

# De Invloed van Maladaptieve Cognitieve Copingstrategieën op Sociale Angst bij Kinderen met een Extra X Chromosoom

Naam student: Jamilla Breijer

Studentnummer: 1390473

Differentiatie: Orthopedagogiek

Begeleiders: mw. N. Nibbering, MSc en mw. dr. S. van Rijn

Datum: 19-07-2018

**Inhoudsopgave**

<b>Abstract</b>	<b>3</b>
<b>Introductie</b>	<b>4</b>
<b>Methode</b>	<b>9</b>
Onderzoeksgroep	9
Procedure	9
Onderzoeksdesign	10
Meetinstrumenten	10
Sociale Angst Schaal	10
Cognitive Emotion Regulation Questionnaire	11
Data analyse/methoden	11
<b>Resultaten</b>	<b>13</b>
Data-inspectie	13
Correlaties	13
Verschillen in gebruik van maladaptieve strategieën	14
Invloed van maladaptieve strategieën op sociale angst	14
Invloed van leeftijd op maladaptieve strategieën en sociale angst	15
Moderatie leeftijd bij jezelf en anderen de schuld geven	15
Moderatie leeftijd bij rumineren	16
Moderatie leeftijd bij catastroferen	16
<b>Discussie</b>	<b>18</b>
Verschillen in gebruik van maladaptieve strategieën	18
Invloed van maladaptieve strategieën op sociale angst	19
Invloed van leeftijd op maladaptieve strategieën en sociale angst	19
Sterke en zwakke aspecten	20
Implicatie voor de praktijk	20
Aanbevolen vervolgonderzoek	21
Conclusie	21
<b>Referenties</b>	<b>22</b>

### Abstract

**Background:** Past research has provided evidence that the use of maladaptive cognitive coping strategies increases social anxiety in typically developing children and children with anxiety disorders. In comparison to typically developing children, children with an extra X chromosome show more social anxiety. The aim of the present study was to examine the influence of maladaptive cognitive coping strategies on social anxiety in children with an extra X chromosome and to determine if age is a moderator in this relationship. **Methods:** Participants included 62 children with an extra X chromosome and 113 typically developing children with ages ranging from nine to eighteen years old. The Cognitive Emotion Regulation Questionnaire (CERQ) was used to determine how often typically developing children and children with an extra X chromosome apply maladaptive cognitive coping strategies after negative events. The Social Anxiety Scale for children (SAS-k) was used to determine social anxiety symptoms in children with an extra X chromosome. **Results:** There was no significant difference in the use of maladaptive cognitive coping strategies between typically developing children and children with an extra X chromosome. However, the use of maladaptive cognitive coping strategies does result in higher levels of social anxiety in children with an extra X chromosome ( $F(4,57) = 4.32, p = .000$ ). Age is not a moderator in this relationship. **Conclusion:** The study has found indications that the use of maladaptive cognitive coping strategies results in higher social anxiety levels in children with an extra X chromosome. This finding can contribute to our understanding of social functioning in children with an extra X chromosome and enrich not only our theoretical knowledge, but our practical knowledge as well, in regards to selecting interventions for children with an extra X chromosome.

*Key words:* Klinefelter, Trisomy X, X chromosome, Social anxiety, Cognitive coping

## Introductie

De meest prevalentie chromosomale afwijking bij mensen is het hebben van een ongewoon aantal geslachtschromosomen (Van Rijn & Langenhoff, 2017). Normaal gesproken hebben mannen één X en één Y chromosoom en hebben vrouwen twee X chromosomen. Echter, naar schatting wordt 1 op 600 jongens geboren met een extra X chromosoom (47, XXY). Deze geslachtschromosoom afwijking wordt ook wel het Klinefelter syndroom genoemd. Ongeveer 1 op de 1000 meisjes wordt geboren met drie X chromosomen (47, XXX), wat Trisomie X wordt genoemd. Het hebben van een extra X chromosoom heeft gevolgen voor de fysieke, neurobiologische en psychologische ontwikkeling van kinderen (Lanfranco, Kamischke, Zitzmann & Nieschlag, 2004).

Er is enig bewijs dat kinderen met een extra X chromosoom een hoger risico hebben op sociaal disfunctioneren. Gemiddeld genomen zijn mensen met een extra X chromosoom op sociaal gebied minder vaardig dan leeftijdsgenoten (Bishop et al., 2011), wat zich onder andere uit in problemen in de sociale communicatie (Geschwind & Dykens, 2004). Kinderen en volwassenen met een extra X chromosoom laten meer verlegenheid (Ratcliffe, Butler & Jones, 1991; Tartaglia, Cordeiro, Howell, Wilson & Janusz, 2010a; Tartaglia, Howell, Sutherland, Wilson & Wilson, 2010b), meer teruggetrokkenheid (Robinson, Bender, Linden & Salbenblatt, 1989) en minder assertiviteit (Visootak & Graham, 2009) zien dan typisch ontwikkelde mensen in sociale situaties.

Meerdere studies tonen zelfs aan dat de problemen op sociaal gebied dermate ernstig zijn dat mensen met een extra X chromosoom een verhoogd risico hebben op het ontwikkelen van kenmerken die passend zijn bij een Autisme Spectrum Stoornis (ASS). Er is een significant hogere prevalentie van ASS kenmerken gevonden bij volwassen mannen met het Klinefelter syndroom ten op zichten van een niet-klinische controlegroep met behulp van het *Autism Spectrum Quotient (AQ)* meetinstrument (Van Rijn, Swaab, Aleman & Kahn, 2008).

Ook bij kinderen en jongeren is er onderzoek gedaan naar het verband tussen het hebben van een extra X chromosoom en het vertonen van ASS kenmerken. Tartaglia en collega's (2010a) hebben in hun onderzoek gebruikgemaakt van de *Social Responsiveness Scale (SRS)*, een screeningsinstrument dat de ernst van autistische symptomen meet, om ASS kenmerken in kaart te brengen bij jongens van zes tot 21 jaar met het Klinefelter syndroom. Bij 25% van deze jongens varieert de ernst van hun autistische symptomen van mild en matig tot ernstig. In de onderzoeksgroep van kinderen met een extra X chromosoom in de leeftijd van vier tot zestien jaar vonden Bishop en collega's (2011) dat twee van de negentien jongens met een extra X chromosoom voorafgaand aan het onderzoek een ASS diagnose hadden gekregen. De beperkingen die de meisjes met Trisomie X uit hetzelfde onderzoek vertoonden in hun communicatieve vaardigheden waren ook passend bij een ASS beeld. Dergelijke resultaten suggereren een mogelijke associatie tussen de sociale ontwikkeling van kinderen met een extra X chromosoom en kinderen met ASS.

Het onderzoek van Van Rijn en collega's (2014b) heeft echter aanwijzingen gevonden dat de sociale ontwikkeling van kinderen met een extra X chromosoom afwijkt van kinderen met ASS.

Kinderen met een extra X chromosoom vertonen, namelijk meer sociale angst dan typisch ontwikkelende kinderen en kinderen met ASS op de subschalen van de Sociale Angst Schaal voor kinderen (SAS-k), waarin situaties worden geschetst die een beroep doen op sociale vaardigheden, fysieke vaardigheden, intellectuele vaardigheden, uiterlijk en sociale wenselijkheid. Sociale angst komt voort uit de angst om belachelijk gemaakt, bekeken, of vernederd te worden of in verlegenheid te worden gebracht in sociale situaties (Dieleman & Dierckx, 2014). Kinderen met sociale angst kunnen structureel sociale situaties vermijden door hun angst. Gesuggereerd is dat kinderen met een extra X chromosoom meer sociale angst laten zien dan kinderen met ASS, omdat zij beter in staat zijn om te reflecteren op en na te denken over hun sociale functioneren (Van Rijn et al., 2014b). Dit vermogen zou kinderen met een extra X chromosoom kwetsbaarder kunnen maken voor het ontwikkelen van sociale angst.

