

**Vroege symptomen en uitkomsten op 8 tot en met 14 jarige leeftijd
bij kinderen met een Pervasieve Ontwikkelingsstoornis (PDD)**

Rianne van der Werf

Universiteit Leiden

Masterscriptie

Education and Child Studies

Studentnr. 0513369

10-11-2011

Onder begeleiding van:

Mw. Prof. dr. J.T. Swaab-Barneveld

Tweede lezer:

Mw. dr. S. van Rijn

Inhoudsopgave

Samenvatting.....	2
1. Inleiding.....	3
2. Methode.....	6
2.1 Participanten	6
2.2 Procedure	6
2.3 Instrumenten	7
2.3.1 Leeftijd van afwijkende ontwikkeling, communicatie, sociale interactie en stereotiepe gedragingen.....	7
2.3.2 Taal.....	9
2.4 Analyses.....	9
2.4.1 Data inspectie	9
2.4.2 Data analyse	10
3. Resultaten	11
3.1 Karakteristieken steekproef.....	11
3.2 Communicatie, sociale interactie en stereotiepe gedragingen	11
3.3 Complexe taalproductie en verbal fluency.....	12
4. Discussie.....	14
5. Literatuur	18

Samenvatting

Uit verschillende onderzoeken blijkt dat de gemiddelde leeftijd dat ouders afwijkingen in de ontwikkeling van hun kind met een pervasieve ontwikkelingsstoornis (PDD) signaleren, tussen de 15 en 17 maanden ligt. Ook blijkt uit onderzoek dat een vroege afwijkende ontwikkeling meestal leidt tot een ernstiger beeld bij de diagnose van PDD. Dit doet veronderstellen dat kinderen met PDD waarvan de ouders voor 36 maanden een afwijkende ontwikkeling op gebied van taal, relaties of gedrag signaleren ernstigere uitkomsten op verschillende ontwikkelingsgebieden laten zien dan kinderen met PDD waarbij de afwijkende ontwikkeling na 36 maanden door de ouders werd waargenomen. In de huidige studie werden uitkomsten op de 3 symptoomdimensies van communicatie, sociale interactie en stereotiepe gedragingen vergeleken tussen kinderen met PDD in de leeftijd van 8 tot en met 14 jaar, waarvan bij 23 kinderen de afwijkende ontwikkeling voor 36 maanden door ouders gesignaleerd werd, en 4 kinderen waarvan de afwijkende ontwikkeling na 36 maanden door ouders werd gesignaleerd. Tussen de twee groepen werden geen significante verschillen gevonden. Hiernaast werden er twee gesproken taalaspecten, namelijk de complexe taalproductie en verbal fluency, getoetst. Hierbij werden de prestaties van de twee PDD-groepen vergeleken met die van een controlegroep van 85 kinderen zonder PDD in de leeftijd van 8 tot en met 14 jaar. Wat betreft beide taalaspecten scoren PDD-kinderen met een afwijkende ontwikkeling na 36 maanden significant lager dan de controlekinderen. Tussen de PDD-groepen worden geen significante verschillen gevonden, net als tussen de vroeg onderkende PDD-groep en de controlegroep.

1. Inleiding

In overeenstemming met de huidige kennis dat de pervasieve ontwikkelingsstoornis (PDD), die klassiek autisme, het syndroom van Asperger en de pervasieve ontwikkelingsstoornis-niet anders omschreven (PDD-NOS) omvat, een genetische basis heeft (Lichtenstein, Carlström, Råstam, Gillberg & Anckarsäter, 2010; Hill & Frith, 2003; Miles & Hillman, 2000), is er veel bewijs dat problemen in de ontwikkeling al op jonge leeftijd duidelijk worden (Oosterling et al., 2010; Wetherby et al., 2004; Baird, Cass & Slonims, 2003). De gemiddelde leeftijd dat ouders problemen in de ontwikkeling van hun kind signaleren is tussen de 15 en 17 maanden (Chawarska et al., 2007; Baghdadli, Picot, Pascal, Pry & Aussilloux, 2003). Vertragingen in sociale taalontwikkeling en communicatieve ontwikkeling worden vaak als eerste door ouders gesignaleerd (Chawarska et al., 2007; Mitchell et al., 2006). Zo blijkt uit onderzoek van Mitchell et al. (2006) dat een groot deel van de ouders van kinderen met PDD vanaf twaalf maanden een afwijkende ontwikkeling bij hun kind opmerken wat betreft het vermogen om adequaat te reageren op sociale gebeurtenissen. Ernstige gevallen van PDD kunnen al in het eerste levensjaar ontdekt worden, vooral als ouders en hulpverleners zeer opmerkzaam zijn (Verhulst, 2005). Kinderen met problemen in de ontwikkeling voor de tiende levensmaand worden vier keer vaker met klassiek autisme gediagnosticeerd dan met PDD-NOS en het syndroom van Asperger (Chawarska et al., 2007).

Omdat PDD een enorme impact heeft op het leven van een kind en de familie, is het belangrijk dat kinderen zo snel mogelijk gediagnosticeerd worden (Noterdaeme & Hutzelmeyer-Nickels, 2010). Vroege signalering en eventuele bevestiging van de diagnose gevolgd door het tijdig instellen van begeleiding en behandeling zijn van belang. Zo kan het vroegtijdig onderkennen van een taal/spraakachterstand van belang zijn om de taalontwikkeling op tijd te kunnen stimuleren. Dit voorkomt wellicht ernstige secundaire problematiek zoals emotionele- en gedragsproblemen en bevordert dat het kind zich zo goed mogelijk kan ontwikkelen (Verhulst, 2005; Moore & Goodson, 2003).

Het lijkt belangrijk om te kijken of de leeftijd waarop ontwikkelingsproblemen gesignaleerd worden een voorspeller is voor de ernst van problemen in gebieden van communicatieve vaardigheden, sociale interactie en stereotiepe gedragingen – die de

kernsymptomen vormen van PDD. Vroege onderkenning zou mogelijk de ernst van de stoornis onderstrepen, omdat de afwijkende ontwikkeling eerder duidelijk is.

