

Executieve Functies en Externaliserend Probleemgedrag bij Kinderen met Foetaal Alcohol

Spectrumstoornissen

Masterthesis Pedagogische Wetenschappen

Kyra Haemers- 3815021

Masteropleiding Pedagogische Wetenschappen

Universiteit Utrecht

Vak: Masterthesis Orthopedagogiek - 2001200130

Masterprogramma: Orthopedagogiek

Werkveld: Jeugdzorg

Docent: Prof dr. A. L. van Baar

Drs. S. Knuiman

Datum: 05-06-2015

Studiejaar: 2014-2015

Aantal woorden: 3744

Voorwoord

Voor u ligt de masterthesis over de relatie tussen executieve functies en externaliserend probleemgedrag bij kinderen met Foetaal Alcohol Spectrumstoornissen [Fetal Alcohol Spectrum Disorder; FASD. Het onderzoek is uitgevoerd onder begeleiding van Sandra Knuiman en Anneloes van Baar. Mijn dank gaat uit naar de FAS-poli in Zutphen voor het beschikbaar stellen van de patiëntendossiers en de kans om onderzoek te mogen doen bij kinderen met FASD. Ook dank ik in het bijzonder Dianne Wesselink voor haar inzet en betrokkenheid bij het onderzoek. Daarnaast dank ik mijn begeleidster Sandra Knuiman voor haar goede samenwerking en begeleiding tijdens het onderzoek. Tevens wil ik mijn begeleidster Anneloes van Baar bedanken voor haar goede begeleiding bij mijn masterthesis.

Mijn interesse in onderzoek naar kinderen met FASD is gewekt door de onbekendheid die ik heb ervaren over deze stoornissen in Nederland. Ik ben opgegroeid in een actief pleeggezin waar ik regelmatig in aanraking ben gekomen met pleegkinderen waarbij bekend is of vermoedens zijn dat de moeder ten tijde van de zwangerschap alcohol heeft genuttigd. Ik heb hierbij kennis over ervaring opgedaan in de omgang met deze kinderen en hun gedragsproblemen. Opvallend is te noemen dat maar weinig kinderen diagnostisch zijn onderzocht naar aanleiding van deze prenatale blootstelling aan alcohol. Gedragsproblemen worden namelijk vooral toegeschreven aan de onveilige leefsituatie waarin deze kinderen hebben geleefd.

Ook tijdens mijn opleiding Orthopedagogiek is FASD opvallend weinig ter sprake geweest, ondanks de praktische relevantie hiervan. Dit is wellicht toe te schrijven aan het gegeven dat er vrijwel geen onderzoek in Nederland is gedaan naar kinderen met FASD. Ik heb het dan ook intrigerend gevonden om hier de eerste stappen in te maken en bij te dragen aan het maatschappelijke belang. Het onderzoekstraject heb ik als erg leerzaam ervaren, omdat ik me heb kunnen ontwikkelen in het geheel opzetten van een nieuw onderzoek. Hierbij heb ik ervaring opgedaan in de moeilijkheden die zich voordoen wanneer het gaat om klinische gegevens die niet zijn opgesteld met onderzoeksdoeleinden. Ook ben ik gevoed door relevante informatie over de FASD populatie in Nederland en over welke secundaire beperkingen deze kinderen kunnen hebben in hun functioneren. Dit zie ik als een verrijking van mijn klinische visie als toekomstig orthopedagoge.

Kyra Haemers

EF EN EXTERNALISEREND PROBLEEMGEDRAG

Samenvatting

Doel. Foetaal Alcohol Spectrumstoornissen [Fetal Alcohol Spectrum Disorders; FASD] zijn wereldwijd een van de meest voorkomende afwijkingen die te voorkomen vallen. Toch is nog maar weinig bekend over kinderen met FASD in Nederland en hun secundaire beperkingen. In deze studie is de relatie tussen executieve functies [EF] en externaliserend probleemgedrag bij kinderen met FASD onderzocht. Ook is onderzocht of kinderen met Foetaal Alcohol Syndroom [FAS] en kinderen met partieel FAS [pFAS] verschillen in deze relatie. *Methode.* Dataverzameling vond plaats middels een dossieranalyse, waarbij de dossiergegevens met behulp van een codeboek werden gescoord. Patiëntendossiers van 51 kinderen (6-12 jaar) met FASD (63% jongens) waren geïnccludeerd. Deze zijn verkregen van de FAS-poli in Zutphen, waar de participanten zich tussen 2006 en 2014 aanmeldden. *Resultaten.* De totale groep FASD ($n = 51$), en de subgroepen FAS ($n = 10$) en pFAS ($n = 20$) werden onderzocht. Problemen met EF verklaarden 26.8% van de variantie in externaliserend probleemgedrag bij kinderen met FASD (groot effect). Bij kinderen met pFAS verklaarden problemen met EF 25.1% van de variantie (middelmatig effect). Bij kinderen met FAS werd geen significante relatie aangetoond. De subgroepen FAS en pFAS verschilden niet in de relatie tussen EF en externaliserend probleemgedrag. *Conclusie.* Kinderen met FASD hebben problemen met EF van waaruit het externaliserend probleemgedrag verklaard kan worden. De subgroepen FAS en pFAS verschillen niet in deze relatie. De inzet van vroegkinderlijke interventieprogramma's kan mogelijk bijdragen aan het voorkomen van executieve functie- en gedragsproblemen

Kernwoorden: executieve functies, externaliserend probleemgedrag, FASD, FAS, pFAS.