Het hebben van negatieve sociale leerervaring kan iemand ook kwetsbaarder maken voor het ontwikkelen van sociale angst (Rapee & Heimberg, 1997). Mensen met een extra X chromosoom hebben vaak moeite met het inschatten van wat anderen van hen verwachten in een sociale situatie. Daarnaast is aangetoond dat volwassen mannen met het Klinefelter syndroom een significant hogere fysiologische reactie hebben bij het zien van emotionele video's dan mannen uit een niet-klinische controlegroep (Van Rijn, Barendse, van Goozen & Swaab, 2014a). De verhoogde fysiologische reactie en het met moeite kunnen inschatten van sociale verwachtingen kunnen als gevolg hebben dat mensen met een extra X chromosoom minder in staat zijn om adequate reacties te geven op het gedrag van anderen in een sociale situatie. Het niet adequaat kunnen reageren op anderen kan leiden tot negatieve sociale leerervaringen, wat angst en het vermijden van sociale situaties kan oproepen (Rapee & Heimberg, 1997).

Er is een verband tussen het hebben van negatieve sociale leerervaringen en het vertonen van meer sociale angst symptomen (Rapee & Heimberg, 1997). Echter, het inzetten van maladaptieve cognitieve copingstrategieën na een gebeurtenis die als stressvol wordt ervaren, wordt eveneens geassocieerd met het vertonen van meer sociale angst symptomen. Cognitieve copingstrategieën zijn de cognitieve reacties die mensen inzetten om stress te reguleren. Deze cognities komen voort uit de gedachten die kinderen en jongeren hebben over zichzelf, over anderen en over hun gevoelens (Garnefski, Rieffe, Jellesma, Terwogt & Kraaij, 2007). Het inzetten van cognitieve copingstrategieën om stress te reduceren is leeftijdsafhankelijk en neemt toe met leeftijd. In het omgaan met stressoren van buitenaf maken kinderen, namelijk een ontwikkeling door in wat voor strategieën zij gebruiken om informatie die emoties oproept te verwerken (Aldwin, 1994). In het begin van hun ontwikkeling gebruiken kinderen vaak externe en op gedrag gerichte copingstrategieën. In de adolescentie ontwikkelen kinderen complexere reflectieve vaardigheden, waardoor zij in staat zijn meer interne en cognitief gerichte copingstrategieën toe te passen (Steinberg, 1999).

Het reguleren van stress door het gebruik van cognitieve copingstrategieën is universeel, maar de strategieën die worden toegepast kunnen variëren per individu. Garnefski, Kraaij & Spinhoven

(2001) onderscheiden negen cognitieve copingstrategieën die jongeren en volwassenen gebruiken na een negatieve of stressvolle gebeurtenis. Deze negen cognitieve copingstrategieën zijn onder te verdelen in vijf adaptieve strategieën (accepteren, concentreren op positieve zaken, concentreren op planning, positief herinterpreteren en relativieren) en vier maladaptieve strategieën (jezelf de schuld geven, anderen de schuld geven, rumineren en catastroferen).

De vier maladaptieve cognitieve copingstrategieën zijn onderzocht in verband met sociale angst symptomen in verschillende populaties. De maladaptieve cognitieve copingstrategieën jezelf de schuld geven, catastroferen en rumineren zijn in verband gebracht met het hebben van zorgen en angst bij kinderen van negen tot elf jaar oud uit een niet-klinische populatie (Garnefski et al., 2007). Bij adolescenten van dertien tot en met zestien uit een niet-klinische populatie is er een relatie gevonden tussen de cognitieve copingstrategieën catastroferen en anderen de schuld geven aan de ene kant en sociale angst symptomen aan de andere kant (Garnefski & Kraaij, 2016). Verder is in een onderzoek met studenten uit een niet-klinische populatie gevonden dat participanten met een hoge sociale angst eerder geneigd waren om te de strategie rumineren te gebruiken dan participanten met een lage sociale angst (Kocovski, Endler, Rector & Flett, 2005). Ook waren participanten met een hoge sociale angst minder geneigd om afleiding te zoeken als reactie op stressoren in sociale situaties. Bovendien hadden sociaal angstige participanten meer gedachten die zich richtten op de negatieve aspecten van situaties dan de participanten met een lage sociale angst (Kocovski, Endler, Rector & Flett, 2005). In een vergelijking van adolescenten met een angststoornis met een niet-klinische controlegroep kwam naar voren dat adolescenten met een angststoornis significant vaker aangaven de maladaptieve cognitieve copingstrategieën jezelf de schuld geven, anderen de schuld geven, catastroferen en rumineren te gebruiken dan de adolescenten uit de niet-klinische controlegroep (Legerstee, Garnefski, Verhulst, & Utens, 2011). De strategieën jezelf de schuld geven, catastroferen en rumineren waren de voornaamste verklaring voor het verschil in angst tussen de groepen.

Er is eveneens een beschermende cognitieve copingstrategie gevonden voor het ontwikkelen en in stand houden van (sociale) angst. Er is enig bewijs dat er een negatieve relatie bestaat tussen de cognitieve adaptieve copingstrategie concentreren op positieve zaken en het hebben van angst en zorgen bij niet-klinische kinderen (Garnefski et al, 2007). Deze negatieve relatie suggereert dat het concentreren op positieve zaken een adequate cognitieve copingstrategie zou kunnen zijn om angst en zorgen te voorkomen of te verminderen (Garnefski et al, 2007).

Recent onderzoek heeft aangetoond dat kinderen met een X chromosomale afwijking een verhoogde mate van sociale angst symptomen vertonen in vergelijking met kinderen met ASS en kinderen uit een niet-klinische controlegroep (Van Rijn et al, 2014b). Deze kinderen laten meer moeilijkheden zien met sociaal functioneren dan niet-klinische kinderen, waardoor zij mogelijk meer negatieve sociale leerervaringen en stress opdoen in sociaal contact (Rapee & Heimberg, 1997; Van Rijn et al, 2014a). Een mogelijke verklaring voor de verhoogde mate van sociale angst bij kinderen met een extra X chromosoom ten opzichten van kinderen met ASS kan zijn dat deze kinderen beter in

staat zijn om te reflecteren op en na te denken over hun sociale functioneren. Het gebruik van maladaptieve cognitieve copingstrategieën zou een potentieel verklaringsmechanisme kunnen zijn voor deze verhoogde sociale angst in kinderen met een extra X chromosoom. Hoewel vele studies de relatie tussen sociale angst en maladaptieve cognitieve copingstrategieën hebben aangetoond (Garnefski et al., 2007; Legerstee, Garnefski, Verhulst, & Utens, 2011; Garnefski & Kraaij, 2016; Kocovski, Endler, Rector & Flett, 2005), is er weinig bekend over dit verband in kinderen met een extra X chromosoom. Het is van belang meer kennis te verkrijgen over de factoren die bijdragen aan de ontwikkeling en instandhouding van sociale angst in kinderen met een extra X chromosoom, omdat met deze informatie de juiste selectie van interventies kan worden gemaakt om sociale angst in deze groep te voorkomen of te verminderen. De huidige studie beoogt te onderzoeken in hoeverre kinderen met een extra X chromosoom gebruik maken van maladaptieve cognitieve copingstrategieën, of er een verband is tussen het gebruik van maladaptieve cognitieve copingstrategieën en sociale angst bij kinderen met een extra X chromosoom en of leeftijd van invloed is op deze relatie.