Tevens leent het taaldomein zich om na te gaan of vroege signalering gekoppeld is aan een ernstiger beloop. Er zijn kinderen waarbij in eerste instantie aan een specifieke taalstoornis (SLI) wordt gedacht, voordat de diagnose PDD gesteld wordt (Jónsdóttir, Saemundsen, Antonsdóttir, Sigurdardóttir & Ólason, 2011; Conti-Ramsden, Simkin, & Botting, 2006). PDD en SLI hebben overeenkomstige symptomen, waardoor differentiatie tussen deze ontwikkelingsstoornissen waarbij een neurologische oorzaak verondersteld mag worden (O'Brien, Zhang, Nishimura, Tomblin & Murray, 2003; Bartlett et al., 2002), bemoeilijkt wordt (Jónsdóttir et al., 2011). Hierop aansluitend wijst onderzoek uit dat kinderen met PDD verminderde capaciteiten bezitten op het gebied van gesproken taal dan kinderen zonder PDD (Suzuki, 2011).

Eerder onderzoek laat inconsistente resultaten zien op het gebied van vroegtijdige signalering. Onderzoek van Chawarska et al. (2007) wijst uit dat als ouders vertragingen in de ontwikkeling na 18 maanden signaleren, kinderen op vierjarige leeftijd slechtere uitkomsten hebben op gebieden van sociaal- en communicatief functioneren, symbolisch spel en non-verbale cognitieve functies dan kinderen die voor 18 maanden een vertraging in de ontwikkeling vertoonden. Deze resultaten zijn niet in overeenstemming met recente onderzoeken van Jónsdóttir et al. (2011) en Möricke, Swinkels, Beuker en Buitelaar (2010). Uit deze studies bleek juist dat vroege symptomen voorspellers zijn voor slechtere uitkomsten op gebieden van cognitief functioneren, verbale vermogens, externaliserend- en internaliserend probleemgedrag. In onderzoek van Jónsdóttir et al., (2011) werden kinderen in de leeftijd van 1 tot en met 12 jaar met elkaar vergeleken die voor en na het zesde levensjaar gediagnosticeerd zijn met PDD. PDD werd eerder gediagnosticeerd bij kinderen met een lager IQ, lage verbale vermogens en autistische regressie. Deze kinderen kregen vaker de diagnose van klassiek autisme dan kinderen met de diagnose na zes jaar, waarvan de diagnose vaak mildere vormen van PDD betrof. Dit is steunend voor de hypothese dat mildere vormen van autisme, vallend binnen het brede spectrum van PDD, vaak later in de ontwikkeling worden ontdekt (Verhulst, 2005). Ook is er een grensgebied tussen PDD en niet-PDD waarin kinderen met subklinische autistische trekken kunnen worden gevonden. Deze worden gedefinieerd als eigenschappen die vergelijkbaar zijn met autistische symptomen, maar die milder

en/of minder in aantal zijn, en onder de diagnostische drempel voor PDD liggen (Möricke et al., 2010). Uit dit onderzoek van Möricke et al. (2010) blijkt dat het hebben van veel subklinische autistische trekken op 14-15 maanden voorspellend kan zijn voor externaliserend- en internaliserend probleemgedrag, en/of cognitieve en taalproblemen op de leeftijd van 3 tot 5 jaar.

Onderzoek van Jónsdóttir et al. (2011) laat zien dat kinderen die voor en na het zesde levensjaar gediagnosticeerd zijn met PDD niet van elkaar verschillen in de sociale interactie, communicatie en stereotiepe gedragingen. Dit is mogelijk te verklaren omdat een deel van de kinderen in het onderzoek erg jong was, waardoor bijvoorbeeld bepaalde gedragingen nog niet eenduidig afwijkend werden bevonden. Op latere leeftijd zouden deze kinderen mogelijk hoger scoren op bijvoorbeeld stereotiepe gedragingen.

In vergelijkbaar onderzoek van Möricke et al. (2010) is slechts gekeken naar de subklinische autistische trekken van kinderen in de leeftijd van 3 tot 5 jaar. Omdat in onderzoek van Jónsdóttir et al. (2011) kinderen vanaf 1 jaar onderzocht zijn, zijn de resultaten mogelijk minder betrouwbaar door deze jonge leeftijd van de kinderen. Ook zijn in het onderzoek van Jónsdóttir et al. (2011) de kinderen met PDD niet vergeleken met kinderen met een normale ontwikkeling.

Vanwege de niet eenduidige eerdere bevindingen, is het onduidelijk of vroege signalering van PDD een ernstiger beloop van het functioneren voorspelt. Daarom worden in dit onderzoek kinderen met PDD in de leeftijd van 8 tot en met 14 jaar elkaar vergeleken waarvan de ouders voor 36 maanden een afwijkende ontwikkeling op gebied van taal, relaties of gedrag signaleerden en kinderen waarbij deze afwijkende ontwikkeling na 36 maanden aan het licht kwam. Er zijn verschillende onderzoeksvragen die in deze studie onderzocht worden: (1) zijn er verschillen tussen deze groepen in de ernst van de communicatie, de sociale interactie en stereotiepe gedragingen? en (2) Is er een afwijkende complexe taalproductie en verbal fluency en zijn er verschillen tussen de vroeg onderkende en later onderkende groep in de complexe taalproductie en verbal fluency op 8 en met 14-jarige leeftijd?

Op basis van eerdere onderzoeken van Möricke et al. (2010) en Jónsdóttir et al. (2011) wordt verwacht wordt dat kinderen met een afwijkende ontwikkeling voor 36 maanden ernstigere problemen laten zien op de bovengenoemde gebieden dan kinderen waarbij de afwijkende ontwikkeling na 36 maanden gesignaleerd werd.