Abstract

Aim. Fetal Alcohol Spectrum Disorders [FASD] are worldwide one of the most common abnormalities which can be prevent. Nevertheless, still little is known about children with FASD in the Netherlands and their secondary disabilities. This study examined the relation between executive functioning [EF] and externalizing problem behavior in children with FASD. Also is examined if children with Fetal Alcohol Syndrome [FAS] and children with partial FAS [pFAS] differ in this relation. *Method.* Data was obtained through analyses of hospital records and this information was scored using a code book. Patient records from 51 children (6-12 years) with FASD (63% boys) were included in the analyses. These were obtained from the FAS-clinic in Zutphen, where the participants registered between 2006 and 2014. *Results.* The total group FASD ($n = 51$) and the subgroups FAS ($n = 10$) and pFAS ($n = 20$) were examined. Problems with EF explained 26.8% of the variance in externalizing behavior in children with FASD (large effect size). In children with pFAS problems with EF explained 25.1% of the variance (medium effect size). There was no significant relation found in children with FAS. The subgroups FAS and pFAS did not differ in the relation between EF and externalizing behavior. *Conclusion.* Children with FASD have problems with EF which can explain their externalizing behavior. The subgroups FAS and pFAS do not differ in this relation. The use of early childhood intervention programs may prevent executive functioning and behavior problems.

Keywords: executive functioning, externalizing behavior, FASD, FAS, pFAS.

EF EN EXTERNALISEREND PROBLEEMGEDRAG

Executieve Functies en Externaliserend Probleemgedrag bij Kinderen met Foetaal Alcohol Spectrumstoornissen

Foetaal Alcohol Spectrumstoornissen [Fetal Alcohol Spectrum Disorders; FASD] zijn wereldwijd een van de meest voorkomende afwijkingen die te voorkomen vallen. Bekend is dat tussen de 35 en 52% van de Nederlandse vrouwen op enig moment tijdens de zwangerschap alcohol drinkt. Tijdens de zwangerschap kan een dagelijkse inname van 5 gram ethanol (ongeveer één glas wijn) al schadelijk genoeg zijn voor het ontwikkelen van FASD bij de foetus (Gezondheidsraad, 2005). Specifieke prevalentiecijfers van FASD in Nederland zijn niet bekend, omdat er nog geen onderzoek naar de FASD populatie in Nederland heeft plaatsgevonden. Wanneer wordt aangenomen dat deze vergelijkbaar zijn met Europa zou het gaan om 1 per 450 geboren kinderen (van Wieringen et al., 2010). Uitgaande van deze gegevens loopt dus een relatief grote groep kinderen in Nederland risico op FASD. De noodzaak voor onderzoek is groot, omdat het gebrek aan onderzoeksgegevens maakt dat er onvoldoende interventies ontwikkeld zijn om de bedreigde ontwikkeling van kinderen met FASD te keren (Peadon, Rhys-Jones, Bower, & Elliott, 2009). Doel van dit onderzoek is kennis genereren over de secundaire beperkingen van kinderen met FASD in Nederland, gericht op het kunnen bieden van handvatten voor behandel- en preventieprogramma's.

FASD

FASD is een omvattende term voor diagnoses gerelateerd aan prenatale blootstelling aan alcohol. Foetaal Alcohol Syndroom [FAS] bevindt zich aan het problematische eind van het continuüm en wordt gediagnosticeerd wanneer is voldaan aan (1) vertraagde groei, (2) gezichtsafwijkingen, (3) afwijkingen aan het centraal zenuwstelsel en (4) prenatale blootstelling aan alcohol. Partieel FAS [pFAS] wordt gediagnosticeerd wanneer naast criterium 3 en 4, eveneens wordt voldaan aan criterium 1 of 2 (Astley & Clarren, 2000; Hoyme et al., 2005). In de literatuur worden kinderen met FASD die niet gediagnosticeerd zijn met FAS ook vaker aangeduid als kinderen met prenatale blootstelling aan alcohol [PAE].

Externaliserend Probleemgedrag

Kinderen met FASD hebben significant meer externaliserend probleemgedrag (Autti-Rämmö et al., 2006; Quattlebaum & O'Connor, 2013) en vormen een belangrijke risicogroep voor het ontwikkelen van persistente gedragsstoornissen (Moffit, 1993) en problemen in het sociaal maatschappelijk functioneren (Streissguth et al., 2004). De ernst hiervan is terug te

EF EN EXTERNALISEREND PROBLEEMGEDRAG

zien in het onderzoek van Streissguth en collega's (2004) waaruit blijkt dat 60 procent van de kinderen met FAS in aanraking komt met justitie.

Verschil tussen FAS en pFAS. Kinderen met FAS blijken volgens onderzoek van Chasnoff, Wells, Telford, Schmidt en Messer (2010) niet significant te verschillen van kinderen met pFAS in de mate van externaliserend probleemgedrag. In eerder onderzoek van Sampson, Streisguth, Bookstein & Barr (2000) komt eveneens naar voren dat kinderen met FAS niet significant verschillen van kinderen met PAE in de mate van gedragsproblemen. Daarentegen wordt in onderzoek van Fagerlund, Autti-Rämö, Hoyme, Mattson en Korkman (2011) aangetoond dat kinderen en adolescenten met FAS significant minder gedragsproblemen vertonen dan kinderen en adolescenten met PAE.

Executieve Functies

Problemen met executieve Functies [EF] hangen samen met externaliserend probleemgedrag (Schoemaker, Mulder, Deković & Matthys, 2013). EF zijn cognitieve processen die nodig zijn voor doelgericht, efficiënt en sociaal aangepast gedrag (Gioia, Isquith, Guy & Kenworthy, 2000). De ontwikkeling van EF begint op jonge leeftijd en duurt voort tot ver in de adolescentie, waarbij de basis zich ontwikkelt in de eerste vijf levensjaren (Smidts, 2003). Ruwweg worden twee categorieën EF onderscheiden, namelijk koude en warme EF. Koude EF sturen het denken aan, waaronder plannen en organiseren, werkgeheugen, initiatief nemen en gedragsevaluatie. Warme EF sturen emoties en gedragsregulatie aan, waaronder inhibitie, emotieregulatie en cognitieve flexibiliteit (Gioia et al., 2000).

Kinderen met FASD laten volgens ouders gebreken zien in zowel koude als warme EF (Astley et al., 2009; Rasmussen, McAuley & Andrew, 2007). Deze resultaten zijn gebaseerd op informatie van ouders, maar er is ook onderzoek te noemen waarbij middels testbatterijen het executief functioneren is gemeten. Zo is aangetoond dat kinderen met FASD significant meer problemen hebben met planning (Green et al., 2009) en werkgeheugen (Green et al., 2009; Pei, Job, Kully-Martens & Rasmussen, 2011; Quattlebaum & O'Connor, 2013). Ook zijn significant meer problemen aangetoond met inhibitie en cognitieve flexibiliteit (Rasmussen & Bisanz, 2009; Rasmussen et al., 2013).