Ten eerste wordt er gekeken of de vier maladaptieve cognitieve coping strategieën: jezelf de schuld geven, anderen de schuld geven, rumineren en catastroferen gemiddeld genomen vaker voorkomen bij kinderen met een extra X chromosoom dan bij kinderen uit de controlegroep. Kinderen uit de extra X chromosoom groep hebben door hun afwijkende sociale ontwikkeling mogelijk minder sociale ervaringen opgedaan en de ervaringen die zij hebben opgedaan zullen vaker negatief van aard zijn door hun beperkte sociale vaardigheden (Bishop et al., 2011; Visootak & Graham, 2009; Tartaglia, Cordeiro, Howell, Wilson & Janusz, 2010a; Tartaglia, Howell, Sutherland, Wilson & Wilson, 2010b; Van Rijn et al, 2014a). Hierdoor zijn zij mogelijk minder in staat om op een adaptieve manier cognitieve emotieregulatie toe te passen na een stressvolle gebeurtenis. Verwacht wordt dat kinderen met een extra X chromosoom hierdoor de vier maladaptieve cognitieve copingstrategieën significant vaker zullen gebruiken dan typisch ontwikkelende kinderen.

Ten tweede wordt binnen de groep kinderen met een extra X chromosoom nagegaan of er een verband is tussen de vier maladaptieve cognitieve copingstrategieën en de ernst van de sociale angst symptomen. In recent onderzoek is het verband tussen het gebruik van maladaptieve cognitieve copingstrategieën en het vertonen van sociale angst aangetoond (Garnefski et al., 2007; Legerstee, Garnefski, Verhulst, & Utens, 2011; Garnefski & Kraaij, 2016; Kocovski, Endler, Rector & Flett, 2005). Uitgaand van de suggestie van Van Rijn en collega's (2014b) zullen kinderen met een extra X chromosoom beter in staat zijn om te reflecteren op hun sociaal functioneren dan kinderen met ASS. De inhoud van deze reflecties na een stressvolle gebeurtenis zijn mogelijk eerder negatief dan positief van aard, omdat kinderen met een extra X chromosoom vaak sociaal minder vaardig zijn dan leeftijdsgenoten. Daarom is de verwachting dat het gebruiken van de maladaptieve cognitieve copingstrategieën resulteert in een verhoogde mate aan sociale angst symptomen bij kinderen met een extra X chromosoom

Ten derde wordt er gekeken naar de invloed van leeftijd op de relatie tussen de maladaptieve cognitieve copingstrategieën en sociale angst. In voorgaand onderzoek is aangetoond dat welke cognitieve copingstrategieën een kind of jongere inzet van invloed kan zijn op de mate waarin een kind sociale angst symptomen vertoont (Garnefski et al., 2007; Legerstee, Garnefski, Verhulst, & Utens, 2011; Garnefski & Kraaij, 2016; Kocovski, Endler, Rector & Flett, 2005). Naarmate kinderen ouder worden, neemt het gebruik van cognitieve copingstrategieën echter toe (Aldwin, 1994; Steinberg, 1999). Hierdoor zou het kunnen zijn dat sociale angst symptomen vaker voorkomen bij adolescenten dan bij jonge kinderen. De verwachting is dat leeftijd van invloed is op de relatie tussen de vier maladaptieve cognitieve copingstrategieën en sociale angstsymptomen bij kinderen met een extra X chromosoom, waarbij sociale angst symptomen zullen toenemen naarmate de leeftijden van de kinderen stijgen.

## Methode

### Onderzoeksgroep

In totaal bestond de onderzoeksgroep uit 175 participanten met een leeftijd van negen tot achttien jaar oud. Hiervan hadden 62 kinderen een extra X-chromosoom, waarvan 36 jongens met het Klinefelter syndroom en 26 meisjes met Trisomie X. Geïnccludeerd in de controlegroep waren 113 typisch ontwikkelde kinderen, waarvan 47 jongens en 66 meisjes. In Tabel 1 is een overzicht van de gemiddelde leeftijden van alle kinderen uit de onderzoeksgroep weergegeven.

Tabel 1

*Overzicht van de gemiddelde leeftijden van alle kinderen bij aanvang van het onderzoek*

	Kinderen met een extra X chromosoom		Typisch ontwikkelende kinderen	
	Jongens	Meisjes	Jongens	Meisjes
<i>M</i> (leeftijd in jaren)	13.8	11.6	12.3	11.7
<i>SD</i> (leeftijd in jaren)	3.0	2.5	2.8	2.5

Het Klinefelter syndroom en Trisomie X is gediagnosticeerd door het karyotype (afbeelding van de chromosomen) te bestuderen. Geen van de participanten had mozaïekvormen (cellijnen die verschillen in het aantal geslachtschromosomen). 28.1% van de jongens met Klinefelter syndroom gebruikte testosteron supplementen. Het grootste deel van de vaders van de participanten had de middelbare school (34.8%) of een vervolgopleiding (34.3%) afgerond. De moeders van de participanten hebben ook veelal tenminste de middelbare school afgerond (34.3%) en 37.3% heeft een vervolgopleiding afgerond.

Alle participanten van het onderzoek moesten aan de volgende inclusiecriteria voldoen: Nederlands moest hun eerste taal zijn en zij moesten een leeftijd hebben van negen tot achttien jaar. Exclusiecriteria voor deelname waren recent middelenmisbruik, een verstandelijke beperking (een IQ lager dan 60) of neurologische aandoeningen, waaronder hersenbeschadiging veroorzaakt door prenatale of geboortecomplicaties, traumatisch hoofdletsel met verlies van bewustzijn, tumoren en beroertes, infecties, ziektes of syndromen die het centrale zenuwstelsel hebben aangetast.

### Procedure

De data die is gebruikt in het huidige onderzoek is onderdeel van de database van de TRIXY studie. De groep kinderen met een extra X chromosoom zijn op verschillende manieren geworven: Vanuit een medische database, ondersteuningsgroepen, algemene oproepen voor participanten en via psychologen, psychiaters en kinderartsen. Een deel van de participanten is via de database van

academische medische afdelingen in Nederland en België gerekruteerd. Deze participanten kwamen voort uit families die voor de geboorte al op de hoogte waren van het extra X chromosoom van hun kind en die na de geboorte gevolgd zijn. De overige participanten kwamen voort uit families die actief op zoek waren naar meer informatie over de gesteldheid van hun kind met een extra X chromosoom of hulp zochten voor de problemen die hun kind ervaarde in de ontwikkeling. Deze participanten zijn gerekruteerd vanuit ondersteuningsgroepen, via algemene oproepen voor participanten en via psychologen, psychiaters en kinderartsen.

De controlegroep kwam uit een niet-klinische populatie en is geworven bij scholen in het westen van Nederland. Met behulp van de Child Behavior Checklist (CBCL) is psychopathologie in de controlegroep uitgesloten; geen van de participanten in de controlegroep scoorde in het klinische gebied op de subschalen van de CBCL (Achenbach & Rescorla, 2001). Ouders van alle deelnemende kinderen hebben een volledige beschrijving van het onderzoek gekregen. Hierna is er schriftelijke toestemming gevraagd en verkregen van alle ouders voor deelname aan het onderzoek.

### **Onderzoeksdesign**

Het onderzoek was kwantitatief en cross-sectioneel van aard (Leary, 2012). Het onderzoek kan beschreven worden als kwantitatief, omdat er aan de hand van vragenlijsten kwantificeerbare en numerieke gegevens zijn verzameld. Het onderzoek kan beschreven worden als cross-sectioneel, omdat deze gegevens verzameld werden op één moment met als hoofddoel te bepalen of het gebruik van maladaptieve cognitieve copingstrategieën resulteert in sociale angst bij kinderen met een extra X chromosoom.