2. Methode

2.1 Participanten

In totaal namen 112 kinderen deel aan het onderzoek. Deze kinderen waren in de leeftijd van 8 tot en met 14 jaar (57 jongens, 55 meisjes; gemiddelde leeftijd 10.63 jaar, sd 1.16). De PDD-groep bestond uit 27 kinderen (23 jongens, 4 meisjes; gemiddelde leeftijd 10.72 jaar, sd 1.35), waarvan 23 kinderen met een afwijkende ontwikkeling voor 36 maanden (19 jongens, 4 meisjes; gemiddelde leeftijd 10.74 jaar, sd 1.41) en 4 kinderen met een afwijkende ontwikkeling na 36 maanden (4 jongens; gemiddelde leeftijd 10.63 jaar, sd 1.09). De kinderen uit de PDD-groep zijn gematcht aan leeftijdsgenoten zonder PDD. Deze controlegroep bestond uit 85 kinderen (34 jongens, 51 meisjes; gemiddelde leeftijd 10.6 jaar, sd 1.10). In overeenstemming met de huidige kennis dat PDD in verhouding vier keer meer bij jongens voorkomt dan bij meisjes (Giarelli et al., 2010; Kerig & Wenar, 2006), is in de PDD-groep de verhouding tussen jongens en meisjes 4:1.

De gemiddelde leeftijd van moeders van de PDD-groep was 41.8 jaar (sd 4.52; range 34-51) en de gemiddelde leeftijd van vaders van de PDD-groep was 44,6 jaar (sd 7.33; range 32-59). De gemiddelde leeftijd van moeders van de controlegroep was 41.5 jaar (sd 3.74; range 34-49). De gemiddelde leeftijd van vaders van de controlegroep was 43.7 jaar (sd 4.95; range 36-59). Het opleidingsniveau van de ouders was in drie niveaus opgedeeld: laag (mavo, vmbo, lts), middelbaar (havo, vwo, mbo) en hoog (hbo, universiteit, hts). Van de moeders uit de PDD-groep was 0% laag geschoold, 60,9% middelbaar geschoold en 39,1% hoog geschoold. Van de vaders uit de PDD-groep was 13,6% laag geschoold, 40,9% middelbaar geschoold en 45,5% hoog geschoold. Van de moeders uit de controlegroep was 19,5% laag geschoold, 36,6% middelbaar geschoold en 43,9% hoog geschoold. Van de vaders uit de controlegroep was 24,4% laag geschoold, 43,9% middelbaar geschoold en 31,7% hoog geschoold.

2.2 Procedure

De gegevens die in dit onderzoek gebruikt worden, zijn afkomstig van een groter onderzoek van de Universiteit Leiden. Er zijn een aantal voorwaarden om mee te kunnen doen aan het onderzoek. De algemene voorwaarden, bestemd voor de klinische groep en niet-klinische controlegroep bestaan uit de volgende: de proefpersonen dienen tussen de 8 en 18 jaar te zijn, vrijwillig mee te doen, en ze

dienen Nederlands sprekende ouders te hebben die een informed consent formulier ondertekenen waarin toestemming wordt gegeven voor onderzoek. Kinderen vanaf 14 jaar dienen zelf ook toestemming te geven. De werving van proefpersonen met PDD verliep via Centrum Autisme in Leiden. De behandelaars van het Centrum Autisme hebben, onafhankelijk van de onderzoekers vanuit Universiteit Leiden, bij ouders geïnformeerd of zij bereid waren mee te doen aan het onderzoek. Een specifieke voorwaarde voor de PDD-groep is dat elk proefpersoon een pervasieve ontwikkelingsstoornis dient te hebben volgens de DSM-IV of ICD-10 criteria. Contra-indicaties voor het onderzoek voor de klinische groep zijn in het verleden opgelopen hoofdletsel of een neurologische ziekte en een IQ onder de 70. De werving van proefpersonen voor de controlegroep heeft plaatsgevonden via verschillende basisscholen en middelbare scholen in Zuid-Holland. Deze scholen zijn telefonisch benaderd en kregen bij interesse een brief opgestuurd met informatie over het onderzoek. Wanneer scholen besloten mee te werken aan het onderzoek zijn er brieven aan ouders uitgedeeld met de vraag schriftelijk toestemming te geven om hun kind mee te laten werken met het onderzoek. Voor de controlegroep is het gebruik van psychiatrische medicatie, een verleden van psychiatrische ziekten, in het verleden opgelopen hoofdletsel, neurologische ziekten of endocriene stoornissen en een IQ beneden de 70 een contra-indicatie.

Het onderzoek is goedgekeurd door de landelijke ethische commissie en er is voldaan aan de ‘World Medical Association Declaration of Helsinki’ waarin ethische principes voor medisch onderzoek worden beschreven.

2.3 Instrumenten

2.3.1 Leeftijd van afwijkende ontwikkeling, communicatie, sociale interactie en stereotiepe gedragingen

ADI-R. Zowel de leeftijd waarop ouders een afwijkende ontwikkeling bij hun kind ontdekken als de problemen in de communicatie, in de wederkerige sociale interacties en de beperkte, repetitieve en stereotiepe gedragspatronen worden gemeten met het Autisme Diagnostisch Interview – Revised (ADI-R). De ADI-R is een gestructureerd diagnostisch interview dat wordt afgenomen om autisme te classificeren bij een kind of volwassene. De ouders of verzorgers zijn informant. De