Verschil tussen FAS en pFAS. Uit het onderzoek van Chasnoff en collega's (2010) blijkt dat kinderen met FAS slechter presteren op cognitieve flexibiliteit vergeleken met kinderen met pFAS. Ook in eerder onderzoek is gebleken dat kinderen met FAS significant meer problemen hebben in cognitieve flexibiliteit vergeleken met kinderen met PAE (McGee,

EF EN EXTERNALISEREND PROBLEEMGEDRAG

Fryer, Bjorkquist, Mattson & Riley, 2008). Daarentegen is ook onderzoek te noemen waar geen significant verschil is aangetoond tussen kinderen met FAS en kinderen met PAE in hun presteren op cognitieve flexibiliteit en inhibitie, echter hier gaat het om een kleine steekproef ($n = 10$) (Kodituwakku, May, Clericuzio & Weers, 2001). Ook blijkt geen significant verschil te bestaan in planningsvaardigheden en werkgeheugen (Green et al., 2009).

EF en Externaliserend Probleemgedrag

De relatie tussen EF en externaliserend probleemgedrag is voornamelijk onderzocht bij kinderen zonder FASD. Tekorten in de totale EF (werkgeheugen, inhibitie, cognitieve flexibiliteit en planning) blijken positief gerelateerd te zijn aan externaliserend probleemgedrag bij kleuters (Hughes & Ensor, 2008; Schoemaker et al., 2013). Ook blijken tekorten in de totale EF (inhibitie en planning) positief gerelateerd te zijn aan reactieve agressie bij adolescente jongens (Ellis, Weis & Lochman, 2009). In een meta-analyse van Ogilvie, Stewart, Chan en Shum (2011) is een positieve relatie aangetoond tussen problemen met cognitieve flexibiliteit en antisociaal gedrag bij adolescenten en volwassenen. Tot slot blijkt de aanwezigheid van tekorten in emotieregulatie op jonge leeftijd gerelateerd te zijn aan externaliserend probleemgedrag op latere leeftijd (Eisenberg et al., 2001; Supplee, Skuban, Shaw & Prout, 2009).

Huidig Onderzoek

Geconcludeerd kan worden dat relatief weinig wetenschappelijke kennis voorhanden is over de relatie tussen EF en externaliserend probleemgedrag bij kinderen, waarbij het vooral voor kinderen met FASD geheel ontbreekt aan onderzoeksgegevens. De noodzaak hiervoor is echter groot, omdat een relatief grote groep kinderen in Nederland risico loopt op FASD. In de huidige studie wordt de relatie tussen problemen met EF en externaliserend probleemgedrag bij kinderen met FASD onderzocht en een positieve relatie wordt verwacht. Verder wordt bekeken of kinderen met FAS en kinderen met pFAS verschillen in de relatie tussen problemen met EF en externaliserend probleemgedrag en verwacht wordt dat beide groepen niet van elkaar verschillen.

Methode

Participanten

De steekproef was gericht getrokken uit een bredere database van 289 patiënten (50.2 % jongens) met een gemiddelde leeftijd van 11.62 en een standaarddeviatie van 8.49, range 0-55, die zich tussen 2006 en 2014 aanmeldden bij de FAS-poli in het Gelre Ziekenhuis in Zutphen. De inclusiecriteria waren (1) leeftijd 6-12 jaar en (2) FASD diagnose. De steekproef

EF EN EXTERNALISEREND PROBLEEMGEDRAG

bestaat uit 51 patiënten (63% jongens), met een gemiddelde leeftijd van 8.1 jaar en een standaarddeviatie van 1.25, range 6-12. Het onderzoek was goedgekeurd door de Locale Toetsingscommissie van de Gelre Ziekenhuizen en de gegevens zijn vertrouwelijk behandeld.

Procedure

Huidige studie is tot stand gekomen, omdat de artsen en GZ-psychologen van de FAS-poli in Zutphen de FASD populatie van Nederland in kaart wilden brengen. Nadat toestemming was verkregen van de Locale Toetsings Commissie van de Gelre Ziekenhuizen werden de patiëntendossiers vrijgegeven voor onderzoek en werd de data verzameld middels een dossieranalyse. Deze dossieranalyse omvatte 289 patiëntendossiers met kwalitatieve gegevens die verkregen waren ten tijde van het probleem- en ontwikkelingsanamnesegegesprek met de patiënten en hun ouders of verzorgers. Deze gegevens werden middels een vooraf opgesteld coderingssysteem omgezet in kwantitatieve gegevens. Dit coderingssysteem werd aan de hand van wetenschappelijke literatuur en in overleg met de GZ-psychologe van de FAS-poli, die brede ervaring heeft met de doelgroep, opgesteld. Voor de dossieranalyse waren een vijftal onderzoekers verantwoordelijk, waarbij werd gestart met het analyseren van enkele dossiers in gezamenlijk verband. Daarna analyseerde iedere onderzoeker individueel 15 dossiers, waarvan 15 dossiers eveneens door een andere onderzoeker werden geanalyseerd. Interbeoordelaarsbetrouwbaarheid werd onderzocht, waarna constructief overleg plaatsvond over de bevindingen om zodoende meer overeenstemming te verkrijgen tussen de onderzoekers. Aanpassingen in het coderingssysteem werden met terugwerkende kracht ingevoerd. De resterende dossiers werden eveneens individueel geanalyseerd en wederom werden 15 dossiers door een andere onderzoeker geanalyseerd en werd interbeoordelaarsbetrouwbaarheid onderzocht.

Meetinstrumenten

Demografische kenmerken. Demografische karakteristieken waren opgenomen in de dossiers, zoals geslacht, leeftijd, huidige leefsituatie en soort basisschoolonderwijs.

