

Taalvaardigheid van kinderen met 22q11DS en TOS

Een vergelijking van de receptieve taalvaardigheid op het gebied van grammatica van kinderen met 22q11DS en TOS

Masterscriptie Meertaligheid en Taalverwerving

Student: Marten Giezeman

Studentnummer: 4248635

1^{ste} lezer: Dr. Jacomine Nortier

2^{de} lezer: Dr. Tessel Boerma

Juli 2019

Abstract

Kinderen met het 22q11.2 deletiesyndroom (22q11DS) hebben last van uiteenlopende beperkingen, waaronder vaak een taalachterstand. Die taalachterstand komt mogelijk overeen met die van kinderen met taalontwikkelingsstoornis (TOS). In dit onderzoek is één gebied van de taal onderzocht, de receptieve grammatica, met behulp van de Coloring Book-test. Kinderen met 22q11DS (gemiddelde leeftijd 8;9 jaar) en kinderen met TOS (gemiddelde leeftijd 8;3 jaar) bleken beiden minder vaardig op het gebied van receptieve grammatica dan typisch ontwikkelende kinderen (gemiddelde leeftijd 7;7 jaar). Kinderen met 22q11DS en kinderen met TOS scoorden ten opzichte van elkaar niet significant verschillend op de gehele test, maar wel op het subonderdeel *aspect*. Op dat subonderdeel scoorden de kinderen met 22q11DS gemiddeld lager dan de kinderen met TOS. Op alle andere onderdelen was er geen significant kwantitatief verschil en ook kwalitatief maken beide groepen dezelfde fouten. Dit onderzoek wijst dus grotendeels op een overeenkomend taalprofiel voor kinderen met 22q11DS en kinderen met TOS, maar het verschil op het deelgebied *aspect* mag niet genegeerd worden. Er zal nader onderzoek gedaan moeten worden naar de oorzaak van de extra achterstand op het gebied van *aspect* van kinderen met 22q11DS ten opzichte van kinderen met TOS. Logopedisten kunnen bij hun behandeling en diagnose rekening houden met dit verschil.

Inhoudsopgave

| | |
|---|----|
| 1 Inleiding | 3 |
| 2 Theoretisch kader | 4 |
| 2.1 Wat is 22q11DS | 4 |
| 2.2 22q11DS en taal | 4 |
| 2.2.1 Taalproblemen bij 22q11DS | 4 |
| 2.2.2 Oorzaken van de taalproblemen bij 22q11DS | 5 |
| 2.3 22q11DS en TOS | 6 |
| 2.4 Onderzoeksvraag en hypothese | 7 |
| 3 Methode | 8 |
| 3.1 Participanten | 8 |
| 3.2 Coloring Book | 8 |
| 3.2.1 Werking coloring book | 8 |
| 3.2.2 Controlevragen | 9 |
| 3.2.3 Aspect | 9 |
| 3.2.4 Actief/passief | 9 |
| 3.2.5 Binding | 9 |
| 3.2.6 Terugverwijzen met ze | 10 |
| 3.3 Controlegroep | 11 |
| 4 Resultaten | 12 |
| 4.1 Controlevragen | 12 |
| 4.2 22q11DS en TOS | 12 |
| 4.3 22q11DS, TOS en controlegroep | 12 |
| 4.4 Aspect | 13 |
| 4.5 Actief/passief | 14 |
| 4.6 Binding | 15 |
| 4.7 Goede 'foute' opdrachten | 15 |
| 4.8 IQ | 16 |
| 5 Discussie | 17 |
| 5.1 Beantwoording van de hoofdvraag | 17 |
| 5.2 De aard van de achterstand | 18 |
| 5.3 Constructvaliditeit bij aspect | 18 |
| 5.4 22q11DS en TOS: een ander patroon? | 20 |
| 6 Conclusie | 21 |
| 7 Bibliografie | 22 |
| 8 Bijlage 1 | 23 |

