende problematiek bij kinderen met een extra X-chromosoom. De resultaten van dit onderzoek zorgen voor meer inzicht. Huidige theoretische modellen die zijn ontwikkeld om internaliserend gedrag van typisch ontwikkelende kinderen te voorspellen, kunnen niet ongefundeerd overgenomen worden voor deze doelgroep. Echter rijzen er ook nieuwe vragen op. De bevindingen suggereren dat internaliserende problemen bij kinderen met een extra X-chromosoom uit andere mechanismen verklaard moeten worden dan bij typisch ontwikkelende kinderen. Het is denkbaar dat er geen eenduidige verklaring te vinden is voor de verhoogde incidentie van psychiatrische stoornissen bij deze doelgroep. In vervolgonderzoek is het van belang dat er naar andere verklarende mechanismes gekeken wordt. Belangrijk hierbij is dat het

VOORSPELLEN INTERNALISERENDE PROBLEMATIEK AAN DE HAND VAN NEGATIEVE GEBEURTENISSEN EN MAL-ADAPTIEVE COPING

een longitudinaal onderzoek betreft dat diverse vormen van dataverzameling gebruikt, zoals experimenten, expert beoordelingen en/of interviews kan hier het antwoord op zijn.

VOORSPELLEN INTERNALISERENDE PROBLEMATIEK AAN DE HAND VAN NEGATIEVE
GEBEURTENISSEN EN MAL-ADAPTIEVE COPING

REFERENTIES

- Achenbach, T. M., & McConaughy, S. H. (1992). *Taxonomy of internalizing disorders of childhood and adolescence*. Wiley: New York.
- Aldao, A., & Nolen-Hoeksema, S. (2010a). Specificity of cognitive emotion regulation strategies: A transdiagnostic examination. *Behaviour Research and Therapy* 48, 974-983
- Aldao, A., Nolen-Hoeksema, S., & Schweizer, S. (2010b). Emotion regulation strategies across psychopathology: A meta-analysis. *Clinical Psychology Review* 30, 217-237.
doi:10.1016/j.cpr.2009.11.004
- Bender, B.G., Harmon, R.J., Linden, M.G. & Robinson, A. (1995). Psychosocial Adaptation of 39 Adolescents With Sex Chromosome Abnormalities. *Pediatrics* 96, 302-8.
- Bender, B.G., Harmon, R.J., Linden, M.G., Bucher-Bartelson, B. & Robinson, A. (1999). Psychosocial Competence of Unselected Young Adults With Sex Chromosome Abnormalities. *American Journal of Medical Genetics* 88, 200-206.
- Bender, B.G., Linden, M.G. & Harmon, R.J.(2001). Life adaptation in 35 adults with sex chromosome abnormalities. *Genet Med* 3(3), 187-91.
- Bojesen, A., Juul, S. & Gravholt, C.H. (2003). Prenatal and postnatal prevalence of Klinefelter syndrome: a national registry study. *The Journal of Clinical Endocrinology and Metabolism* 88, 622-626.
- Cameron, A., Palm, K. & Follette, V. (2010). Reaction to stressful life events: what predicts symptom severity? *Journal of Anxiety Disorders* 24, 645-649.
- Coddington, R..D. (1972). Significance of life events as etiologic factors in diseases of Children II: a study of a normal population. *Journal of Psychosomatic Research* 16(3), 205-213.
- Compas, B.E. (1987). Stress and life events during childhood and adolescence. *Clinical Psychology Review* 7(3), 275-302.
- Compas, B.E., Jaser, S.S., Bettis, A.H., Watson, K.H., Gruhn, M.A., Dunbar, J.P., Williams, E. & Thigpen, J.C. (2017). Coping, Emotion Regulation, and Psychopathology in Childhood and Adolescence: A Meta-Analysis and Narrative Review. *Psychological Bulletin American Psychological Association* 143(9), 939-991.
- COTAN (2017). VRAGENLIJST MEEGEMAAKTE GEBEURTENISSEN, VMG. Geraadpleegd op 22 november 2017, <https://www.cotandocumentatie.nl/beoordelingen/b/14216/vragenlijst-meegemaakte-gebeurtenissen/>
- Cover, I.V., Langenhoff, J. & van Rijn, S. (2017). *Opgroeien met het syndroom van Klinefelter (47, XXY), Trisomie X (47, XXX) of 47, XYY*. Leiden: Universiteit Leiden.
- Datec (2017). CERQ. Geraadpleegd op 22 november 2017, <https://www.datec.nl/cerq/>