ADI-R is geschikt voor alle kinderen en volwassenen met een mentale leeftijd van twee jaar of ouder. De ADI-R bestaat uit een klinische (93 vragen) en diagnostische (42 vragen) versie. De klinische versie wordt voornamelijk binnen de klinische setting gebruikt om kinderen te diagnosticeren met een pervasieve ontwikkelingsstoornis en daarnaast een uitgebreide ontwikkelingsanamnese af te nemen, de diagnostische versie wordt voornamelijk gebruikt voor wetenschappelijk onderzoek en betreft slechts de vragen die gescoord worden om de diagnose PDD of niet-PDD te stellen. Daarom is in dit onderzoek gekozen om de diagnostische versie van de ADI-R te gebruiken. Bij het beantwoorden van de vragen wordt ouders gevraagd terug te denken aan de periode dat hun kind tussen de 4 en 5 jaar oud was. Aan de hand van de antwoorden wordt per vraag een score van 0 (geen atypisch gedrag) tot 3 (duidelijk beperkend of atypisch gedrag) gegeven. De totale score wordt vervolgens berekend met een algoritme dat gebaseerd is op de DSM-IV en ICD-10 criteria voor een pervasieve ontwikkelingsstoornis. Het interview levert afzonderlijke scores op voor elk van de drie diagnostische domeinen (communicatie, sociale interacties en repetitieve en stereotiepe gedragingen). Naast deze drie domeinen is er voor de afwijkende ontwikkeling een specifiek, vierde domein ontwikkeld. Hierin wordt gekeken wanneer ouders en hulpverleners een afwijkende ontwikkeling vermoedden. Ook wordt in dit domein gekeken of het spreken van de eerste woorden en zinnen zich normaal of vertraagd heeft ontwikkeld. Het kind dient op al deze domeinen de cut-off score te behalen om aan de diagnostische criteria voor PDD te voldoen. Het ADI-R algoritme levert een indeling op van PDD of niet-PDD, maar differentieert niet tussen de verschillende vormen van PDD, bijvoorbeeld PDD-NOS of het syndroom van Asperger.

Er zijn verschillende validiteits- en betrouwbaarheidsonderzoeken naar de ADI-R gedaan. Hieruit blijkt dat de ADI-R redelijk geschikt is om een ontwikkelingsstoornis binnen het autisme spectrum vast te stellen, maar dat een klinische observatie belangrijk is als onderdeel van het diagnostisch proces. Tevens wordt aangeraden naast de ADI-R het Autisme Diagnostisch Observatie Schema (ADOS) af te nemen om de betrouwbaarheid van de diagnose te vergroten (Oosterling et al., 2010; de Bildt et al., 2009; Kleinman et al., 2008; de Bildt et al., 2004).

2.3.2 Taal

CELF-4-NL. De taalaspecten worden gemeten met twee subtests uit de Clinical Evaluation of Language Fundamentals – 4e editie (CELF-4-NL). De CELF-4-NL is een individueel af te nemen test voor diagnose en evaluatie van taalproblemen. De test is geschikt voor kinderen en jongvolwassenen van 5 tot 18 jaar.

De complexe taalproductie wordt gemeten met de subtest ‘zinnen formuleren’. Bij deze subtest krijgen de kinderen een plaatje te zien en wordt er een woord aangeboden. Dit woord dient gebruikt te worden om een passende zin te formuleren. De verbal fluency wordt gemeten met de subtest ‘woordassociaties’. Hierbij krijgen de kinderen een categorie te horen, bijvoorbeeld ‘beroepen’ of ‘kledingstukken’ en hier moeten ze binnen een minuut zoveel mogelijk gerelateerde woorden bij bedenken. Het aantal juiste woorden dat een kind bij een onderwerp weet te benoemen, wordt gescoord en telt als een punt.

De CELF-4-NL is beoordeeld door de COTAN (2010). De normen, begripsvaliditeit en betrouwbaarheid zijn door de COTAN als voldoende beoordeeld. De criteriumvaliditeit is onvoldoende beoordeeld, wegens beperkt onderzoek (COTAN, 2010).

2.4 Analyses

2.4.1 Data inspectie

Om de hypothesen te kunnen toetsen is de PDD-groep ingedeeld in twee groepen: groep 1 zijn de kinderen waarbij een afwijkende ontwikkeling voor 36 maanden door de ouders werd gesignaleerd, groep 2 zijn de kinderen waarbij de afwijkende ontwikkeling na 36 maanden door ouders werd gesignaleerd. De afhankelijke variabelen zijn de scores van communicatie, sociale interactie, stereotiepe gedragingen, complexe taalproductie en verbal fluency. De prestatie op de taaltaken van beide groepen wordt afgezet tegen een controlegroep.

Per variabele wordt er gekeken of er sprake is van een normale verdeling door naar een Q-Q plot, de scheefheid (skewness) en welving (kurtosis) en de normale verdeling in histogram te kijken. Uitbijters worden bekeken met een boxplot. Missende waarden worden onderzocht door middel van een Missing Value Analyses (MVA) (de Vocht, 2007).

2.4.2 Data analyse

In dit onderzoek worden twee groepen kinderen van 8 tot en met 14 jaar met elkaar vergeleken: kinderen met PDD waarvan de ouders voor 36 maanden een afwijkende ontwikkeling op gebied van taal, relaties of gedrag opmerkten en kinderen waarbij deze afwijkende ontwikkeling na 36 maanden aan het licht kwam.

De eerste onderzoeksvraag in het onderzoek was: *Zijn er verschillen in de ernst van de communicatie, sociale interactie en stereotiepe gedragingen tussen deze twee groepen?* De nulhypothese (Ho1) was: Er is geen verschil tussen de ernst van de communicatie, sociale interactie en stereotiepe gedragingen tussen deze twee groepen. Er is hier sprake van een onafhankelijke categorische variabele, namelijk de groepen, en drie afhankelijke numerieke variabelen. Deze relatie wordt onderzocht met een een-weg variantieanalyse. Om aan de voorwaarden van een een-weg variantieanalyse te voldoen, wordt gekeken of de varianties tussen de groepen gelijk zijn door middel van een Levene's toets (de Vocht, 2007). Na uitvoering van de een-weg variantieanalyse wordt gekeken naar de effectgrootte. Dit wordt berekend met de pearson's correlatie coëfficiënt r . Deze drukt de sterkte van een lineaire samenhang tussen twee variabelen uit. De pearson's correlatie coëfficiënt r heeft een waarde tussen de 0 (geen effect) en de 1 (een perfect effect). Een waarde van $r=.10$ is een klein effect, een waarde van $r=.30$ is een medium effect en $r=.50$ is een groot effect (Field, 2005). Als er verschillen worden gevonden in groepsgemiddelden, wordt de Bonferroni toets uitgevoerd om te kijken waar de verschillen zich bevinden.