1 Inleiding

Mensen met het 22q11.2 deletiesyndroom (22q11DS, ook wel velo-cardial-facial syndrome) hebben last van allerlei beperkingen. Om deze mensen zo goed mogelijk te helpen, is het van belang dat er zoveel mogelijk over de aard van de beperkingen bekend is. Eén van de beperkingen, is een taalachterstand. Een uitgebreider beeld van de beperkingen wordt gegeven in hoofdstuk 2. Als goed in kaart gebracht wordt op welke gebieden er een achterstand is, kunnen logopedisten en docenten inspelen op de achterstand. Taalachterstand is een beperkende factor voor communicatie, maar lage taalvaardigheid correleert bijvoorbeeld ook met een hoge kans op schizofrenie of psychoses (Antshel et al., 2009). Het is dus van belang dat achterstand op tijd gedetecteerd wordt en dat er hulp wordt geboden bij het inhalen van de achterstand. Deze masterscriptie zal gaan over een gedeelte van de taal: de receptieve vaardigheid in grammatica. De prestaties van kinderen met het 22q11.2 deletiesyndroom worden vergeleken met die van typisch ontwikkelende kinderen (*typical developing*; TD) en kinderen met een taalontwikkelingsstoornis (TOS), zodat de vaardigheid op dit gebied goed vastgesteld kan worden. In hoofdstuk 2 wordt besproken wat er bekend is over 22q11DS op het gebied van talige en andere beperkingen, wat er bekend is over 22q11DS in vergelijking met TOS en waarom het patroon van 22q11DS en van TOS worden vergeleken. In hoofdstuk 3 wordt beschreven hoe het experiment is opgezet waarin de receptieve grammaticale taalvaardigheid van kinderen met 22q11DS wordt gemeten en wordt vergeleken met de vaardigheid van kinderen met een TOS en met de vaardigheid van typisch ontwikkelende kinderen. Hoofdstuk 4 geeft de resultaten van het onderzoek. In hoofdstuk 5 worden de resultaten vervolgens geïnterpreteerd en wordt bekeken of de onderzoeksvraag beantwoord kan worden en of de hypothesen worden bevestigd door de resultaten. Hoofdstuk 6 geeft de conclusie.

2 Theoretisch kader

In dit hoofdstuk worden eerst de kenmerken van 22q11DS besproken. Vervolgens wordt besproken wat er al bekend is over de beperkingen op het gebied van taal bij kinderen met 22q11DS en in hoeverre de talige achterstand van kinderen met 22q11DS overeenkomt met de achterstand van kinderen met TOS. Daaruit volgen de onderzoeksvraag en de hypothesen.

2.1 22q11DS

Het 22q11.2 deletiesyndroom (22q11DS) wordt veroorzaakt door een microdeletie op chromosoom 22. Mensen met het syndroom hebben last van uiteenlopende beperkingen, bijvoorbeeld van een hartafwijking, een gespleten gehemelte of gehoorproblemen en hebben een verhoogd risico op schizofrenie (Shprintzen, 2008; Antshel et al., 2009). Er is geen beperking die alle mensen met 22q11DS gemeen hebben en er is dus een zeer heterogeen ziektebeeld. Het gemiddelde IQ van mensen met het syndroom is 70-75 (Antshel et al., 2009). Schattingen over het percentage levend geboren met 22q11DS lopen uiteen, maar 22q11DS is een veelvoorkomend syndroom. Shprintzen (2008) stelt dat 1 op de 2000 bij de geboorte met 22q11DS wordt gediagnostiseerd in de VS en dat het zelfs bij ongeveer 1:1600 moet voorkomen, vanwege het feit dat niet elke baby met 22q11DS bij de geboorte getest wordt op het syndroom. Bijna een kwart van de baby's met het syndroom heeft geen hartafwijking of *overt* of *obvious submucous cleft palate* en als een kind bij de geboorte geen hartafwijking of niet-verborgen gespleten gehemelte heeft, wordt het niet direct getest op 22q11DS. Met de FISH-test (Fluorescence In Situ Hybridization), die wordt gebruikt om kinderen op dit syndroom te testen, kan met 100% zekerheid vastgesteld worden of iemand 22q11DS heeft.

2.2 22q11DS en taal

2.2.1 Taalproblemen bij 22q11DS

Bij kinderen met 22q11DS zijn door verschillende onderzoekers ook taalproblemen vastgesteld, al is er nog relatief weinig onderzoek naar gedaan. Vooral over receptieve taalvaardigheid is nog weinig bekend, maar de meeste gegevens wekken de suggestie dat receptieve taalvaardigheid relatief sterker is dan expressieve¹ (Antshel et al., 2009). De ontwikkeling van zowel receptieve als expressieve taalvaardigheid is echter vertraagd bij kinderen met 22q11DS vergeleken met normaal ontwikkelende kinderen.

Glaser et al. (2002) vonden dat receptieve taalvaardigheid juist zwakker was dan expressieve taalvaardigheid voor kinderen met 22q11DS. Bij de controlegroep, die bestond uit kinderen met *development delay* (gemiddeld IQ = 70, geen autisme/psychose) was de expressieve taalvaardigheid zwakker dan de receptieve. Als mogelijke verklaring voor het verschil tussen dit en voorgaand onderzoek, geven Glaser et al. (2002) dat de gemiddelde leeftijd van de participanten (in dit onderzoek 12;4 jaar) hoger lag dan bij andere onderzoeken (Gerdes et al. (1999), gemiddelde leeftijd 2;4 jaar en Moss et al. (1999), gemiddelde leeftijd 10;4 jaar). Expressieve taalvaardigheid ontwikkelt zich mogelijk pas later, terwijl er voor receptieve taalvaardigheid al een plafondeffect is. Leeftijd is dus een belangrijke factor bij de interpretatie van resultaten van onderzoek naar kinderen met 22q11DS.