EF. De dossiers waren niet met onderzoeksdoeleinden opgesteld, waardoor de gegevens beperkt waren tot de volgende EF: plannen en organiseren, inhibitie, emotieregulatie, werkgeheugen en cognitieve flexibiliteit. Voor het meten van het executief functioneren werd een totale schaal EF opgesteld als continue variabele, waarbij de aanwezigheid van problemen op iedere EF werd opgeteld. De subcategorieën (plannen en organiseren, inhibitie, emotieregulatie, werkgeheugen en cognitieve flexibiliteit) werden apart in het code boek geoperationaliseerd als ordinale variabelen, waarbij op basis van het dossier

EF EN EXTERNALISEREND PROBLEEMGEDRAG

(0) afwezig, (1) matige ernst of (2) ernstig werd gescoord door de onderzoekers. Een hogere totaalscore geeft meer problemen met EF weer.

Externaliserend probleemgedrag. Voor het meten van externaliserend probleemgedrag werd een totale schaal externaliserend probleemgedrag opgesteld als continue variabele. Bij deze schaal werd de aanwezigheid van de volgende gedragsproblemen opgeteld: naleven van regels en opdrachten, fysieke agressie, stelen, verbale agressie, vernielen, gemeen tegen anderen, bedreigen, pesten en betrokken in gevechten. Deze subcategorieën werden in het code boek apart geoperationaliseerd als ordinale variabelen, waarbij op basis van het dossier (0) afwezig, (1) matige ernst of (2) ernstig werd gescoord door de onderzoekers. Een hogere totaalscore geeft meer externaliserend probleemgedrag weer.

Diagnostische groepen. Het 4 digit-model van Astley en collega's (2009) werd gebruikt om de diagnostische codes uit het dossier te classificeren als een FASD diagnose. FAS was gediagnosticeerd wanneer de diagnostische codes behoorden tot categorie A (blootstelling aan alcohol bekend) of B (blootstelling aan alcohol onbekend) en pFAS wanneer de diagnostische codes behoorden tot categorie C (blootstelling aan alcohol bekend). Indien de diagnostische codes in één van de categorieën A t/m C, E (Statische Encephalopatie, blootstelling aan alcohol bekend) en F (Statische Encephalopatie, blootstelling aan alcohol onbekend) vielen, was sprake van FASD.

Betrouwbaarheid en Validiteit

Waarnemingsevidentie werd gewaarborgd doordat alle onderzoekers gegronde pedagogische voorkennis hadden over de normale en afwijkende ontwikkeling van kinderen. Ook werd een codeboek gehanteerd met duidelijk omschreven constructen. Interbeoordelaarsbetrouwbaarheid werd onderzocht, waarbij de eerste Cohen's Kappa een waarde had van .56, wat wordt omschreven als gemiddeld. De tweede Cohen's Kappa had een waarde van .783, wat wordt omschreven als goed (Altman, 1991).

Data Analyses

Drie diagnostische groepen waren vastgesteld, namelijk de totale onderzoeksgroep FASD, en de subgroepen FAS en pFAS. Verschillen in demografische kenmerken tussen de subgroepen FAS en pFAS werden onderzocht met de chikwadraattoets en een variantieanalyse (ANOVA). De chi-kwadraattoets werd gebruikt om te onderzoeken of de subgroepen FAS en pFAS verschilden in problemen met plannen en organiseren, inhibitie, emotieregulatie, werkgeheugen en cognitieve flexibiliteit. Het verschil in het totale executief

EF EN EXTERNALISEREND PROBLEEMGEDRAG

functioneren en in externaliserend probleemgedrag werd onderzocht middels een ANOVA. Eta kwadraat, η^2 , werd gebruikt als meting van de effectgrootte, met 0.01-.05 een klein, 0.06-.13 een middelmatig en >0.14 een groot effect (Cohen, 1988). De bivariaat Pearson correlatie werd gebruikt om de relatie tussen EF en externaliserend probleemgedrag bij de groepen FASD, FAS en pFAS te onderzoeken. Als meting van de effectgrootte werd de Pearson's coëfficiënt (r) gebruikt met 0.1 een klein, 0.3 een middelmatig en 0.5 een groot effect (Cohen, 1988). Het verschil tussen FAS en pFAS in de relatie tussen problemen met EF en externaliserend probleemgedrag werd onderzocht met een Fisherman z -transformatietest.

Resultaten

Beschrijvende Data

Demografische kenmerken. Van het totaal aantal patiënten van de FAS-poli voldeden 51 aan de inclusiecriteria, waaronder 10 met FAS (20%), 20 met pFAS (39%) en de overige 21 met een andere FASD diagnose (41%). Demografische kenmerken van de diagnostische groepen zijn weergegeven in tabel 1. De ANOVA liet geen significante verschillen zien tussen kinderen met FAS en kinderen met pFAS in leeftijd, $F(1, 28) = 2.798$, $p = .11$. De chikwadraattoets liet verder geen significante verschillen zien tussen beide groepen in geslacht, $\chi^2(1, N = 30) = 0.63$, $p = .429$, huidige leefsituatie, $\chi^2(1, N = 30) = 0.98$, $p = .81$, en soort basisschoolonderwijs, $\chi^2(1, N = 30) = 2.51$, $p = .64$.

EF EN EXTERNALISEREND PROBLEEMGEDRAG

Tabel 1

Demografische Kenmerken van de Diagnostische Groepen (FASD, FAS, pFAS)

Demografische karakteristieken	FASD		FAS		pFAS	
	<i>n</i>	%/ <i>M</i> (<i>SD</i>)	<i>n</i>	%/ <i>M</i> (<i>SD</i>)	<i>n</i>	%/ <i>M</i> (<i>SD</i>)
Geslacht						
Jongens	32	63%	7	70%	11	55%
Meisjes	19	37%	3	30%	9	45%
Leeftijd (jaren)		8.1 (1.25)		7.5 (1.27)		8.3 (1.2)
Huidige leefsituatie						
Pleeggezin	23	45%	3	30%	8	40%
Adoptiegezin	22	43%	6	60%	9	45%
Instelling	3	6%	1	10%	2	10%
Biologische ouders	3	6%	0	0%	1	5%
Basisschoolonderwijs						
Regulier	20	39%	5	50%	9	45%
Speciaal	31	61%	5	50%	11	55%

EF. In tabel 2 zijn de gemiddelde scores (*M*) en de standaarddeviaties (*SD*) voor de verschillende EF bij de diagnostische groepen weergegeven. Tevens is de verdeling in scores bij kinderen met FASD inzichtelijk gemaakt. Alle kinderen met FASD (100%) hadden problemen met hun executief functioneren, range 1-9.