Bij de tweede onderzoeksvraag wordt het volgende onderzocht: *Is er een afwijkende complexe taalproductie en verbal fluency en zijn er verschillen tussen de vroeg onderkende en later onderkende groep in de complexe taalproductie en verbal fluency op 8 en met 14-jarige leeftijd?* Hierbij worden de prestaties van de 2 onderzoeksgroepen en de controlegroep met elkaar vergeleken. De nulhypothese (Ho2) was: Er is geen verschil tussen de complexe taalproductie en verbal fluency tussen de drie groepen. Ook deze relatie wordt onderzocht met een een-weg variantieanalyse en de Bonferroni toets.

3. Resultaten

3.1 Karakteristieken steekproef

Bij het onderzoek naar missende waarden wordt gebruik gemaakt van de Missing Value Analyse (MVA). Omdat de variabelen communicatie, sociale interactie en stereotiepe gedragingen afkomstig zijn uit de ADI-R en deze alleen afgenomen is bij de PDD-groep, wordt de controlegroep hierbij niet meegenomen. Bij de ADI-scores worden geen missende waarden gevonden. Ook bij de variabelen complexe taalproductie en verbal fluency worden geen missende waarden gevonden.

De afhankelijke variabele 'communicatie' is bij benadering normaal verdeeld over de groepen ($M=16.15$, $sd=4.12$, $skewness=-.87$, $kurtosis=-.087$) en er zijn geen uitbijters. De afhankelijke variabele 'sociale interactie' is bij benadering normaal verdeeld over de groepen ($M=19.48$, $sd=4.49$, $skewness=-.4$, $kurtosis=-.43$) zonder uitbijters. De afhankelijke variabele 'stereotiepe gedragingen' is bij benadering normaal verdeeld over de groepen ($M=5.0$, $sd=2.90$, $skewness=.36$, $kurtosis=-1.15$) en er zijn geen uitbijters. De afhankelijke variabele 'complexe taalproductie' is bij benadering normaal verdeeld over de groepen ($M=29.03$, $sd=6.24$, $skewness=-1.24$, $kurtosis=2.12$) en er zijn vier uitbijters. Deze uitbijters scoren lager dan gemiddeld. Omdat de variabele normaal verdeeld is, blijven de uitbijters in de analyse. De afhankelijke variabele 'verbal fluency' is bij benadering normaal verdeeld over de groepen ($M=41.29$, $sd=9.11$, $skewness=.12$, $kurtosis=-.54$) zonder uitbijters. De eerste groep bestaat uit 23 PDD-kinderen met een afwijkende ontwikkeling voor 36 maanden (20,5%), de tweede groep bestaat uit 4 PDD-kinderen met een afwijkende ontwikkeling na 36 maanden (3,6%) en de derde groep bestaat uit 85 controlekinderen (75,9%).

3.2 Communicatie, sociale interactie en stereotiepe gedragingen

Bij de eerste onderzoeksvraag werd bekeken of er verschillen zijn tussen de communicatie, sociale interactie en stereotiepe gedragingen waarbij twee groepen met elkaar vergeleken worden: kinderen met PDD waarbij een afwijkende ontwikkeling voor 36 maanden aan het licht kwam, en kinderen met PDD waarbij deze afwijkende ontwikkeling na 36 maanden aan het licht kwam. Verwacht werd dat kinderen met een afwijkende ontwikkeling voor 36 maanden ernstigere afwijkende gedragingen

vertoonden op alle gebieden, welke kenmerkend zijn voor PDD. Om dit te onderzoeken wordt een een-weg variantieanalyse uitgevoerd. Vooraf aan de een-weg variantieanalyse wordt gekeken of de varianties gelijk verdeeld zijn door middel van de Levene's toets (communicatie: $F=1.73$, $p=.20$; sociale interactie: $F=3.58$, $p=.07$; stereotiepe gedragingen: $F=2.86$, $p=.10$). De varianties verschillen niet significant ($p>.05$), waardoor de een-weg variantieanalyse kon worden uitgevoerd (communicatie: $F(1,25)=.50$, $p=.49$; sociale interactie: $F(1,25)=.91$, $p=.35$; stereotiepe gedragingen: $F(1,25)=1.77$, $p=.20$). De groepen verschillen niet van elkaar in de communicatie, sociale interactie en stereotiepe gedragingen ($p>.05$). De groepsgemiddelden zijn te zien in tabel 1.

Tabel 1

Groepsgemiddelden en standaarddeviaties (SD) communicatie, sociale interactie en stereotiepe gedragingen

		Groepsgemiddelden	SD
Communicatie	PDD afwijkend > 36 mnd	17.5	2.9
	PDD afwijkend < 36 mnd	15.9	4.3
Sociale interactie	PDD afwijkend > 36 mnd	17.5	1.9
	PDD afwijkend < 36 mnd	19.8	4.7
Stereotiepe gedragingen	PDD afwijkend > 36 mnd	3.25	2.1
	PDD afwijkend < 36 mnd	5.3	2.9

3.3 Complexe taalproductie en verbal fluency

Voor de tweede onderzoeksvraag werd gekeken of er verschillen zijn tussen de groepen wat betreft complexe woordproductie en verbal fluency. Hier werd naast de twee PDD-groepen ook een controlegroep in het onderzoek betrokken. Omdat uit onderzoek van Mörcke et al. (2010) bleek dat het hebben van veel subklinische autistische trekken op jonge leeftijd een voorspeller was voor taalproblemen op latere leeftijd, werd verwacht dat PDD-kinderen met een afwijkende ontwikkeling voor 36 maanden minder goede resultaten behaalden op de complexe woordenschat en verbal fluency dan kinderen waarbij de afwijkende ontwikkeling na 36 aan het licht kwam. De controlegroep werd meegenomen om te kijken of er verschillen zitten in de taalaspecten tussen de klinische en niet-klinische groep. Om dit te onderzoeken wordt