Een andere mogelijk verklaring is volgens Glaser et al. (2002) de manier van testen. Oudere kinderen krijgen een andere CELF-test (Clinical Evaluation of Language Fundamentals) dan jongere kinderen. Er zit voor kinderen van boven de 9 jaar een receptieve opdracht in die abstract redeneren vereist. Wellicht scoren kinderen onder de 9 jaar met 22q11DS op de receptieve opdrachten nog relatief

¹ Expressief taalgebruik wordt ook wel productief taalgebruik genoemd

goed omdat die opdrachten vrij concreet zijn en is de lagere receptieve taalvaardigheid die in het onderzoek van Glaser et al. (2002) gevonden is, te wijten aan een beperking in abstract redeneren.

2.2.2 Oorzaken van de taalproblemen bij 22q11DS

Antshel et al. (2009) stellen dat taalachterstand een rechtstreeks gevolg zou kunnen zijn van de deletie op het chromosoom, maar dat taalachterstand ook een secundair gevolg zou kunnen zijn van andere problemen die de deletie veroorzaakt, bijvoorbeeld problemen met het gehemelte. Veel kinderen met 22q11DS hebben *velopharyngeal insufficiency* (VPI), waarbij de neusholte niet goed wordt afgesloten door het velum. De intra-orale druk is bij 75% van de kinderen met 22q11DS verlaagd en daardoor is de articulatie en begrijpelijkheid van de uitingen van de kinderen minder goed. Als luisteraars de uitingen van kinderen niet begrijpen, kunnen kinderen hun boodschap niet via taaluitingen overbrengen en zou het zo kunnen zijn dat ze lange of ingewikkelde taaluitingen gaan vermijden, waardoor de expressieve taal zich minder goed ontwikkelt.

Op basis van resultaten van Scherer et al. (1999) concluderen Antshel et al. (2009) echter toch dat de taalachterstand een primair gevolg van de deletie moet zijn. Kinderen met 22q11DS en VPI scoren lager op receptieve en expressieve taalvaardigheid dan kinderen zonder 22q11DS maar met VPI. Kinderen met 22q11DS hadden gemiddeld een lager IQ, maar het verschil in taalvaardigheid was groter dan verwacht werd op basis van IQ-scores.

Een andere factor die volgens Antshel et al. (2009) mogelijk van invloed is op de taalvaardigheid, is gehoorproblemen. 75% van de kinderen heeft last van *intermittent conductive hearing loss*. Gehoorverlies kan van invloed zijn op de taalvaardigheid, omdat er dan minder input is. Bij kinderen met 22q11DS is er echter nog onvoldoende onderzoek gedaan naar de correlatie tussen gehoorverlies en taalvaardigheid. Het is aannemelijk dat gehoorverlies verantwoordelijk is voor een deel van de taalachterstand, maar het is niet bekend hoe groot de invloed van gehoorverlies is.

Vicari et al. (2012) betoogden dat een laag IQ de enige veroorzaker is van taalachterstand bij kinderen met 22q11DS. Zij vonden dat kinderen met 22q11DS significant lager scoorden op taken voor receptieve en expressieve grammatica dan TD'ers die op mentale leeftijd waren gematcht (chronologische gemiddelde leeftijd 22q11DS = 9;7 jaar, TD = 6;8 jaar). Voor receptieve grammatica was de effectgrootte groot, voor expressieve grammatica was de effectgrootte gemiddeld (vergelijkbaar met de resultaten van Glaser et al. (2002), tegengesteld aan die van Antshel et al. (2009).

Bij matching op chronologische leeftijd bleek dat kinderen met 22q11DS en een *intellectual disability* (ID, met een IQ lager dan 75) significant lager scoorden dan TD'ers op de morfo-syntactische taken (zowel receptief als expressief), terwijl kinderen met 22q11DS maar zonder verstandelijke beperking (niet-ID) niet significant lager scoorden dan TD'ers. De auteurs concludeerden dat lage intelligentie de morfo-syntactische problemen veroorzaakt en dat er geen specifiek taalprobleem is bij kinderen met 22q11DS. Gezien de resultaten van deze test is die conclusie echter in twijfel te trekken. De scores voor receptieve grammatica waren bijvoorbeeld als volgt:

| | |
|-------------------------|------|
| TD | 92,1 |
| niet-ID'ers met 22q11DS | 81,3 |
| ID'ers met 22q11DS | 71,7 |

Er werd geen significant verschil tussen TD en Niet-ID gevonden, maar de score van niet-ID zit precies tussen die van ID en TD in en bovendien werd er ook geen significant verschil tussen ID en Niet-ID gevonden. Concluderen dat er geen talige achterstand is als er normale intelligentie is, lijkt op basis van deze gegevens dus onverstandig. Deze resultaten lijken er juist op te duiden dat IQ wel één van de factoren is die van invloed is op taalvaardigheid, maar dat het niet de enige factor kan

zijn die van invloed is op de lagere taalvaardigheid van kinderen met 22q11DS.