EF EN EXTERNALISEREND PROBLEEMGEDRAG

Tabel 2

Executieve Functies bij de Diagnostische Groepen (FASD, FAS en pFAS)

Executieve Functies	FASD (<i>N</i> = 51)				FAS (<i>n</i> = 10)		pFAS (<i>n</i> = 20)		
	Totaalscore	Afwezig		Matige ernst		Ernstig		Totaalscore	Totaalscore
	<i>M</i> (<i>SD</i>)	<i>n</i>	%	<i>n</i>	%	<i>n</i>	%	<i>M</i> (<i>SD</i>)	<i>M</i> (<i>SD</i>)
Totale EF	6.45 (2.20)	0	0					5.40 (2.76)	6.50 (2.01)
Plannen en organiseren	1.31 (0.71)	7	13.7	21	41.2	23	45.1	0.90 (0.74)	1.50 (0.61)
Inhibitie	1.37 (0.75)	8	15.7	16	31.4	27	52.9	1.50 (0.71)	1.25 (0.72)
Emotieregulatie	1.27 (0.75)	9	17.6	19	37.3	23	45.1	0.90 (0.88)	1.35 (0.75)
Werkgeheugen	1.18 (0.71)	9	17.6	24	47.1	18	35.3	1.00 (0.82)	1.35 (0.75)
Cognitieve flexibiliteit	1.31 (0.76)	9	17.6	17	33.3	25	49.0	1.10 (0.88)	1.05 (0.76)

Externaliserend probleemgedrag. In tabel 3 zijn de gemiddelde scores (*M*) en de standaarddeviaties (*SD*) voor externaliserend probleemgedrag bij de diagnostische groepen weergegeven. Tevens is de verdeling in scores bij kinderen met FASD inzichtelijk gemaakt. Van het totaal aantal kinderen met FASD liet 90.2% externaliserend probleemgedrag zien, range 0-11.

EF EN EXTERNALISEREND PROBLEEMGEDRAG

Tabel 3

Externaliserend Probleemgedrag bij de Diagnostische Groepen (FASD, FAS en pFAS)

Externaliserend probleemgedrag	FASD (<i>N</i> = 51)				FAS (<i>n</i> = 10)		pFAS (<i>n</i> = 20)	
	Totaalscore	Afwezig	Matige ernst	Ernstig	Totaalscore	Totaalscore		
	<i>M</i> (<i>SD</i>)	<i>n</i> %	<i>n</i> %	<i>n</i> %	<i>M</i> (<i>SD</i>)	<i>M</i> (<i>SD</i>)		
Totaal EP ^a	2.78 (2.40)	5 9.8			2.00 (1.76)	2.65 (2.32)		
Naleven regels en opdrachten	1.06 (0.65)	9 17.6	30 58.8	12 23.5				
Fysieke agressie	1.37 (0.75)	31 60.8	12 23.5	8 15.7				
Stelen	0.37 (0.56)	34 66.7	15 29.4	2 3.9				
Verbale agressie	0.39 (0.695)	37 72.5	8 15.7	6 11.8				
Gemeen	1.18 (0.71)	42 82.4	9 17.6	0 0				
Vernielen	0.08 (0.27)	47 92.2	4 7.8	0 0				
Bedreigen	0.10 (0.41)	48 94.1	1 2.0	2 3.9				
Pesten	0.04 (0.28)	50 98.0	1 2.0	0 0				
Gevechten	0.02 (0.14)	50 98.0	1 2.0	0 0				

Noot. ^a EP = externaliserend probleemgedrag.

Verschil tussen FAS en pFAS

EF. De chi-kwadraattoets liet geen significante verschillen zien tussen kinderen met FAS en kinderen met pFAS in plannen en organiseren, $\chi^2(1, N = 30) = 5.16, p = .08$, inhibitie, $\chi^2(1, N = 30) = 0.30, p = .86$, emotieregulatie, $\chi^2(1, N = 30) = 2.34, p = .31$, werkgeheugen, $\chi^2(1, N = 30) = 0.10, p = .95$ en cognitieve flexibiliteit, $\chi^2(1, N = 30) = 0.94, p = .62$. In het totale executief functioneren liet de ANOVA eveneens geen significante verschillen zien tussen beide groepen, $F(1, 28) = 1.55, p = .22$.

Externaliserend probleemgedrag. De ANOVA liet geen significante verschillen zien tussen kinderen met FAS en kinderen met pFAS in de mate van externaliserend probleemgedrag, $F(1, 28) = 0.61, p = .44$.

Relatie tussen EF en Externaliserend Probleemgedrag

De Pearson correlatie liet een positieve relatie zien tussen problemen met EF en

EF EN EXTERNALISEREND PROBLEEMGEDRAG

externaliserend probleemgedrag bij kinderen met FASD, $r(49) = .52, p < .001, 95\% \text{ BI } [0.08, 1.07]$ met een groot effect. Problemen met EF verklaarden hierbij 26.8% van de variantie in externaliserend probleemgedrag. Ook bij kinderen met pFAS werd een positieve relatie aangetoond tussen problemen met EF en externaliserend probleemgedrag, $r(18) = .50, p = .025, 95\% \text{ BI } [0.297, 0.83]$ met een middelmatig effect. Problemen met EF verklaarden hierbij 25.1% van de variantie in externaliserend probleemgedrag. Bij kinderen met FAS liet de Pearson correlatie geen significante relatie zien, $r(8) = .48, p = .16, 95\% \text{ BI } [-0.15, 0.77]$. De Fisherman z -transformatietest liet geen significant verschil zien tussen kinderen met FAS en kinderen met pFAS in de relatie tussen problemen met EF en externaliserend probleemgedrag, $z = 0.06, p = .95$.