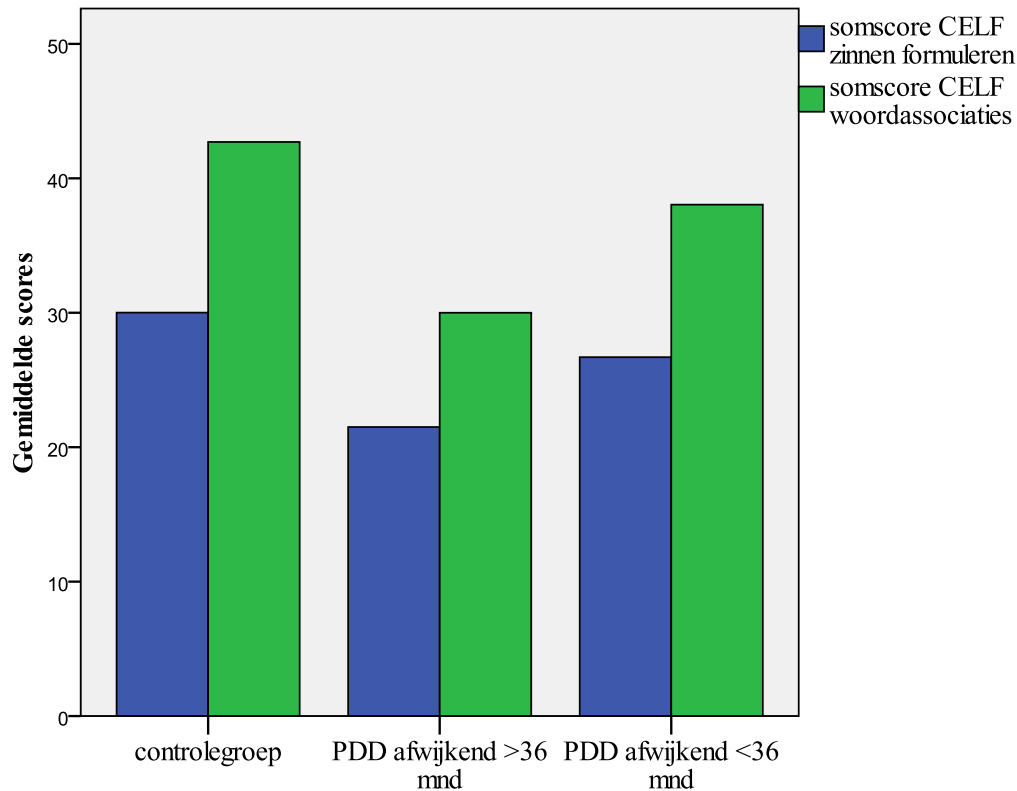
een een-weg variantieanalyse uitgevoerd. Vooraf wordt met de Levene's toets bekeken of de varianties gelijk verdeeld zijn (complexe taalproductie: $F=1.06$, $p=.35$; verbal fluency: $F=.10$, $p=.90$). De varianties verschillen niet significant ($p>.05$), waardoor de een-weg variantieanalyse wordt uitgevoerd (complexe taalproductie: $F(2,109)=6.10$, $p=.003$; verbal fluency: $F(2,109)=6.06$, $p=.003$). De groepen verschillen van elkaar in de complexe taalproductie en verbal fluency ($p<.05$). Om te kijken welke groepen van elkaar verschillen in groepsgemiddelden, wordt de Bonferroni toets uitgevoerd. De groepsgemiddelden zijn te zien in tabel 2. Vanuit de Bonferroni toets blijkt dat de controlegroep en PDD-kinderen met een afwijkende ontwikkeling na 36 maanden van elkaar verschillen wat betreft complexe taalproductie ($p=.02$) met een effectgrootte van $r=.58$. Dit is een groot effect. Ook verschillen de controlegroep en PDD-kinderen met een afwijkende ontwikkeling na 36 maanden van elkaar wat betreft verbal fluency ($p=.02$) met een effectgrootte van $r=.64$). Wederom is dit een groot effect.

Tabel 2

Groepsgemiddelden en standaarddeviaties (SD) complexe taalproductie en verbal fluency

		Groepsgemiddelden	SD
Complexe taalproductie	Controlegroep	30.1	5.5
	PDD afwijkend > 36 mnd	21.5	4.7
	PDD afwijkend < 36 mnd	26.7	7.7
Verbal fluency	Controlegroep	42.7	8.7
	PDD afwijkend > 36 mnd	30.0	9.0
	PDD afwijkend < 36 mnd	38.0	8.8

In figuur 1 is te zien dat de score op complexe woordproductie en verbal fluency bij PDD-kinderen met een afwijkende ontwikkeling na 36 maanden lager is dan de scores van de kinderen in de controlegroep. Dit betreft een significant verschil. Tussen de later onderkende PDD-groep (> 36 maanden) en de vroeg onderkende PDD-groep (< 36 maanden) worden geen significante verschillen gevonden, net als tussen de vroeg onderkende PDD-groep en de controlegroep.



Figuur 1. Gemiddelde scores complexe taalproductie en verbal fluency

4. Discussie

Er zijn verschillende studies verricht naar het hebben van (subklinische) autistische kenmerken op jonge leeftijd en de uitkomsten op latere leeftijd. Vanwege niet eenduidige eerdere bevindingen is het onduidelijk of vroege signalering van PDD een ernstiger beloop van het functioneren voorspelt. Zo blijkt uit onderzoek van Chawarska et al. (2007) dat als ouders vertragingen in de ontwikkeling na 18 maanden signaleren, kinderen op vierjarige leeftijd slechtere uitkomsten hebben op gebieden van sociaal- en communicatief functioneren, symbolisch spel en non-verbale cognitieve functies dan kinderen die voor 18 maanden een vertraging in de ontwikkeling vertoonden. Deze resultaten zijn niet in overeenstemming met recente onderzoeken van Jónsdóttir, Saemundsen, Antonsdóttir, Sigurdardóttir en Ólason (2011) en Möricke, Swinkels, Beuker en Buitelaar (2010). Uit deze studies bleek juist dat vroege symptomen voorspellers zijn voor slechtere uitkomsten op gebieden van cognitief functioneren, verbale vermogens, externaliserend- en internaliserend