De resultaten van de besproken onderzoeken wijzen erop dat taalachterstand op zijn minst deels primair wordt veroorzaakt door de deletie op het chromosoom. Daardoor is het voor het inhalen van de taalachterstand onvoldoende om alleen aandacht te hebben voor andere primaire beperkingen waardoor taalachterstand als secundair gevolg bijtrekt tot een normaal niveau. Er zal aandacht moeten zijn voor de taalontwikkeling zelf.

2.3 22q11 en TOS

TOS (ook specific language impairment (SLI) genoemd) is een ontwikkelingsstoornis waarbij kinderen moeite hebben taal te verwerven en te gebruiken, zonder dat er een oorzaak aan ten grondslag ligt op het gebied van horen, intelligentie, emotie of neurologie (Evans et al., 2009). In tegenstelling tot bij 22q11DS is er bij TOS geen aanwijsbare genetische oorzaak. Over hoe de stoornis ontstaat, verschillen de meningen (Evans et al., 2009). Receptieve grammatica is één van de gebieden waarop er achterstand kan zijn, net als bijvoorbeeld expressieve grammatica en expressieve woordenschat (Snowling et al. 2016).

De taalvaardigheid van kinderen met 22q11DS wordt in de literatuur vaker vergeleken met de taalvaardigheid van kinderen met TOS. Persson et al. (2006) deden bijvoorbeeld onderzoek naar expressieve taalvaardigheid en vonden bij kinderen van 5 tot 8 jaar met 22q11DS een kortere gemiddelde zinslengte dan bij TD-kinderen of kinderen met TOS bij het navertellen van een verhaal (Bus Story Test). Uit hun onderzoek bleek echter ook dat er bij productie maar weinig morfo-syntactische fouten werden gemaakt door kinderen met 22q11DS in vergelijking met kinderen met TOS. 4% van de uitingen van kinderen met 22q11DS bevatten morfo-syntactische fouten, tegenover 67% van de uitingen van kinderen met TOS. Wellicht speelden de kortere uitingen daarbij een rol.

Goorhuis-Brouwer et al. (2003) bespreken vier case-study's van mensen met 22q11DS bij wie de taalproductie van een zeer laag niveau is, ondanks dat ze qua IQ en receptieve grammatica op een normaal niveau zitten. Zij stellen dat deze mensen behalve 22q11DS ook SLI (TOS) hebben, omdat ze lager scoren dan op basis van IQ werd verwacht.

Kambanaros & Grohmann (2017) vergeleken de taalvaardigheid van een Cypriotisch kind met 22q11DS op 6- en 10-jarige leeftijd met de taalvaardigheid van een groep kinderen met TOS en van een TD-groep. Het kind met 22q11DS scoorde op veel taaltests significant slechter dan de kinderen uit de TD-groep, bijvoorbeeld op receptieve en expressieve grammatica. Vergeleken met kinderen met TOS waren er echter maar weinig significante verschillen. Ze vonden een hogere MLU (mean length of utterance) bij het kind met 22q11DS op 6-jarige leeftijd (tegenstrijdig met de resultaten van Persson et al. (2006)) en vonden op 6-jarige leeftijd een lagere score op zinnen herhalen bij het kind met 22q11DS. Zowel op receptieve als op expressieve grammatica bij 6 en bij 10 jaar scoorde het kind met 22q11DS lager dan de kinderen met TOS, maar die verschillen waren niet significant. De p-waardes waren echter wel telkens kleiner dan 0.15. Op basis van deze resultaten opteren Kambanaros & Grohmann (2017) voor een onderscheidend taalprofiel voor kinderen met 22q11DS. Ze stellen dus dat kinderen met 22q11DS net als kinderen met TOS een taalachterstand hebben, maar dat die achterstand anders van aard is. Persson et al. (2006) vonden ook verschillen tussen de achterstand van kinderen met 22q11DS en kinderen met een TOS en leverden zo ook bewijs voor een verschillend profiel. Goorhuis-Brouwer et al. (2003) betoogden juist dat kinderen met 22q11DS soms een TOS hebben en stelden dus dat de aard van de taalachterstand vergelijkbaar was.