VOORSPELLEN INTERNALISERENDE PROBLEMATIEK AAN DE HAND VAN NEGATIEVE
GEBEURTENISSEN EN MAL-ADAPTIEVE COPING

- Francis, J.L., Moitra, E., Dyck, I. & Keller, M.B. (2012). The impact of stressful life events on relapse of generalized anxiety disorder. *Depression and Anxiety* 29, 386-391.
- Gans, R.O.B., Van Schil, P.E.Y., Vandenbroucke, J.P. & Van Weel, C. (2016). *Codex medicus: klinische genetica, cytogenetica*. Bohn Stafleu Van Loghum: Houten.
- Garber J., Braafladt N., & Weiss B. (1995). Affect regulation in depressed and nondepressed children and young adolescents. *Development and Psychopathology* 7(1), 93-115.
- Garnefski, N., Kraaij, V. & Spinhoven, P (2002). *Manual for the use of the Cognitive Emotion Regulation Questionnaire: A questionnaire measuring cognitive copingstrategies*. DATEC: Leiderdorp.
- Garnefski, N., Kraaij, V. & van Etten, M. (2005). Specificity of relations between adolescents' cognitive emotion regulation strategies and Internalizing and Externalizing psychopathology. *Journal of Adolescence* 28, 619-631.
- Garnefski, N. & Kraaij, V. (2007). The Cognitive Emotion Regulation Questionnaire Psychometric Features and Prospective Relationships with Depression and Anxiety in Adults. *European Journal of Psychological Assessment* 23(3), 141-149.
- Gross, J. J. (1998). The emerging field of emotion regulation: An integrative review. *Review of General Psychology* 2, 271-299. doi:10.1111/1467-8721.00152
- Hymel, S., Rubin, K.H., Rowden, L. & LeMare, L. (1990). Children's Peer Relationships: Longitudinal Prediction of Internalizing and Externalizing Problems from Middle to Late Childhood. *Child development* 61, 2004-2021.
- Jefferson, S.E. & Weingarten, C.N. (2009). *Sex Chromosomes: Genetics, Abnormalities and Disorders*. Nova Biomedical Books: New York.
- Junger, M., Mesman, J. & Meeus, W. (2003). *Psychosociale problemen bij adolescenten*. Van Gorcum: Assen.
- Kessler, R.C. (1997). The effects of stressful life events on depression. *Annual Review Psychology* 48, 191-214.
- Maclean, N., Edin, M., Harnden, D. G. & Court Brown, W. M. (1961). Abnormalities of sex chromosome constitution in newborn babies. *The lancet* 278(7199), 406-408.
- NJI (2017). Cognitive Emotion Regulation Questionnaire (CERQ). Geraadpleegd op 22 november 2017, [https://www.nji.nl/nl/Databank/Databank-Instrumenten/Cognitive-Emotion-Regulation-Questionnaire-\(CERQ\)](https://www.nji.nl/nl/Databank/Databank-Instrumenten/Cognitive-Emotion-Regulation-Questionnaire-(CERQ))
- Skinner, E. A., & Wellborn, J. G. (1994). *Coping during childhood and adolescence: A motivational perspective. Life-span development and behavior*. Lawrence Erlbaum Associates: Hillsdale.
- Strauss, C.C., Forehand, R., Frame, C. & Smith, K. (1984). Characteristics of children with extreme scores on the Children's Depression Inventory. *Journal of Clinical*

VOORSPELLEN INTERNALISERENDE PROBLEMATIEK AAN DE HAND VAN NEGATIEVE
GEBEURTENISSEN EN MAL-ADAPTIEVE COPING

and Child Psychology 13, 227-231.

- Tak, J.A., Bosch, J.D., Begeer, S & Albrechts, G. (2014). *Handboek psychodiagnostiek voor de hulpverlening aan kinderen*. De Tijdstroom: Utrecht.
- Tartaglia, N, Cordeiro, L., Howell, S., Wilson, R. & Janusz, J. (2010). The Spectrum of the Behavioral Phenotype in Boys and Adolescents 47,XXY (Klinefelter Syndrome). *Pediatric Endocrinology Reviews 8*, 151-159.
- Tungström, S., Söderberg, P. & Armelius, B. (2005). Special Section on the GAF: Relationship Between the Global Assessment of Functioning and Other DSM Axes in Routine Clinical Work. *Psychiatric services 56(4)*, 439-443.
- Van Rijn, S., Swaab, H, Aleman, A. & Kahn, R.S. (2006). X Chromosomal effects on social cognitive processing and emotion regulation: A study with Klinefelter men (47,XXY). *Schizophrenia Research 84*, 194-203
- Van Rijn, S., Stockmann, L., Borghgraef, M., Bruining, H., van Ravenswaaij-Arts, C., Govaerts, L., Hansson, K. & Swaab, H. (2014). The Social Behavioral Phenotype in Boys and Girls with an Extra X Chromosome (Klinefelter Syndrome and Trisomy X): A Comparison with Autism Spectrum Disorder. *Journal of Autism and Developmental Disorders 44(2)*, 310-320.
- Van Rijn, S. & Swaab, H. (2015). Executive dysfunction and the relation with behavioral problems in children with 47,XXY and 47,XXX. *Genes, Brain and Behavior 14*, 200-208.
- Van Steijn, L., de Winter, A.F. & Reijneveld, S.A. (2014). *Stabiliteit en verandering van Junger. Psychosociale gezondheid en leefstijl bij adolescenten en mogelijkheden voor interventies: Bouwstenen voor het Extra Contactmoment Adolescenten*. Universitair Medisch Centrum Groningen: Afdeling Gezondheidswetenschappen.
- Veerman, J.W., & Ten Brink, L.T. (1993). Het meten van de opvoedingsomgeving met de Vragenlijst Meegemaakte Gebeurtenissen: Theoretische achtergronden en onderzoeksgegevens. *Tijdschrift voor Orthopedagogiek 32*, 426-443.
- Veerman, J.W., Janssen, J., ten Brink, L.T., van der Horst, H. & Koedoot, P. (2003). Vragenlijst Meegemaakte Gebeurtenissen (VMG). Praktikon: Nijmegen.
- Verhulst, F.C., Van der Ende, J. & Koot, H.M. (1996). *Handleiding voor de CBCL/4-18*. Sophia Kinderziekenhuis Academisch Ziekenhuis Rotterdam/ Erasmus Universiteit Rotterdam: Afdeling Kinder- en jeugdpsychiatrie.