probleemgedrag. In de huidige studie werd gekeken of kinderen met PDD in de leeftijd van 8 tot en met 14 jaar waarvan de ouders voor 36 maanden afwijkingen in de ontwikkeling signaleerden en kinderen waarvan ouders na 36 maanden afwijkingen in de ontwikkeling signaleerden andere uitkomsten laten zien op de drie gebieden die een pervasieve ontwikkelingsstoornis kenmerken, namelijk sociale interactie, communicatie en stereotiepe gedragingen. Ook werd er gekeken of deze twee PDD-groepen en een controlegroep van kinderen zonder PDD verschillende uitkomsten lieten zien op twee gebieden van gesproken taal, namelijk de complexe taalproductie en verbal fluency. In overeenkomst met recent onderzoek van Jónsdóttir et al. (2011) en Möricke et al. (2010) werd verondersteld dat kinderen waarvan de ouders een vroege afwijkende ontwikkeling signaleerden, namelijk voor 36 maanden, ernstigere afwijkingen lieten zien op de gebieden sociale interactie, communicatie en stereotiep gedrag dan kinderen waarbij een afwijkende ontwikkeling later gesignaleerd werd. Wat betreft de taalaspecten complexe taalproductie en verbal fluency werd op basis van onderzoeken van Jónsdóttir et al. (2011), Suzuki (2011) en Möricke et al. (2010) verwacht dat beide PDD-groepen minder goede scores behaalden op de taalgebieden dan de controlegroep, en dat binnen de PDD-groepen de PDD-kinderen met een vroegtijdige afwijkende ontwikkeling minder goede scores behaalden op de taalgebieden dan de kinderen met een later onderkende afwijkende ontwikkeling.

Bij de eerste onderzoeksvraag werd bekeken of er verschillen zijn tussen de communicatie, sociale interactie en stereotiepe gedragingen waarbij twee groepen met elkaar vergeleken werden: kinderen met PDD waarbij een afwijkende ontwikkeling voor 36 maanden gesignaleerd werd, en kinderen met PDD waarbij deze afwijkende ontwikkeling na 36 maanden aan het licht kwam. Er werden geen significante verschillen tussen deze groepen gevonden, wat betekent dat bij de ontwikkelingsgebieden die kenmerkend zijn voor PDD, het geen verschil maakt op welke leeftijd (voor of na 36 maanden) ouders afwijkingen in de ontwikkeling van hun kind signaleren. Echter dient rekening te worden gehouden met het verschil in groepsgrootte tussen de PDD-kinderen met een afwijkende ontwikkeling voor 36 maanden ($n=23$) en de PDD-kinderen met een afwijkende ontwikkeling na 36 maanden ($n=4$).

Voor de tweede onderzoeksvraag werd gekeken of er verschillen zijn tussen de groepen wat betreft complexe woordproductie en verbal fluency. Hier werd naast de twee PDD-groepen een controlegroep in het onderzoek betrokken. Het bleek dat

PDD-kinderen met een afwijkende ontwikkeling na 36 maanden significant lagere scores behaalden op complexe woordproductie en verbal fluency dan de kinderen in de controlegroep. Dit betekent dat de later onderkende groep PDD-kinderen significant slechtere resultaten behaalt op de talige componenten complexe woordproductie en verbal fluency dan de controlegroep. Tussen de overige groepen werden geen significante verschillen gevonden. Het is interessant dit verder te onderzoeken met grotere groepsgroottes en gelijkere groepen. Mogelijk worden dan meer significante verschillen gevonden tussen de PDD-kinderen met een afwijkende ontwikkeling voor 36 maanden en de controlegroep, maar ook tussen de vroeg onderkende PDD-groep en de later onderkende PDD-groep.

Omdat uit de huidige studie blijkt dat kinderen met PDD, waarvan de ouders na 36 maanden een afwijkende ontwikkeling signaleerden, slechtere uitkomsten laten zien op de gesproken taalaspecten complexe woordproductie en verbal fluency, lijkt het belangrijk om ouders hierover te informeren zodra de diagnose bekend is. Uit onderzoek van Verhulst (2005) en Moore en Goodson (2003) blijkt namelijk dat het vroegtijdig onderkennen van een taal/spraak achterstand van belang kan zijn om de taalontwikkeling op tijd te kunnen stimuleren. Dit kan secundaire problematiek zoals emotionele- en gedragsproblemen voorkomen en bevordert dat het kind zich zo goed mogelijk kan ontwikkelen. In de praktijk kan bij het stellen van de diagnose PDD kenbaar worden gemaakt dat zowel ouders als school rekening dienen te houden met de verminderde gesproken taalcapaciteiten en kunnen handvatten worden gegeven om de taalontwikkeling waar mogelijk te stimuleren.

De resultaten uit het onderzoek dienen voorzichtig geïnterpreteerd te worden vanwege de verschillen in groepsgrootte tussen de onderzoeksgroepen. Tevens is het mogelijk dat grotere groepen andere uitkomsten zouden bieden. Verder is de scheiding tussen beide PDD-groepen gebaseerd op de signalering door ouders. Mogelijk zorgt dit voor een minder objectief beeld dan signalering door hulpverleners. Een andere beperking van het onderzoek betreft de methodologie. De ADI-R richt zich specifiek op gedragingen van kinderen in de leeftijd tussen de 4 en 5 jaar. Hierdoor is moeilijk te beoordelen hoe kinderen zich op latere leeftijd ontwikkelen. Het is interessant nader te onderzoeken of vroege onderkenning van invloed is op problemen in de communicatie, sociale interacties en stereotiepe gedragingen op oudere leeftijd bij kinderen waarbij de diagnose PDD gesteld is. Tevens is de ADI-R niet door de COTAN beoordeeld en kan getwijfeld worden aan

de betrouwbaarheid en validiteit. Uit onderzoek blijkt dat de ADI-R redelijk betrouwbaar is in het onderkennen van de diagnose PDD, maar dat klinisch oordeel in de diagnostiek meegenomen dient te worden. Tevens wordt aangeraden naast de ADI-R bij de ouders, het Autisme Diagnostisch Observatie Schema (ADOS) bij het kind af te nemen om de betrouwbaarheid van de diagnose te vergroten (Oosterling et al., 2010; de Bildt et al., 2009; Kleinman et al., 2008; de Bildt et al., 2004).