Zoals eerder vermeld is het ziektebeeld bij 22q11DS erg heterogeen. Het lijkt dus onverstandig om op basis van een case-study te bepalen of kinderen met 22q11DS en met TOS een overeenkomende taalachterstand hebben. Kambanaros & Grohmann (2017) geven aan dat het van groot belang is voor logopedisten om te weten of de twee groepen een overeenkomende taalachterstand hebben en TOS dus één van de beperkingen van iemand met 22q11DS kan zijn, of dat mensen met 22q11DS een andersoortige taalachterstand hebben. Zij moeten hun behandeling hier mogelijk op aanpassen. Bovendien kan een afwijkende taalachterstand mogelijk helpen bij het diagnosticeren van 22q11DS, als er nog geen diagnose is gesteld doordat er geen sprake is van een hartafwijking of gespleten gehemelte. Om die reden zullen de prestaties van kinderen met 22q11DS in dit onderzoek vergeleken worden met die van kinderen met TOS.

2.4 Onderzoeksvraag en hypothesen

Vanwege de niet-eenduidige resultaten van de onderzoeken die in het theoretisch kader zijn gepresenteerd, zal ik me in dit onderzoek richten op de vraag:

Hoe goed is de taalvaardigheid op het gebied van receptieve grammatica van kinderen met 22q11DS in vergelijking met kinderen met TOS en met een controlegroep van TD-kinderen?

Receptieve grammatica is een onderdeel waar volgens Antshel et al. (2009) nog relatief weinig onderzoek naar is gedaan. Vanuit de literatuur (Antshel et al., 2009; Vicari et al., 2012, Snowling et al., 2016) verwacht ik (1) dat zowel kinderen met 22q11DS als kinderen met TOS lager scoren op tests voor receptieve grammatica dan de controlegroep met normaal ontwikkelende kinderen. Het is moeilijker te voorspellen of er verschil zal zijn tussen de kinderen met 22q11DS en met TOS, omdat er in de literatuur geen consensus is over een eventueel verschillende aard van de taalachterstand. Gezien de resultaten van de case-study van Kambanaros & Grohmann (2017) verwacht ik (2) dat kinderen met TOS de taak voor receptieve grammatica iets beter maken dan kinderen met 22q11DS.

3 Methode

In dit hoofdstuk bespreek ik eerst de werving en selectie van participanten. Vervolgens zal ik aangeven welke test er wordt gebruikt en zal ik toelichting geven op de items. Tenslotte wordt de controlegroep besproken.

3.1 Participanten

Om te onderzoeken hoe vaardig kinderen met 22q11DS en met TOS zijn op het gebied van receptieve grammatica, is er een test voor receptieve grammatica afgenomen bij 11 kinderen met 22q11DS en 16 met TOS, in de leeftijd van 6;2 tot 11;0 jaar. De gemiddelde leeftijd van de kinderen was 8;9 jaar (22q11DS) en 8;3 jaar (TOS). Dat verschilt niet significant ($p = .46$). Het gemiddelde IQ van de kinderen met 22q11DS was 75, het gemiddelde IQ van kinderen met TOS was 107. Het IQ van de kinderen met TOS is significant hoger ($t(24) = 5.90, p < .001$).

Tabel 1

Gemiddelde leeftijd, gemiddeld IQ en minimum en maximum IQ van de kinderen met TOS (n = 16) en 22q11DS (n = 11)

| | Gemiddelde leeftijd jr;mnd | Gemiddeld IQ (SD) | IQ minimum | IQ maximum |
|---------|-------------------------------|-------------------|------------|------------|
| TOS | 8;3 | 107 (16,0) | 86 | 136 |
| 22q11DS | 8;9 | 75 (9,6) | 64 | 94 |

Deze test is afgenomen in de pilotfase van het 3T-project door Tessel Boerma, Iris Selten, Emma Everaert en Fenna Duijnkerke. Binnen het 3T-project wordt de vaardigheid op het gebied van taal, aandacht en geheugen van kinderen met 22q11DS vergeleken met de vaardigheid van kinderen met TOS en TD-kinderen. De participanten werden uitgesloten als zowel het verbale als het performale IQ onder de 70 lag. Ook werden ze uitgesloten bij ernstig gehoorverlies (> 35 dB) of bij relevante comorbiditeit, bijvoorbeeld met autisme. Door uit te sluiten bij ernstig gehoorverlies, wordt het probleem van een gebrek aan input dat is genoemd in paragraaf 2.2.2 deels ondervangen. De participanten met 22q11DS zijn benaderd via artsen van het UMCU/WKZ. De kinderen met TOS zijn benaderd via hun (cluster-2-)scholen. Participanten zijn geworven in heel Nederland.