### **Meetinstrumenten**

*Sociale Angstschaal voor kinderen.* Sociale angst is gemeten met de Sociale Angst Schaal voor kinderen (SAS-k). Deze zelfrapportagevragenlijst kan gebruikt worden bij kinderen van negen tot en met twaalf jaar. De SAS-k is opgebouwd uit vijf subschalen, die de cognitieve en affectieve angstreacties van kinderen meten in of voor sociale situaties, waarin sociale vaardigheden, intellectuele vaardigheden, fysieke vaardigheden, het innemen van een uitzonderingspositie en uiterlijk een rol spelen (Dekking, 1983). De SAS-k heeft 46 items met twee antwoordmogelijkheden; één waarin sociale angst wordt bevestigd en één waarin sociale angst wordt ontkracht. Een voorbeeld van een item is: 'Ik voel me verlegen als iedereen op mij let' (Dekking, 1983). Daarnaast wordt de neiging om sociaal wenselijk te antwoorden van een kind gemeten in een zesde subschaal met tien aparte items. Hiermee komt het totaal aantal items van de SAS-k op 56 items. Binnen het huidige onderzoek zal er gebruik worden gemaakt van de totaalscore op sociale angst. Deze totaalscore is een cumulatieve score van de subschalen. Een hogere totaalscore representeert meer sociale angst. De betrouwbaarheid van de SAS-k kan beschreven worden als zeer goed; de schaal heeft een interne consistentie van 0.90 (Dekking, 1983). De validiteit van de schaal is naar behoren (Evers, Van Vliet-Mulder & Ter Laak, 1992).

**Cognitive Emotion Regulation Questionnaire.** De maladaptieve cognitieve copingstrategieën zijn gemeten met de Cognitive Emotion Regulation Questionnaire (CERQ) (Garnefski, Kraaij & Spinhoven, 2002). Aan de hand van deze zelfrapportagevragenlijst kan worden gemeten wat kinderen vanaf twaalf jaar en volwassenen denken na het meemaken van negatieve of traumatische levensgebeurtenissen. De CERQ kent in totaal negen cognitieve copingstrategieën. Er kan een onderscheid gemaakt worden tussen de vijf adaptieve cognitieve copingstrategieën (accepteren, concentreren op positieve zaken, concentreren op planning en positief herinterpreteren) en de vier maladaptieve cognitieve copingstrategieën (jezelf de schuld geven, anderen de schuld geven, rumineren en catastroferen) (Garnefski, Kraaij & Spinhoven, 2002).

De vragenlijst heeft 36 items verdeeld over de negen strategieën (vier items per strategie). De participanten hebben de vragen beantwoord op een vijfpuntschaal. Hierin moesten zij aangeven in hoeverre zij de stellingen passend vonden bij hun eigen gedrag met antwoordmogelijkheden variërend van (bijna) nooit tot (bijna) altijd. Een voorbeeld van een stelling is: 'Ik denk er telkens aan hoe vreselijk de situatie is geweest' (Garnefski, Kraaij & Spinhoven, 2002). Een hoge score op een subschaal betekent dat de bijbehorende strategie vaak wordt toegepast door een participant na het meemaken van een negatieve gebeurtenis. Hoewel de volledige vragenlijst is afgenomen bij de participanten is alleen gebruikgemaakt van de maladaptieve schalen voor de huidige studie. Over het algemeen kan gesteld worden dat de betrouwbaarheid van de CERQ goed is; de meeste schalen hebben een interne consistentie van meer dan 0.70 en sommige zelfs meer dan 0.80 (Garnefski, Kraaij & Spinhoven, 2002). De construct validiteit van dit instrument is als voldoende beoordeeld door de COTAN (2002).

### **Data analyse/methoden**

Alle data is geanalyseerd met behulp van SPSS versie 24.0. Voorafgaand aan het uitvoeren van de statistische toetsen is gecontroleerd of de data voldeed aan de assumpties: normaliteit, lineairiteit, gelijkheid van varianties en normaliteit van de residuen (Moore, McCabe, & Craig, 2011). Schendingen van deze assumpties zijn gerapporteerd. Daarnaast zijn de data geïnspecteerd op missende waarden en uitbijters. Bij missende waarden is met behulp van de Missende Waarden Analyse (MVA) een gemiddelde als vervangende waarde toegekend en significante uitbijters zijn verwijderd. Een uitbijter is significant als deze drie standaarddeviaties of meer afwijkt van het gemiddelde.

Om statistisch te toetsen of er een verschil is tussen kinderen met een extra X chromosoom en kinderen in de controlegroep, wat betreft de mate waarin zij de vier maladaptieve cognitieve copingstrategieën gebruiken, is een multivariate analysis of variance (MANOVA) uitgevoerd. De onafhankelijke variabele is de groep waartoe een kind behoort. Deze variabele is categorisch en bestaat uit twee niveaus, namelijk niet-klinisch (controle) en een extra X chromosoom. De afhankelijke variabelen zijn de scores op de subschalen jezelf de schuld geven, anderen de schuld geven, rumineren en catastroferen van de CERQ. Al deze variabelen zijn numeriek.

Met behulp van een multiële regressie analyse is getoetst of er een relatie is tussen de vier maladaptieve cognitieve copingstrategieën en sociale angst bij kinderen met een extra X chromosoom. De onafhankelijke variabelen zijn de scores op de subschalen jezelf de schuld geven, anderen de schuld geven, rumineren en catastroferen van de CERQ. De afhankelijke variabele is de totaalscore van sociale angst op de SAS-k. Alle variabelen in deze analyse zijn numeriek.

Om statistisch te toetsen of de leeftijd van het kind van invloed is op de relatie tussen de vier maladaptieve cognitieve copingstrategieën en sociale angst bij kinderen met een extra X chromosoom zijn er per maladaptieve cognitieve copingstrategie (4) multiële regressie analyses met moderatie analyses uitgevoerd. De onafhankelijke variabelen zijn de scores op de subschalen jezelf de schuld geven, anderen de schuld geven, rumineren en catastroferen van de CERQ en de leeftijd van het kind. De afhankelijke variabele is de totaalscore van sociale angst op de SAS-k. Alle variabelen in deze analyse zijn numeriek.

## Resultaten

### Data-inspectie

Er is een data-inspectie uitgevoerd om na te gaan of de data aan de assumpties van de analyse methoden voldoen. Leeftijd, de totaalscore van sociale angst en drie uit de vier maladaptieve cognitieve copingstrategieën (jezelf de schuld geven, catastroferen en anderen de schuld geven) bleken niet normaal verdeeld. Uitbijters zijn niet verantwoordelijk voor de scheefheid in de verdeling. Er is gekozen om logtransformaties toe te passen op deze vijf variabelen, waarna deze met uitzondering van leeftijd bij benadering normaal verdeeld waren. In totaal waren er zestien cases met missende waarde op één of meerdere variabelen. De CERQ is door twaalf participanten niet ingevuld en veertien participanten hadden geen totaalscore van sociale angst. Daarnaast ontbrak de leeftijd van één participant. Al deze missende waarden zijn vervangen door de gemiddelde score van de desbetreffende variabele met behulp van de Missende Waarden Analyse (MVA). De assumpties van de analysemethoden zijn getoetst. De variabele leeftijd is niet normaal verdeeld en heeft slechts een zwak lineaire verband met de variabele sociale angst. Hier is tijdens de interpretatie van de resultaten rekening mee gehouden. Verder zijn er geen schendingen van de assumpties gevonden. In Tabel 2 is een overzicht van de beschrijvende statistieken van de variabelen weergegeven.