Discussie

Onderzocht is welk relatie bestaat tussen problemen met EF en externaliserend probleemgedrag bij kinderen met FASD, en in hoeverre deze relatie verschilt voor kinderen met FAS en kinderen met pFAS. Alle kinderen met FASD bleken problemen te hebben met EF (plannen en organiseren, inhibitie, emotieregulatie, werkgeheugen en cognitieve flexibiliteit). Externaliserend probleemgedrag bleek bij 90.2 % van het totaal aantal kinderen met FASD aanwezig te zijn, waarbij het voornamelijk ging om problemen met het naleven van regels en opdrachten opgevolgd door fysieke agressie, steelgedrag en verbale agressie. Zoals verwacht werd een positieve relatie gevonden tussen problemen met EF en externaliserend probleemgedrag bij kinderen met FASD. Hierbij werd 26.8% van de variantie in externaliserend probleemgedrag verklaard door problemen met EF en dit is een groot effect. Ook bij kinderen met pFAS werd een positieve relatie aangetoond. Problemen met EF verklaarden namelijk 25.1% van de variantie in externaliserend probleemgedrag en dit is een middelmatig effect. Bij kinderen met FAS werd geen significante relatie gevonden, maar dit is mogelijk te verklaren door de kleine omvang van de onderzoeksgroep ($n = 10$), aangezien dit het vinden van statistisch significante resultaten bemoeilijkt. Bij een kleine N kunnen namelijk alleen zeer grote effecten statistisch significant zijn (Neuman, 2012). Kinderen met FAS en kinderen met pFAS bleken, zoals verwacht, niet significant te verschillen in de relatie tussen problemen met EF en externaliserend probleemgedrag. In overeenstemming met eerder onderzoek (Green et al., 2009; Kodituwakku et al., 2001) bleken beide groepen ook niet significant te verschillen in de mate van problemen met de verschillende EF en in het totale executief functioneren. Hetzelfde bleek te gelden voor externaliserend probleemgedrag, overeenstemmend met onderzoek van Chasnoff en collega's (2010). Als verklaring kan

EF EN EXTERNALISEREND PROBLEEMGEDRAG

worden geboden dat kinderen met FAS en kinderen met pFAS mogelijk homogeen zijn in de afwijkingen aan het centrale zenuwstelsel die in het frontaal hersengebied volgens Eslinger, Biddle, Pennington en Page (1999) verantwoordelijk zijn voor executieve functiestoornissen en gedragsproblemen. Een alternatieve verklaring voor het ontbreken van verschillen is dat deze nog niet zichtbaar zijn, aangezien de frontale hersengebieden zich blijven ontwikkelen tot in de jonge volwassenheid (Smidts, 2003) en heterogeniteit tussen FAS en pFAS mogelijk nog tot uiting moet komen.

Sterke Punten, Limitaties en Aanbevelingen

Een sterk punt van dit onderzoek is dat het inzicht geeft in het executief functioneren en externaliserend probleemgedrag bij kinderen met FASD, waar tot op heden nog geen onderzoek in Nederland naar is verricht. Ook is sprake van een goede interbeoordelaarsbetrouwbaarheid. Een limitatie van dit onderzoek is dat er sprake is van informatiebias, aangezien de behaalde scores op EF en externaliserend probleemgedrag zijn gebaseerd op hetgeen wat beschreven staat in de dossiers. Deze dossiers waren niet met onderzoeksdoeleinden opgesteld en een systematische volgorde in het rapporteren over het executief functioneren en externaliserend probleemgedrag ontbrak. Mogelijk zijn niet alle gebieden voldoende uitgevraagd of is er onvoldoende over gerapporteerd, waardoor de informatie selectief of ontoereikend kan zijn geweest. Dit kan een vertekend beeld geven van de resultaten. Ook lijkt sprake te zijn van selectiebias, aangezien patiënten zich wenden tot de FAS-poli vanwege de problemen die zij ervaren. Waarschijnlijk worden dus kinderen met FASD gemist die hier minder last van hebben. Verder is de inhoudsvaliditeit en externe validiteit beperkt, omdat geen gestandaardiseerde instrumenten zijn gebruikt en alleen dossiers van de FAS-poli in Zutphen zijn geïnccludeerd. Tot slot is als limitatie te noemen dat er geen controlegroep is opgenomen.

Geadviseerd wordt om bij toekomstig onderzoek gebruik te maken van een controlegroep en van gestandaardiseerde en liefst genormeerde instrumenten zoals de Behavior Rating Inventory of Executive Function (Gioia et al., 2000) en de Gedragsvragenlijst voor kinderen (Verhulst, van der Ende & Koot, 1996), zodat beter onderzocht kan worden in hoeverre het executief functioneren en het gedrag van kinderen met FASD normafwijkend is en in welke mate de verschillende EF samenhangen met externaliserend probleemgedrag. Ook is het interessant om vergelijkbaar onderzoek te doen bij adolescenten met FASD, omdat in de adolescentiefase meer verantwoordelijkheid en zelfstandigheid wordt gevraagd waardoor de discrepantie tussen de mogelijkheden van de

EF EN EXTERNALISEREND PROBLEEMGEDRAG

jeugdige en hetgeen wat de omgeving verwacht groter is en mogelijk resulteert in een toename in problemen. Tot slot is het gewenst om psychometrisch onderzoek te doen gericht op het ontwikkelen van betrouwbare en valide meetinstrumenten om tekortkomingen in de EF al op jonge leeftijd vast te kunnen stellen. Uit onderzoek blijkt namelijk dat het tot dusver lastig is om al op jonge leeftijd EF te testen en hier een gedegen uitspraak over te doen (Smidts, 2003).