3.2 Coloring Book

3.2.1 Werking Coloring Book

De test die is gebruikt, is het Coloring Book (Pinto & Zuckerman, 2018). Kinderen moeten bij deze test op de iPad de goede figuren inkleuren met de bijbehorende kleur. Ze krijgen zinnen te horen met grammaticale constructies die mogelijk ingewikkeld zijn, bijvoorbeeld de passief. Een voorbeeldzin is *de groene aap wordt gekrabd door de rode aap*. Als de agens rood wordt gekleurd in de tekening en de patiens groen, heeft de participant de opdracht goed uitgevoerd. De vier grammaticale constructies die worden gebruikt bij dit onderzoek zijn:

- Aspect (tegenwoordige tijd, verleden tijd, toekomstige tijd) (6 zinnen)
- Actief/passief (4 zinnen)
- Binding (4 zinnen)
- Terugverwijzen met *ze* naar een zin met twee mogelijke referenten (4 zinnen)

In totaal zijn er dus achttien testzinnen, voor elke variant twee. De zinnen zijn te vinden in Bijlage 1. In de bijlage staan ze genoteerd per constructie, maar in de test werden de verschillende constructies door elkaar aangeboden. Van deze constructies is bekend dat kinderen er nog niet even goed op scoren als volwassenen (Pinto & Zuckerman, 2018).

De kleurplaat biedt altijd de mogelijkheid om de verkeerde keuze te maken bij het inkleuren. Bij een zin als *de rode tijger gaat door de hoepel springen* (toekomstige tijd), is er dus bijvoorbeeld ook altijd een tijger die door de hoepel springt (tegenwoordige tijd) en een tijger die al geland is (verleden tijd) aanwezig in de tekening.

3.2.2 Controlevragen

Vooraf krijgen de participanten eerst twee controlezinnen met bijbehorende plaatjes. De plaatjes bij die zinnen bieden geen mogelijkheden om 'logische' fouten te maken door een verkeerde grammaticale interpretatie. Een voorbeeldzin is *de paarse clown moet lachen*, waarbij er op het plaatje een (lachende) clown, een ballerina, een eenwieler en een olifant staan. Deze vragen zorgen ervoor dat uitgesloten wordt dat het kind simpele figuren niet herkent of dat het kind kleurenblind is. De test is niet valide als participanten kleurenblind zijn of simpele figuren niet herkennen. De resultaten van kinderen die de controlevragen niet goed beantwoorden, moeten dus niet worden meegenomen in de analyse.

3.2.3 Aspect

Voorbeeldzin: *De groene clown heeft gedoucht*

Bij de zinnen over aspect staan er zoals hierboven vermeld altijd drie figuren op het plaatje; één die de actie uitvoert in het heden, één die de actie uitvoert in het verleden en één die de actie in de (nabije) toekomst gaat uitvoeren. De bijbehorende zin staat twee keer in de verleden tijd (VT), twee keer in de tegenwoordige tijd (TegenT) en twee keer in de toekomstige tijd (ToeT). Volgens Pinto & Zuckerman (2018) hebben kinderen vooral moeite met de interpretatie van de toekomstige tijd. Als de goede figuur is ingekleurd door de participant en er geen andere figuur is ingekleurd, wordt het antwoord goed gerekend, ook als de gebruikte kleur niet de goede is. Kleur is niet van invloed op de interpretatie van de zin.

3.2.4 Actief/passief

Voorbeeldzin: *Een blauwe olifant wordt natgemaakt door een rode olifant*

Bij de zinnen over actief/passief zijn er altijd twee figuren aanwezig in de tekening; de agens en de patiens. Twee zinnen zijn actief, twee zinnen zijn passief. Kinderen zouden meer moeite hebben met passieve constructies dan volwassenen volgens Pinto & Zuckerman (2018). Beide figuren moeten worden gekleurd met een verschillende kleur. Als beide figuren met de goede kleur zijn ingekleurd, wordt het antwoord goed gerekend. Ook als de agens de goede kleur heeft gekregen, maar de patiens niet gekleurd is, wordt het antwoord goed gerekend. De participant heeft dan voldoende laten zien dat hij weet wat voor gevolgen een passieve constructie heeft voor de verdeling van de θ -rollen.

3.2.5 Binding

Voorbeeldzin: *Een groen olifantje zit op een kruk en een blauwe olifant maakt hem nat*

Bij de zinnen over binding zijn er altijd drie figuren in de tekening aanwezig. Figuur 1 voert een handeling uit op zichzelf, figuur 2 ondergaat een handeling en figuur 3 voert de handeling uit op figuur 2. Figuur 2 moet altijd worden gekleurd. Afhankelijk van de zin, moet daarnaast figuur 1 of figuur 3 worden gekleurd. *Zichzelf* moet een referent hebben binnen de nabije omgeving en dus terugverwijzen naar het subject van de zin, *hem* moet een referent hebben buiten de nabije omgeving en dus terugverwijzen naar het subject uit de zin ervoor. Bij twee zinnen wordt *hem* gebruikt en bij twee zinnen wordt *zichzelf* gebruikt. Volgens Pinto & Zuckerman (2018) hebben kinderen vooral moeite met het feit dat *hem* niet kan verwijzen naar een lokale referent (het vertraagde principe-B-effect), maar ook op het gebied van reflexieven (*zichzelf*) scoren kinderen nog

niet volledig hetzelfde als volwassenen.