Tabel 2

#### *Beschrijvende statistieken van de variabelen*

Variabele	<i>N</i>	<i>M</i>	<i>SD</i>	<i>Min.</i>	<i>Max.</i>	<i>zSkewness</i>	<i>zKurtosis</i>
Leeftijd	175	1.08	0.10	0.87	1.30	3.08	-1.62
Jezelf de schuld geven	175	0.93	0.14	0.48	1.26	-1.86	0.79
Rumineren	175	10.21	3.79	4.00	19.00	1.38	-1.81
Catastroferen	175	0.87	0.16	0.48	1.28	0.83	-1.11
Anderen de schuld geven	175	0.82	0.16	0.48	1.23	1.01	-1.84
Sociale Angst	175	0.76	0.42	0.00	1.58	-1.57	-2.11

\* *Opmerking: Alle variabelen zijn getransformeerd behalve 'Rumineren'.*

### Correlaties

Om de samenhang tussen leeftijd, sociale angst en de maladaptieve cognitieve copingstrategieën: jezelf de schuld geven, rumineren, catastroferen en anderen de schuld geven te onderzoeken binnen de extra X chromosoom groep is er een correlatieanalyse uitgevoerd. In Tabel 3 worden de correlatie coëfficiënten (*r*) van de verbanden tussen de variabelen weergegeven. Een positieve significante correlatie tussen twee variabelen geeft aan dat kinderen met een extra X chromosoom die hoog scoren op de ene variabele ook hoog scoren op de andere variabele. Binnen de

copingstrategieën is er een positief significant verband gevonden tussen: catastroferen en jezelf de schuld geven, anderen de schuld geven en jezelf de schuld geven, rumineren en jezelf de schuld geven, anderen de schuld geven en catastroferen en rumineren en catastroferen. Daarnaast is er een significant positief verband tussen catastroferen en sociale angst en tussen rumineren en sociale angst.

Tabel 3

*Correlaties tussen de variabelen binnen de groep met een extra X chromosoom*

Variabele	Leeftijd	Jezelf de schuld geven	Catastroferen	Anderen de schuld geven	Rumineren	Sociale angst
Leeftijd	-	-	-	-	-	-
Jezelf de schuld geven	.01	-	-	-	-	-
Catastroferen	.00	.33*	-	-	-	-
Anderen de schuld geven	.19	.38*	.50*	-	-	-
Rumineren	.10	.38*	.50*	.21	-	-
Sociale angst	-.10	.19	.45*	.15	.36*	-

\*Correlatie is significant bij  $p < .01$

### **Verschillen in het gebruik van maladaptieve cognitieve copingstrategieën**

Om de hypothese te toetsen dat kinderen met een extra X chromosoom vaker maladaptieve cognitieve copingstrategieën gebruiken dan typisch ontwikkelende kinderen is er een multivariate analysis of variance (MANOVA) uitgevoerd. Tegen de verwachting in is er geen significant verschil gevonden tussen de klinische en de typisch ontwikkelende groep in het gebruik van maladaptieve cognitieve copingstrategieën; Wilk's Lambda = 0.97,  $F(4,170) = 1.36$ ,  $p = .249$ . Kinderen met een extra X chromosoom gebruiken niet vaker maladaptieve cognitieve copingstrategieën dan typisch ontwikkelende kinderen.

### **De invloed van maladaptieve cognitieve copingstrategieën op sociale angst**

Om de hypothese te toetsen dat het gebruiken van maladaptieve cognitieve copingstrategieën resulteert in een verhoogde mate aan sociale angst symptomen bij kinderen met een extra X chromosoom is een multiële regressie analyse uitgevoerd. In overeenstemming met de verwachting is het regressiemodel significant,  $F(4,57) = 4.32$ ,  $p = .000$ . Hierdoor kan het regressiemodel gebruikt worden om sociale angst bij kinderen met een extra X chromosoom te voorspellen ook al is de verklaarde variantie matig ( $R^2 = .23$ ).

Er is sprake van een significante en positieve samenhang tussen de maladaptieve cognitieve copingstrategie catastroferen en sociale angst ( $\beta = .41$ ,  $t = 2.70$ ,  $p = .009$ ) bij kinderen met een extra X chromosoom. In Tabel 4 is te zien dat de strategieën rumineren ( $\beta = .17$ ,  $t = 1.18$ ,  $p = .242$ ), jezelf de

schuld geven ( $\beta = .03, t = .25, p = .803$ ) en anderen de schuld geven ( $\beta = -.10, t = -.74, p = .463$ ) geen significante samenhang hadden met sociale angst. De hypothese kan worden aangenomen; hoe meer kinderen met een extra X chromosoom gebruikmaken van de maladaptieve cognitieve copingstrategieën, hoe meer sociale angst zij ervaren.

Tabel 4

*Resultaten van multiële regressie analyse tussen maladaptieve cognitieve copingstrategieën en sociale angst*

Voorspellers	Niet gestandaardiseerde		Gestandaardiseerde	<i>t</i>	<i>p</i>
	coëfficiënten		coëfficiënten		
	<i>B</i>	<i>Standaard error</i>	<i>Beta</i>		
Catastroferen	1.00	.37	.41*	2.70	.009
Rumineren	.02	.02	.17	1.18	.242
Anderen de schuld geven	-.25	.33	-.10	-.74	.463
Jezelf de schuld geven	.10	.38	.03	.25	.803
<i>R</i> <sup>2</sup>	.23				
<i>F</i>	4.32**				

\*  $p < .01$  \*\*  $p < .005$

**De invloed van leeftijd op de relatie tussen maladaptieve cognitieve copingstrategieën en sociale angst**

Om de hypothese te onderzoeken dat leeftijd van invloed is op de relatie tussen de maladaptieve cognitieve copingstrategieën en sociale angstsymptomen bij kinderen met een extra X, waarbij een toename in leeftijd gepaard gaat met een toename aan sociale angst symptomen, is er per maladaptieve cognitieve copingstrategie (4) een moderatie analyse uitgevoerd. De regressiemodellen bestaan elk uit twee blokken. Het eerste blok bevat de predictor en de covariaat (in dit geval leeftijd), waarna in het tweede blok de interactieterm tussen beide is ingevoegd.

**Moderatie door leeftijd in de relatie tussen jezelf of anderen de schuld geven en sociale angst.** In tegenstelling tot de verwachting, is er geen significant hoofdeffect gevonden van de copingstrategie jezelf de schuld geven op sociale angst bij kinderen met een extra X chromosoom, gecorrigeerd voor leeftijd ( $F(2,59) = 1.43, R^2 = .05, p = .249$ ). Tevens is er geen significant interactie effect gevonden van de interactieterm tussen leeftijd en jezelf de schuld geven op sociale angst ( $R^2\text{Change} = .01, F\text{Change}(1, 58) = .85, p = .362$ ).

Vergelijkbare resultaten zijn gevonden voor de analyse van de maladaptieve copingstrategie anderen de schuld geven. Er is geen significant hoofdeffect gevonden ( $F(2,59) = 1.15$ ,  $R^2 = .04$ ,  $p = .323$ ) van de strategie anderen de schuld geven op sociale angst, gecorrigeerd voor leeftijd. De toevoeging van de interactieterm tussen leeftijd en de strategie jezelf de schuld geven zorgt voor een toename van 2.4% in de verklaarde variantie ( $R^2\text{Change} = .02$ ). Deze toename is, echter statistisch gezien niet significant ( $F\text{Change}(1,58) = 1.51$ ,  $p = .225$ ). Concluderend kan gesteld worden dat leeftijd geen moderator is in de relatie tussen jezelf de schuld geven/anderen de schuld geven en sociale angst bij kinderen met een extra X chromosoom.