5. Literatuur

Baghdadli, A., Picot, M.C., Pascal, C., Pry, P. & Aussilloux, C. (2003) Relationship between age of recognition of first disturbances and severity in young children with autism. *European Child & Adolescent Psychiatry*, 12, 122-127.

Baird, G., Cass, H. & Slonims, V. (2003) Diagnoses of autism. *BMJ*, 327, 488-493.

Bartlett, C.W., Flax, J.F., Logue, M.W., Vieland, V.J., Bassett, A.S., Tallal, P. & Brzustowicz, L.M. (2002). A Major Susceptibility Locus for Specific Language Impairment is Located on 13q21. *The American Journal of Human Genetics*, 71(1), 45-55.

Bildt, A. de, Mulder E.J., Hoekstra, P.J., Lang, N.D.J. van der, Minderaa, R.B. & Hartman, C.A. (2009). Validity of the Children's Social Behavior Questionnaire (CSBQ) in children with intellectual disability: Comparing the CSBQ with ADI-R, ADOS, and clinical DSM-IV-TR classification. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 39, 1464-1470.

Bildt, A. de, Sytema, S., Ketelaars, C., Kraijer, D., Mulder, E. et al. (2004). Interrelationship between Autism Diagnostic Observation Schedule-Generic (ADOS-G), Autism Diagnostic Interview-Revised (ADI-R), and the Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders (DSM-IV-TR) classification in children and adolescents with mental retardation. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 34 (2), 129-137.

Chawarska, K., Paul, R., Klin, A., Hannigen, S., Dichtel, L.E. & Volkmar, F. (2007). Parental recognition of developmental problems in toddlers with autism spectrum disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 37, 62-72.

Conti-Ramsden, G., Simkin, Z. & Botting, N. (2006) The prevalence of autistic spectrum disorders in adolescents with a history of specific language impairment (SLI). *The Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 47(6), 621-628.

COTAN (2010). *COTAN Documentatie NIP*. Verkregen op 9 november, 2011, van http://www.cotandocumentatie.nl/test_details.php?id=656

Field, A. (2005). *Discovering statistics using SPSS*. London: Sage Publications Ltd.

Giarelli, E., Wiggins, L.D., Rice, C.E., Levy, S.E., Kirby, R.S., Pinto-Martin, J. & Mandell, D. (2010). Sex differences in the evaluation and diagnoses of autism spectrum disorders among children. *Disability and Health Journal*, 3(2), 107-116.

Hill, E.L. & Frith, U. (2003). Understanding autism: insights from mind and brain. *The Royal Society*, 358, 281-289.

Jónsdóttir, S., Saemundsen, E., Antonsdóttir, I.S., Sigurdardóttir, S. & Ólason, D. (2011). Children diagnosed with autism spectrum disorder before or after the age of 6 years. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 5, 175-184.

Kerig, P.K. & Wenar, C. (2006). *Developmental Psychopathology. From infancy through adolescence*. New York: McGraw-Hill

Kleinman, J.M., Ventola, P.E., Pandey, J., Verbalis, A.D., Barton, M., Hodgson, S., ... Fein, D. (2008). Diagnostic stability in very young children with autism spectrum disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 38, 606-615.

Lichtenstein, P., Carström, E., Råstam, M., Gillberg, C. & Anckarsäter, H. (2010). The genetics of autism spectrum disorders and related neuropsychiatric disorders in childhood. *The American Journal of Psychiatry*, 167, 1357-1363.

Miles, J.H. & Hillman, R.E. (2000) Value of a clinical morphology examination in autism. *American Journal of Medical Genetics*, 91, 245-253.

Mitchell, S., Brian, J., Zwaigenbaum, L., Roberts, W., Szatmari, P., Smith, I. & Bryson, S. (2006). Early language and communication development of infants later diagnosed with autism spectrum disorder. *Developmental and Behavioral Pediatrics*, 27(2), 69-78.

Moore, V. & Goodson, S. 2003. How well does early diagnosis of autism stand the test of time? Follow up study of children assessed for autism at age 2 and development of an early diagnostic service. *Autism*, 7(1), 47-63.

Möricke, E., Swinkels, S.H.N., Beuker, K.T. & Buitelaar, J.K. (2010). Predictive value of subclinical autistic traits at age 14-15 months for behavioural and cognitive problems at age 3-5 years. *European Child & Adolescent Psychiatry*, 19, 659-668.

Noterdaeme, M. & Hutzelmeyer-Nickels, A. (2010). Early symptoms and recognition of pervasive developmental disorders in Germany. *Autism*, 14(6), 575-588.

O'Brien, E.K., Zhang, X., Nishimura, C., Tomblin, J.B. & Murray, J.C. (2003). Association of specific language impairment (SLI) to the region of 7q31, *The American Journal of Human Genetics*, 72(6), 1536-1543.

Oosterling, I.J., Rommelse, N., De Jonge, M., Gaag, R.J. van der, Swinkels, S., Roos, R., ... Buitelaar, J. (2010). How useful is the Social Communication Questionnaire in toddlers at risk of autism spectrum disorder? *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 51 (11), 1260-1268.

Oosterling, I.J., Wensing, M., Swinkels, S.H., Gaag, R.J. van der, Visser, J.C., Woudenberg, T., et al. (2010) Advancing early detection of autism spectrum disorder by applying an integrated two-stage screening approach. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 51(3), 250-258.

Suzuki, M. (2011). Mental development and autistic behavior in children with pervasive developmental disorders. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 5, 1517-1525

Verhulst, F.C. (2005). *De ontwikkeling van het kind*. Assen: Koninklijke van Gorcum.

Vocht, A. de (2007). *Basishandboek SPSS 14 voor Windows*. Utrecht: Bijleveld Press.

Wetherby, A.M., Woods, J., Allen, L., Cleary, J. Dickinson, H. & Lord, C. (2004). Early indicators of autism spectrum disorders in the second year of life. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 34(5), 473-493.