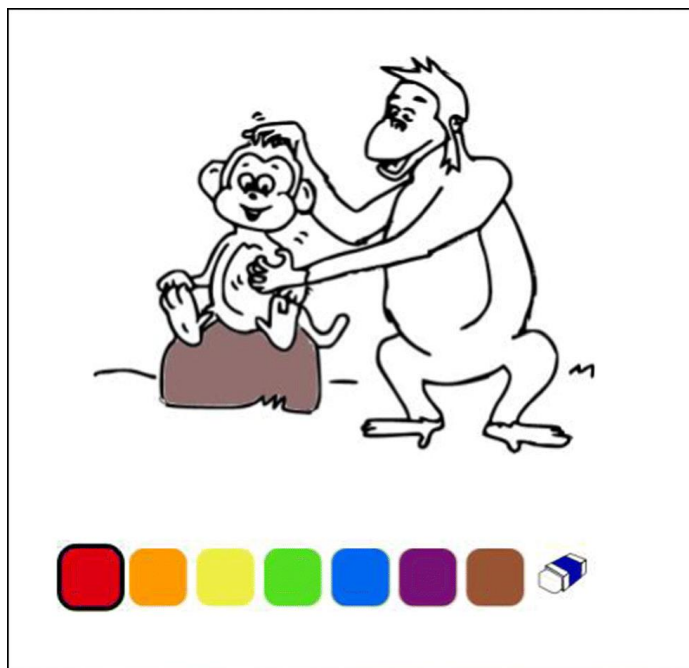
Als figuur 1 of figuur 3 de goede kleur heeft gekregen, maar figuur 2 niet is gekleurd, wordt het antwoord toch goed gerekend. De participant heeft dan voldoende laten zien dat hij/zij de bindingsregels begrijpt.

3.2.6 Terugverwijzen met ze

Voorbeeldzin: *Een acrobaatmeisje fietst naast een ballerina terwijl ze met een oranje lint zwaait*

Bij de zinnen over terugverwijzen met ze zijn er altijd twee figuren in de tekening aanwezig die dezelfde handeling verrichten met hetzelfde voorwerp. De participant moet kiezen of hij/zij het voorwerp van de eerstgenoemde of van de laatstgenoemde persoon kleurt. Bij terugverwijzen met ze prefereren volwassenen volgens Pinto & Zuckerman (2018) altijd de interpretatie dat ze dezelfde is als de eerstgenoemde persoon (het topic). Bij twee opdrachten wordt de tweede zin ingeleid door het voegwoord *en*, bij twee opdrachten door het voegwoord *terwijl*. Mogelijk zijn de preferenties verschillend na de verschillende voegwoorden.

Als het voorwerp van de goede (de eerstgenoemde) persoon wordt ingekleurd, wordt het antwoord goed gerekend, ook als de gebruikte kleur niet de goede is. Kleur is niet van invloed op de interpretatie van de zin.



Voorbeeld van een plaatje dat past bij een opdracht met passieve constructie

3.3 Controlegroep

De resultaten van deze tests worden vergeleken met de resultaten van Pinto & Zuckerman (2018). Zij hebben een vergelijkbare test afgenomen bij TD-kinderen van 3;11 tot 8;7 jaar. Door te vergelijken met een iets jongere controlegroep, is het goed te bepalen hoever kinderen met TOS of 22q11DS achterlopen op TD-kinderen op het gebied van receptieve grammatica en of ze hetzelfde type fouten maken als jongere TD-kinderen of dat ze andere fouten maken. Pinto & Zuckerman (2018) testten buiten de constructies die hierboven genoemd zijn nog een aantal andere constructies. Die constructies zijn niet meegenomen voor de vergelijking. 22 kinderen uit hun onderzoek deden exact dezelfde versie van de opdrachten, behalve bij *terugverwijzen met ze*. De data van die kinderen worden als controledata gebruikt. Bij de categorie *terugverwijzen met ze* maakten de kinderen van Pinto & Zuckerman (2018) slechts de helft van de opdrachten die de kinderen met 22q11DS of TOS voor dit project maken. Om die reden is deze categorie niet meegenomen bij de vergelijking. De 22 kinderen hadden een gemiddelde leeftijd van 7;7 jaar. Dat is significant jonger dan de kinderen met 22q11DS ($t(31) = 4.03$, $p > .001$) en de kinderen met TOS ($t(36) = 3.25$, $p = .003$).