Praktische Implicaties

Het ontwikkelen en beschikbaar maken van meer effectieve interventies voor kinderen met FASD is gewenst. Op basis van dit onderzoek wordt geadviseerd om intensieve thuisbegeleiding in te zetten, waarbij ouders communicatieve technieken worden aangereikt om het opstandige gedrag van het kind met FASD te reguleren. Consequente begrenzing door ouders dient een centraal aangrijpingspunt zijn, aangezien kinderen op deze manier adequate gedragsstandaarden leren, wat de ontwikkeling van gedragsregulerende EF bevordert (Morales, Mundy, Crowson, Neal & Delgado, 2005). Verder wordt aangeraden om geen onderscheid te maken in behandelprogramma's voor kinderen met FAS en kinderen met pFAS. Wat betreft geïndiceerde preventie van externaliserend probleemgedrag moet worden gedacht aan het inzetten van vroegkinderlijke interventieprogramma's met stimulering in de directe omgeving van het kind met FASD, omdat EF dan nog in ontwikkeling en zodoende veranderbaar zijn. Ook moet meer bekendheid over FASD in Nederland komen, zodat het stellen van een vroege diagnose mogelijk wordt, aangezien dit een protectieve werking heeft voor de ontwikkeling van secundaire beperkingen (Streissguth, 1997). Tot slot moet worden gedacht aan universele preventie van FASD, waarbij meer bewustwording wordt gecreëerd over de gevolgen van prenatale blootstelling aan alcohol. Als advies moet worden gegeven dat geen alcoholhoudende dranken gebruikt mogen worden vanaf het moment dat de vrouw zwanger probeert te worden tot het moment dat ze stopt met borstvoeding (Gezondheidsraad, 2005).

Conclusie

Concluderend kan worden gesteld dat kinderen met FASD problemen hebben met EF van waaruit het externaliserend probleemgedrag verklaard kan worden en de subgroepen FAS en pFAS verschillen hier niet in. De inzet van vroegkinderlijke interventieprogramma's kan mogelijk bijdragen aan het voorkomen van executieve functie- en gedragsproblemen.

Referenties

- Altman, D. G. (1991). *Practical statistics for medical research*. London: Chapman and Hall.
- Anderson, P., Anderson, V. & Lajoie, G. (1996). The Tower of London Test: validation and standardization for pediatric populations. *The Clinical Neuropsychologist*, *10*, 54-65. doi: 10.1080/13854049608406663
- Astley, S. J., & Clarren, S. K. (2000). Diagnosing the full spectrum of fetal alcohol-exposed individuals: introducing the 4-digit diagnostic code. *Alcohol & Alcoholism*, *35*, 400-410. doi: 10.1093/alcalc/35.4.400
- Astley, S. J., Olson, H. C., Kerns, K., Brooks, A., Aylward, E. H., Coggins, T. E., . . . Richards, T. (2009). Neuropsychological and behavioral outcomes from a comprehensive magnetic resonance study of children with Fetal Alcohol Spectrum Disorders. *Canadian Society of Pharmacology and Therapeutics*, *16*, 178-201. doi: 10.1111/j.1530-0277.2009.01004.x
- Autti-Rämö, I., Fagerlund, A., Ervalahti, N., Loimu, L., Korkman, M., & Hoyme, E. (2006). Fetal Alcohol Spectrum Disorders in Finland: clinical delineation of 77 older children and adolescents. *American Journal of Medical Genetics*, *140*, 137-143. doi: 10.1002/ajmg.a.31037
- Chasnoff, I. J., Wells, A. M., Telford, E., Schmidt, C., & Messer, G. (2010). Neurodevelopmental functioning in children with FAS, pFAS and ARND. *Journal of Developmental & Behavioral Pediatrics*, *31*, 192-201. doi: 10.1097/DBP.0b013e3181d5a4e2
- Cohen, J. (1988). *Statistical power analysis for the behavioral sciences*. 2nd ed. Hillsdale, New Jersey: Erlbaum.
- Eisenberg, N., Sadovsky, A., Spinrad, T. L., Fabes, R. A., Shephard, S. A., Reiser, M., . . . Guthrie, I. K. (2001). The relations of regulation and emotionality to children's externalizing and internalizing problem behavior. *Child Development*, *72*, 1112-1134. doi: 10.1111/1467-8624.00337
- Ellis, M. L., Weis, B., & Lochman, J. E. (2009). Executive functions in children: associations with aggressive behavior and appraisal processing. *Journal of Abnormal Child Psychology*, *37*, 945-956. doi: 10.1007/s10802-009-9321-5
- Eslinger, P. J., Biddle, K., Pennington, B. F., & Page, R. B. (1999). Cognitive and behavioral development up to 4 years after early right frontal lobe lesion. *Developmental Neuropsychology*, *15*, 157-191. doi: 10.1080/87565649909540744