#### **Moderatie door leeftijd in de relatie tussen rumineren en sociale angst. In**

overeenstemming met de verwachting dat de maladaptieve copingstrategie rumineren van invloed is op sociale angstsymptomen bij kinderen met een extra X chromosoom, gecorrigeerd voor leeftijd, is er een positief en significant hoofdeffect gevonden ( $F(2,59) = 5.08$ ,  $p = .003$ ,  $R^2 = .14$ ). De toevoeging van de interactieterm tussen leeftijd en rumineren geeft geen significant interactie effect ( $R^2\text{Change} = .01$ ,  $F\text{Change}(1,58) = .68$ ,  $p = .413$ ). Er is dus geen sprake van moderatie door leeftijd in de relatie tussen rumineren en sociale angst bij kinderen met een extra X chromosoom. In Tabel 5 zijn de resultaten van de moderatie analyse weergegeven.

Tabel 5

*Resultaten moderatie analyse voor leeftijd in de relatie tussen rumineren en sociale angst*

Voorspellers	Niet gestandaardiseerde coëfficiënten		Gestandaardiseerde coëfficiënten	<i>p</i>
	<i>B</i>	<i>Standaard error</i>	<i>Beta</i>	
Model 1				
Leeftijd	-.52	.46	-.14	.261
Rumineren	.04	.01	.37	.003
$R^2$	.14			
$F$	5.08*			
Model 2				
Leeftijd*Rumineren	.04	.05	.10	.413
$R^2\text{Change}$	.01			
$F\text{Change}$	.68			

\*  $p < .01$

#### **Moderatie door leeftijd in de relatie tussen catastroferen en sociale angst. In**

overeenstemming met de verwachting dat de maladaptieve copingstrategie catastroferen van invloed zijn op sociale angst symptomen bij kinderen met een extra X chromosoom, gecorrigeerd voor leeftijd, is er een positief significant hoofdeffect gevonden ( $F(2,59) = 7.87$ ,  $R^2 = .21$ ,  $p = .000$ ). De toevoeging

van de interactieterm tussen leeftijd en catastroferen geeft geen significant interactie effect ( $R^2\text{Change} = .01$ ,  $F\text{Change}(1,58) = .72$ ,  $p = .399$ ). Er is geen sprake van een moderatie effect door leeftijd op de relatie tussen de maladaptieve copingstrategie catastroferen en sociale angst bij kinderen met een extra X chromosoom. In Tabel 6 zijn de resultaten van de moderatie analyse weergegeven.

Tabel 6

*Resultaten moderatie analyse voor leeftijd in de relatie tussen catastroferen en sociale angst*

Voorspellers	Niet gestandaardiseerde coëfficiënten		Gestandaardiseerde coëfficiënten	<i>p</i>
	<i>B</i>	<i>Standaard error</i>	<i>Beta</i>	
Model 1				
Leeftijd	-.37	.44	-.10	.399
Catastroferen	1.11	.29	.45	.000
$R^2$	.21			
$F$	7.87*			
Model 2				
Leeftijd*Catastroferen	.04	.04	.10	.399
$R^2\text{Change}$	.01			
$F\text{Change}$	.72			

\*  $p < .01$

## Discussie

De doelen van de huidige studie waren het onderzoeken van de relatie tussen het gebruiken van maladaptieve cognitieve copingstrategieën en sociale angst bij kinderen met een extra X chromosoom en of leeftijd deze relatie beïnvloedt. De bevindingen zullen hieronder worden beschreven.

### **Verskil in het gebruik van maladaptieve cognitieve copingstrategieën**

Er is onderzocht of er een verschil is tussen kinderen met een extra X chromosoom en typisch ontwikkelende kinderen, wat betreft de mate waarin zij maladaptieve cognitieve copingstrategieën gebruiken. De verwachting was dat kinderen met een extra X chromosoom significant meer gebruik maken van maladaptieve cognitieve copingstrategieën dan typisch ontwikkelende kinderen. In de huidige studie is, echter geen significant verschil gevonden tussen kinderen met een extra X chromosoom en typisch ontwikkelende kinderen, wat betreft het gebruik van maladaptieve cognitieve copingstrategieën. Deze resultaten zijn inconsistent met een eerdere studie binnen kinderen die een afwijkende sociale ontwikkeling doormaken; adolescenten met een angststoornis gebruiken significant vaker maladaptieve cognitieve copingstrategieën dan typisch ontwikkelende adolescenten (Legerstee, Garnefski, Verhulst, & Utens, 2011).

De resultaten vanuit de huidige studie behoren tot de eerste bevindingen over het gebruik van maladaptieve cognitieve copingstrategieën bij kinderen met een extra X chromosoom. Eerder onderzoek naar het gebruik van maladaptieve cognitieve copingstrategieën heeft aangetoond dat dit positief samenhangt met het vertonen van sociale angst symptomen bij typisch ontwikkelende kinderen en adolescenten met een angststoornis (Garnefski et al., 2007; Legerstee, Garnefski, Verhulst, & Utens, 2011; Garnefski & Kraaij, 2016; Kocovski, Endler, Rector & Flett, 2005). In de studie van Van Rijn en collega's (2014b) kwam naar voren dat kinderen met een extra X chromosoom significant meer sociale angst hadden dan typisch ontwikkelende kinderen. Vanuit dit gegeven tezamen met de gerapporteerde samenhang tussen sociale angst en maladaptieve cognitieve copingstrategieën in andere populaties, leek het aannemelijk dat kinderen met een extra X chromosoom ook vaker maladaptieve cognitieve copingstrategieën zouden gebruiken dan typisch ontwikkelende kinderen.

Een mogelijke verklaring voor het ontbreken van een significant verschil is dat de sociale angst van kinderen met een extra X zoveel groter en complexer is dan bij typisch ontwikkelende kinderen dat alleen het gebruik van maladaptieve cognitieve copingstrategieën het ontstaan van sociale angst bij deze kinderen niet kan verklaren. Mogelijk spelen er meer factoren mee in het ontstaan en het in stand houden van sociale angst bij kinderen met een extra X chromosoom die ook sterk van invloed zijn, waaronder mogelijk de frequentie van negatieve sociale leerervaringen en de interpretatie van

sociale situaties. Het is aanbevolen de werkingsmechanismen van sociale angst in een complexer model te onderzoeken.

### **De invloed van maladaptieve copingstrategieën op sociale angst**

Er is onderzocht of er een relatie is tussen de maladaptieve cognitieve copingstrategieën en sociale angst bij kinderen met een extra X chromosoom. De verwachting was dat het gebruiken van de maladaptieve cognitieve copingstrategieën resulteert in een verhoogde mate aan sociale angst symptomen bij kinderen met een extra X chromosoom. Conform de hypothese is gevonden dat hoe meer kinderen met een extra X chromosoom gebruik maken van maladaptieve cognitieve copingstrategieën, hoe meer sociale angst zij ervaren. Deze resultaten zijn in overeenstemming met eerder onderzoek naar de relatie tussen de maladaptieve copingstrategieën en sociale angst (Garnefski et al., 2007; Legerstee, Garnefski, Verhulst, & Utens, 2011; Garnefski & Kraaij, 2016; Kocovski, Endler, Rector & Flett, 2005). Deze eerdere onderzoeken richtten zich echter op niet-klinische kinderen of jongeren met een angststoornis. De huidige studie geeft als eerste bewijs dat de relatie tussen maladaptieve cognitieve copingstrategieën en sociale angst ook bestaat bij kinderen met een extra X chromosoom.

De relatie tussen maladaptieve cognitieve copingstrategieën en sociale angst bij kinderen met een extra X chromosoom kan onder meer verklaard worden door de suggestie van Van Rijn en collega's (2014b) dat kinderen met een extra X chromosoom in staat zijn om te reflecteren op hun sociale functioneren, ondanks hun afwijkende sociale ontwikkeling. De inhoud van deze reflecties na een stressvolle gebeurtenis zijn mogelijk eerder negatief dan positief van aard, omdat kinderen met een extra X chromosoom vaak sociaal minder vaardig zijn dan leeftijdsgenoten (Bishop et al., 2011; Visootak & Graham, 2009; Tartaglia, Cordeiro, Howell, Wilson & Janusz, 2010a; Tartaglia, Howell, Sutherland, Wilson & Wilson, 2010b; Van Rijn et al., 2014a). Als kinderen met een extra X chromosoom maladaptieve cognitieve copingstrategieën inzetten om hun reflecties na stressvolle gebeurtenissen vorm te geven, resulteert dit in verhoogde sociale angst symptomen.

### **De invloed van leeftijd op de relatie tussen maladaptieve cognitieve copingstrategieën en sociale angst**

Er is onderzocht of de variabele leeftijd een moderator is in de relatie tussen de verschillende maladaptieve cognitieve copingstrategieën en sociale angst met de verwachting dat sociale angst symptomen vaker zouden voorkomen, naarmate de leeftijd van de kinderen stijgt. In tegenstelling tot de hypothese is er geen moderatie effect gevonden van leeftijd in de relaties tussen de maladaptieve cognitieve copingstrategieën en sociale angst. Uit de analyses kwam wel naar voren dat ook na het corrigeren voor leeftijd er sprake was van een significant effect van de maladaptieve cognitieve copingstrategieën rumineren en catastroferen op sociale angst.

Vanuit de theorie was een invloed van leeftijd wel verwacht, omdat het inzetten van cognitieve copingstrategieën leeftijdsafhankelijk is; het gebruik van deze strategieën neemt toe met leeftijd

(Aldwin, 1994; Steinberg, 1999). Een mogelijke verklaring voor het ontbreken van een moderatie effect van leeftijd in de relaties tussen de maladaptieve cognitieve copingstrategieën en sociale angst is dat door afwijkende algehele ontwikkeling van kinderen met een extra X chromosoom hun ontwikkeling van cognitieve copingstrategieën wellicht ook anders is en zich in een ander tempo ontwikkeld dan bij typisch ontwikkelende kinderen. Hierdoor is een verschil tussen leeftijden mogelijk nog niet zichtbaar.

### **Sterke en zwakke aspecten**

Het huidige onderzoek richt zich op een groep kinderen (met een extra X chromosoom) waar relatief weinig onderzoek naar gedaan is, zeker wat betreft maladaptieve cognitieve copingstrategieën en sociale angst. Hierdoor zet de huidige studie in op het vergroten van wetenschappelijke kennis over een specifiek thema bij een onderbelichte groep, wat een sterk aspect is aan het onderzoek. Andere sterke aspecten zijn de grootte van de steekproef (175 participanten) en het feit dat het onderzoeksdesign een controlegroep heeft. Hierdoor is het mogelijk om het gebruik van maladaptieve cognitieve copingstrategieën te vergelijken tussen kinderen met een extra X chromosoom en typisch ontwikkelende kinderen.

Een zwak aspect is dat het onderzoek geen longitudinale opzet heeft. Hierdoor kan er geen uitspraak worden gedaan over de resultaten op de lange termijn. Het gebruik van de SAS-k en de CERQ in het huidige onderzoek is methodologisch gezien een zwak punt. De leeftijdsrange van de SAS-k loopt namelijk tot en met twaalf jaar en de leeftijdsrange van de CERQ start bij twaalf jaar. Hierdoor sluiten de meetinstrumenten mogelijk onvoldoende aan bij de kinderen uit het huidige onderzoek die een leeftijd hebben van negen tot achttien jaar. Daarnaast is er binnen het onderzoek enkel gebruikgemaakt van zelfrapportagevragenlijsten om maladaptieve cognitieve copingstrategieën en sociale angst te meten bij de participanten. Hierdoor beperkt de informatie over het gebruik van maladaptieve cognitieve copingstrategieën en het vertonen van sociale angst zich tot de antwoordmogelijkheden van de vragenlijsten. Er was geen mogelijkheid om door te vragen en de antwoorden van participanten verder te exploreren, waardoor wellicht relevante aanvullende informatie achterwege is gebleven (Verhulst & Van der Ende, 2014).

### **Implicatie voor de praktijk**

Uit het huidige onderzoek zijn aanwijzingen gevonden dat het gebruiken van maladaptieve cognitieve copingstrategieën kan resulteren in verhoogde sociale angst bij kinderen met een extra X chromosoom. Hier kan op worden ingespeeld bij het inzetten van interventies om sociale angst bij kinderen met een extra X chromosoom te behandelen. Binnen een interventie tegen sociale angst zouden kinderen met een extra X chromosoom mogelijk profijt hebben van het verkrijgen van meer inzicht in hoe zij nadenken over stressvolle sociale situaties en om te oefenen met het ombuigen van maladaptieve cognitieve copingstrategieën naar adaptieve cognitieve copingstrategieën, zoals het accepteren van de situatie zoals deze is of het concentreren op positieve zaken.

Daarnaast zou de preventieve interventie ‘Zippy’s vrienden’ ingezet kunnen worden om sociale angst symptomen te voorkomen (Panis, 2011). Deze interventie is effectief bevonden in internationale onderzoeken en wordt ingezet in groep twee, drie en vier van de basisschool om kinderen copingstrategieën aan te leren. Binnen de interventie wordt ook aandacht besteed aan omgaan met negatieve sociale situatie zoals pesten (Panis, 2011). Het preventief inzetten van deze interventie kan bijdragen aan het verbeteren van sociaal-emotionele vaardigheden bij kinderen met een extra X chromosoom en kan mogelijk psychosociale problemen voorkomen.

### **Aanbevelingen vervolgonderzoek**

Het verkrijgen van nieuwe kennis hangt samen met het ontstaan van nieuwe vragen. In dit onderzoek is er meer inzicht verkregen over de relatie tussen maladaptieve cognitieve copingstrategieën en sociale angst bij kinderen met een extra X chromosoom. Echter, er zijn vragen die nader onderzocht kunnen worden betreffende sociale angst bij kinderen met een extra X chromosoom.

Een verdere analyse van het huidige onderzoek of een vervolgonderzoek zou zich kunnen richten op geslachtsafhankelijke effecten. In eerder onderzoek is, namelijk aangetoond dat meisjes vaker cognitieve copingstrategieën gebruiken die niet effectief zijn dan jongens (Deyreh, 2012). Vervolgonderzoek kan bekijken of het ene geslacht meer gebruik maakt van de maladaptieve cognitieve copingstrategieën van Garnefski, Kraaij en Spinhoven (2002) dan het andere geslacht of dat er geen verschil is. Eventueel kan er ook gekeken worden welke strategie specifiek meer voorkomt per geslacht om interventies hierop aan te laten sluiten.

Daarnaast zou vervolgonderzoek zich verder kunnen richten op andere werkingsmechanismen zoals het interpreteren van sociale situaties, omdat er mogelijk meer factoren zijn die samenhangen met het ontwikkelen van sociale angst in bij kinderen met een extra X chromosoom (Van Rijn et al., 2014b). Dit vervolgonderzoek zou onder andere kunnen kijken naar hoe kinderen gezichtsuitdrukkingen van anderen interpreteren en waar zij hun blik op richten tijdens sociale interacties en of deze factoren van invloed zijn op in de mate van sociale angst die de kinderen ervaren.