EF EN EXTERNALISEREND PROBLEEMGEDRAG

- Fagerlund, A., Autti-Rämö, I., Hoyme, H. E., Mattson, S. N., & Korkman, M. (2011). Risk factors for behavioral problems in Fetal Alcohol Spectrum Disorders. *Foundation Acta Paediatrica*, *100*, 1481-1488. doi: 10.1111/j.1651-2227.2011.02354.x
- Gezondheidsraad. (2005). *Risico's van alcoholgebruik bij conceptie, zwangerschap en borstvoeding*. Retrieved from <http://www.gezondheidsraad.nl/sites/default/files/04@22n.pdf>
- Gioia, G., Isquit, P. K., Guy, S. C., & Kenworthy, L. (2000). Behavior Rating Inventory of Executive Function. *Child Neuropsychology*, *6*, 235-238. doi: 10.1076/chin.6.3.235.3152
- Green, C. R., Mihic, A. M., Nikkel, S. M., Stade, B. C., Rasmussen, C., Munoz, D. P., & Reynolds, J. N. (2009). Executive function deficits in children with Fetal Alcohol Spectrum Disorders (FASD) measured using the Cambridge Neuropsychological Tests Automated Battery (CANTAB). *Journal of Child Psychology*, *50*, 688-697. doi: 10.1111/j.1469-7610.2008.01990.x
- Hoyme, H. E., May, P. A., Kalberg, W. O., Kodituwakku, P., Gossage, P., Trujillo, P. M., . . . Robinson, L. K. (2005). A practical clinical approach to diagnosis of Fetal Alcohol Spectrum Disorders: clarification of the 1996 Institute of Medicine criteria. *Pediatrics*, *115*, 39-47. doi: 10.1542/peds.2004-0259
- Hughes, C., & Ensor, R. (2008). Does executive function matter for preschoolers' problem behaviors? *Journal of Abnormal Child Psychology*, *36*, 1-14. doi: 10.1007/s10802-007-9107-6
- Kodituwakku, P. W., May, P. A., Clericuzio, C. L., & Weers, D. (2001). Emotion-related learning in individuals prenatally exposed to alcohol: an investigation of the relation between set shifting, extinction of responses and behavior. *Neuropsychologia*, *39*, 699-708. doi: 10.1016/S0028-3932(01)00002-1
- McGee, C. L., Fryer, S. L., Bjorkquist, O. A., Mattson, S. N., & Riley, E. P. (2008). Deficits in social problem solving in adolescents with prenatal exposure to alcohol. *The American Journal of Drug and Alcohol Abuse*, *34*, 423-431. doi: 10.1080/00952990802122630
- Morales, M., Mundy, P., Crowson, M. M., Neal, R., & Delgado, C. E. F. (2005). Individual differences in infant attention skills, joint attention and emotion regulation behavior. *International Journal of Behavioral Development*, *29*, 259-263. doi:10.1080/01650250444000432

EF EN EXTERNALISEREND PROBLEEMGEDRAG

- Moffitt, T. E. (1993). Adolescence-limited and life-course-persistent antisocial behavior: a developmental taxonomy. *Psychological Review*, *100*, 674-701. Retrieved from http://www.colorado.edu/ibs/jessor/psych7536-805/readings/moffitt-1993_674-701.pdf
- Neuman, W. L. (2012). *Understanding research*. Boston: Pearson Education.
- Ogilvie, J. M., Stewart, A. L., Chan, R. C. K., & Shum, D. H. K. (2011). Neuropsychological measures of executive function and antisocial behavior: a meta-analysis. *Criminology*, *49*, 1063-1107. doi: 10.1111/j.1745-9125.2011.00252.x
- Peadon, E., Rhys-Jones, B., Bower, C., & Elliott E. J. (2009). Systematic review of interventions for children with Fetal Alcohol Spectrum Disorders. *BioMed Central Pediatrics*, *9*, 1-9. doi: 10.1186/1471-2431-9-35
- Pei, J., Job, J., Kully-Martens, K., & Rasmussen, C. (2011). Executive function in children with Fetal Alcohol Spectrum Disorder. *Child Neuropsychology*, *17*, 290-309. doi: 10.1080/09297049.2010.544650
- Quattlebaum, J. L., & O'Connor, M. J. (2013). Higher functioning children with prenatal alcohol exposure: is there a specific neurocognitive profile? *Child Neuropsychology*, *19*, 561-578. doi: 10.1080/09297049.2012.713466
- Rasmussen, C., & Bisanz, J. (2009). Executive functioning in children with Fetal Alcohol Spectrum Disorders: profiles and age-related differences. *Child Neuropsychology*, *15*, 201-215. doi: 10.1080/09297040802385400
- Rasmussen, C., McAuley, R., & Andrew, G. (2007). Parental ratings of children with Fetal Alcohol Spectrum Disorder on the Behavior Rating Inventory of Executive Function (BRIEF). *Journal of FAS*, *5*, 1-8. Retrieved from http://www.motherisk.org/JFAS_documents/JFAS6023F_e2.pdf
- Rasmussen, C., Tamana, S., Baugh, L., Andrew, G., Tough, S., & Zwaigenbaum, L. (2013). Neuropsychological impairments on the NEPSY- II among children with FASD. *Child Neuropsychology*, *19*, 337-349. doi: 10.1080/09297049.2012.658768
- Sampson, P. D., Streissguth, A. P., Bookstein, F. L., & Barr, H. M. (2000). On categorizations in analyses of alcohol teratogenesis. *Environmental Health Perspectives*, *108*, 421-428. doi: 10.2307/3454531
- Schoemaker, K., Mulder, H., Deković, M., & Matthys, W. (2013). Executive functions in preschool children with externalizing behavior problems: a meta-analysis. *Journal of Abnormal Child Psychology*, *41*, 457-471. doi: 10.1007/s10802-012-9684-x

EF EN EXTERNALISEREND PROBLEEMGEDRAG

- Smidts, D. (2003). Executieve functies van geboorte tot adolescentie: een literatuuroverzicht. *Neuropraxis*, 7, 113-119. doi:10.1007/BF03099824
- Streissguth, A. P. (1997) *Fetal Alcohol Syndrome: a guide for families and communities*. Baltimore: Paul H. Brookes Publishing Co.
- Streissguth, A. P., Bookstein, F. I., Barr, H. M., Sampson, P. D., O'Malley, K. M., & Young, J. K. (2004). Risk factors for adverse life outcomes in Fetal Alcohol Syndrome and fetal alcohol effects. *Journal of Developmental & Behavioral Pediatrics*, 25, 228-238. doi: 0196-206X/00/2504-0228
- Supplee, L. H., Skuban, E. M., Shaw, D. S. & Prout, J. (2009). Emotion regulation strategies and later externalizing behavior among European American and African American children. *Development and Psychopathology*, 21, 393-415. doi: 10.1017/S0954579409000224
- Verhulst, F. C., Ende, J. van der., & Koot, H. M. (1996). *Handleiding voor de CBCL/4-18*. Rotterdam: Sophia Kinderziekenhuis, Erasmus MC.
- Wieringen, H. van., Letteboer, T. G. W., Rodrigues Pereira, R., Ruiters, S. de., Balemans, W., & Lindhout, D. (2010). Diagnostiek van Foetale Alcohol Spectrumstoornissen. *Nederlands Tijdschrift voor Geneeskunde*, 154, 1597-1604. Retrieved from: <http://www.ntvg.nl/artikelen/diagnostiek-van-foetale-alcoholspectrumstoornissen>