### **Conclusie**

In conclusie heeft de huidige studie aangetoond dat het gebruiken van maladaptieve cognitieve copingstrategieën na een stressvolle situatie resulteert in verhoogde sociale angst symptomen bij kinderen met een extra X chromosoom. Hierdoor wordt er een nieuw inzicht aan bestaande kennis toegevoegd, aangezien de relatie tussen maladaptieve cognitieve copingstrategieën al eerder was aangetoond in andere populaties, waaronder adolescenten met angststoornissen en typisch ontwikkelende kinderen en adolescenten. Deze bevinding draagt niet alleen bij aan de wetenschappelijke kennis over het sociaal functioneren van kinderen met een extra X chromosoom, maar ook aan ons begrip over welke interventies passend zijn om sociale angst bij kinderen met een extra X chromosoom te behandelen of te voorkomen. Vervolgonderzoek zal moeten uitwijzen welke

factoren verder een rol kunnen spelen in het ontwikkelen van sociale angst bij kinderen met een extra X chromosoom.

### Referenties

- Achenbach, T. M., & Rescorla, L. A. (2001). *Manual for the ASEBA School Age Forms & Profiles*. Burlington, VT: University of Vermont, Research Center for Children, Youth & Families.
- Aldwin, C. M. (1994). *Stress, coping and development*. New York: The Guilford Press
- Bishop, D. V., Jacobs, P. A., Lachlan, K., Wellesley, D., Barnicoat, A., Boyd, P. A., ... & Shears, D. (2011). Autism, language and communication in children with sex chromosome trisomies. *Archives of Disease in Childhood*, *96*, 954-959.
- COTAN (2002). Beoordeling van de Cognitive Emotion Regulation Questionnaire, CERQ. Verkregen via: <https://www-cotandocumentatie-nl.ezproxy.leidenuniv.nl:2443/beoordelingen/b/13553/cognitive-emotion-regulation-questionnaire/>
- Dekking, Y. M. (1983). [Handleiding sociale angst schaal voor kinderen] Manual social anxiety scale for children. Lisse, The Netherlands: Swets & Zeitlinger.
- Deyreh, E. (2012). Comparison between high school students in cognitive and affective coping strategies. *Procedia-Social and Behavioral Sciences*, *46*, 289-293.
- Dieleman, G. C. & Dierckx, B. (2014). Angststoornissen. In F. C. Verhulst, F. Verheij & M. Danckaerts (red.). *Kinder- en Jeugdpsychiatrie*. (pp. 373-421). Van Gorcum: Assen.
- Evers, A., Van Vliet-Mulder, J. C., Ter Laak, J. (1992). *Documentatie van Tests en Testresearch in Nederland*. Assen, The Netherlands: Van Gorcum.
- Garnefski, N., & Kraaij, V. (2016). Specificity of relations between adolescents' cognitive emotion regulation strategies and symptoms of depression and anxiety. *Cognition and Emotion*, 1-8.
- Garnefski, N., Kraaij, V. & Spinhoven, P. (2001). Negative life events, cognitive emotion regulation and depression. *Personality and Individual Differences*, *30*, 1311-1327.
- Garnefski, N., Kraaij, V. & Spinhoven, P. (2002). *Handleiding voor het gebruik van de Cognitive Emotion Regulation Questionnaire. Een vragenlijst voor het meten van cognitieve copingstrategieën*. Leiderdorp: Datec.
- Garnefski, N., Rieffe, C., Jellesma, F., Terwogt, M. M., & Kraaij, V. (2007). Cognitive emotion regulation strategies and emotional problems in 9-11-year-old children. *European Child & Adolescent Psychiatry*, *16*(1), 1-9.
- Geschwind, D. H., & Dykens, E. (2004). Neurobehavioral and psychosocial issues in Klinefelter Syndrome. *Learning Disabilities Research & Practice*, *19*(3), 166-173.
- Kocovski, N. L., Endler, N. S., Rector, N. A., & Flett, G. L. (2005). Ruminative coping and post-event processing in social anxiety. *Behaviour Research and Therapy*, *43*(8), 971-984.

- Lanfranco, F., Kamischke, A., Zitzmann, M., & Nieschlag, E. (2004). Klinefelter's syndrome. *The Lancet*, 364(9430), 273-283.
- Leary, M. R. (2012). *Introduction to behavior research methods (6th ed.)*. Boston, MA: Pearson.
- Legerstee, J. S., Garnefski, N., Verhulst, F. C., & Utens, E. M. (2011). Cognitive coping in anxiety-disordered adolescents. *Journal of Adolescence*, 34(2), 319-326.
- Moore, D.S., McCabe, G.P., & Craig, B.A. (2011). *Introduction to the Practice of Statistics (7th ed.)*. New York: Freeman.
- Panis, M. (2011) Databank effectieve jeugdinterventies: beschrijving 'Zippy's Vrienden'. Utrecht: Nederlands Jeugdinstituut. Verkregen via: <https://www.nji.nl/nl/Databank/Databank-Effectieve-Jeugdinterventies/Erkende-interventies/Zippys-Vrienden.html>
- Rapee, R. M., & Heimberg, R. G. (1997). A cognitive-behavioral model of anxiety in social phobia. *Behaviour Research and Therapy*, 35(8), 741-756.
- Ratcliffe, S. G., Butler, G. E., & Jones, M. (1991). Edinburgh study of growth and development of children with sex chromosome abnormalities. *Birth Defects Original Article Series*, 26(4), 1.
- Robinson, A., Bender, B. G., Linden, M. G., & Salbenblatt, J. A. (1989). Sex chromosome aneuploidy: the Denver Prospective Study. *Birth Defects Original Article Series*, 26(4), 59-115.
- Steinberg, L. (1999). *Adolescence*. Boston: McGraw-Hill, Inc.
- Tartaglia, N., Cordeiro, L., Howell, S., Wilson, R., & Janusz, J. (2010a). The spectrum of the behavioral phenotype in boys and adolescents 47, XXY (Klinefelter syndrome). *Pediatric Endocrinology Reviews: PER*, 8(0 1), 151-159.
- Tartaglia, N. R., Howell, S., Sutherland, A., Wilson, R., & Wilson, L. (2010b). A review of trisomy X (47, XXX). *Orphanet Journal of Rare Diseases*, 5(1), 1-9.
- Van Rijn, S., Barendse, M., van Goozen, S., & Swaab, H. (2014a). Social attention, affective arousal and empathy in men with Klinefelter syndrome (47, XXY): Evidence from eyetracking and skin conductance. *PLOS One*, 9(1), 1-9, e84721.
- Van Rijn, S. & Langenhoff, J. (2017). *Opgroeien met het syndroom van Klinefelter (47, XXY), Trisomie X (47, XXX) of 47, XYY: Een handboek voor ouders en betrokkenen*. Universiteit Leiden.
- Van Rijn, S., Stockmann, L., Borghgraef, M., Bruining, H., van Ravenswaaij-Arts, C., Govaerts, L., ... & Swaab, H. (2014b). 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., Aleman, A., & Kahn, R. S. (2008). Social behavior and autism traits in a sex chromosomal disorder: Klinefelter (47XXY) syndrome. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 38(9), 1634-1641.

- Verhulst, F. C. & Van der Ende, J. (2014). Gestandaardiseerde diagnostische methoden. In F. C. Verhulst, F. Verheij & M. Danckaerts (red.). *Kinder- en Jeugdpsychiatrie*. (pp. 75-93). Van Gorcum: Assen.
- Visootsak, J., & Graham, J. M. (2009). Social function in multiple X and Y chromosome disorders: XXY, XYY, XXYY, XXXY. *Developmental Disabilities Research Reviews*, 15(4), 328-332.