Van de controlekinderen is bekend wat de scores waren, maar niet welke antwoorden ze exact hebben gegeven. Wel is bekend dat de scoringscriteria in enige mate verschilden van de scoringscriteria zoals besproken in 3.2.3 t/m 3.2.6. Pinto & Zuckerman (2018) rekenden bijvoorbeeld geen passieven goed als alleen de agens was ingekleurd. Zij waren op sommige vlakken iets strenger. Dat betekent dat de TD-kinderen in dit onderzoek iets onderschat worden ten opzichte van de kinderen met 22q11DS en TOS. In dit geval is dat conservatief, de TD-kinderen worden geacht beter te presteren dan de kinderen met 22q11DS of TOS en het mogelijke verschil wordt niet groter, maar juist kleiner door de licht verschillende beoordelingscriteria.

Waar er bij de kinderen met 22q11DS en TOS vrijwel geen instructie is gegeven door degene die de test afnam, is er bij de controlekinderen mogelijk iets meer instructie gegeven. Als kinderen bijvoorbeeld alle drie de figuren inkleurden bij een opdracht over *aspect*, heeft degene die het onderzoek afnam bij de kinderen met 22q11DS en TOS niet gezegd dat dat niet de bedoeling was en dat er maar één object gekleurd moet worden. Bij de controlegroep is dat mogelijk wel gebeurd. Daar moet rekening mee gehouden worden bij de analyse, want hierdoor kunnen TD-kinderen mogelijk worden overschat.

4 Resultaten

In dit hoofdstuk zal ik eerst bespreken hoe de controlevragen zijn gemaakt. Vervolgens zullen de resultaten van de kinderen met 22q11DS vergeleken worden met die van de kinderen met TOS. Daarna zullen beide groepen vergeleken worden met de controlegroep. In paragraaf 4.4 tot en met 4.6 worden de fouten die zijn gemaakt op het gebied van aspect, actief/passief en binding in detail bekeken. Tenslotte zal worden besproken wat de invloed is op de resultaten van de fout gemaakte opdrachten die goed zijn gerekend en wat de invloed is van IQ op de resultaten.

4.1 Controlevragen

Alle kinderen met 22q11DS en alle kinderen met TOS deden de twee controlevragen vooraf goed, waardoor werd vastgesteld dat kleuren onderscheiden en relaties leggen tussen figuren en woorden geen probleem vormt. De resultaten van alle kinderen kunnen dus worden meegenomen in de analyse.

4.2 22q11DS en TOS

Tabel 2 geeft de resultaten voor de kinderen met 22q11DS en TOS per grammaticale constructie en voor de vier constructies samen. Voor de somscore werd geen significant verschil gevonden ($p = .33$). Ook voor actief/passief, binding en terugverwijzen met *ze* werden geen significante verschillen gevonden ($p = .96$; $p = .98$; $p = .73$). Voor aspect werd wel een significant verschil gevonden. Kinderen met TOS deden de vragen die betrekking hadden op aspect significant beter dan kinderen met 22q11DS ($t(25) = 2.32$, $p = .029$).

Tabel 2

Gemiddelde score voor kinderen met 22q11DS ($n = 11$) of TOS ($n = 16$) per grammaticale constructie en voor de vier constructies samen.

| | Score 22q11DS (SD) | Score TOS (SD) |
|--------------------------------|--------------------|----------------|
| Totale score (max = 18) | 11,7 (4,4) | 13,4 (4,0) |
| Score aspect (max = 6) | 2,7 (1,8) | 4,2 (1,4) |
| Score actief/passief (max = 4) | 3,3 (1,0) | 3,3 (1,1) |
| Score binding (max = 4) | 3,4 (1,2) | 3,4 (0,8) |
| Score terugverwijzen (max = 4) | 2,4 (1,3) | 2,6 (1,6) |

4.3 Controlegroep

Zoals in de methodesectie aangegeven, worden de vragen over terugverwijzen met *ze* buiten de vergelijking gehouden bij het vergelijken met typisch ontwikkelende kinderen. Het verschil tussen de somscore van kinderen met 22q11DS en de somscore van kinderen met TOS is ook niet significant als de categorie over terugverwijzen eruit wordt gehaald ($p = .24$). In tabel 3 zijn de resultaten van de controlegroep met TD-kinderen ook toegevoegd.

De TD-kinderen scoren significant hoger dan de kinderen met 22q11DS op de somscore ($t(11.68) = 2.65$, $p = .022$). Ook scoren ze significant hoger op de deelcategorie aspect ($t(31) = 3.09$, $p = .004$) en ligt de score voor actief/passief in het grensgebied ($t(10.45) = 2.22$, $p = .050$). Op gebied van binding scoren de kinderen met TD niet significant hoger dan de kinderen met 22q11DS ($p = .17$).

De TD-kinderen scoren significant hoger dan de kinderen met TOS op de somscore ($t(36) = 2.17$, $p = .037$). Ook scoren ze significant hoger op de deelgebieden actief/passief ($t(15.88) = 2.61$, $p = .019$) en binding ($t(17.93) = 2.53$, $p = .021$). Op deze twee deelgebieden hebben kinderen met 22q11DS en

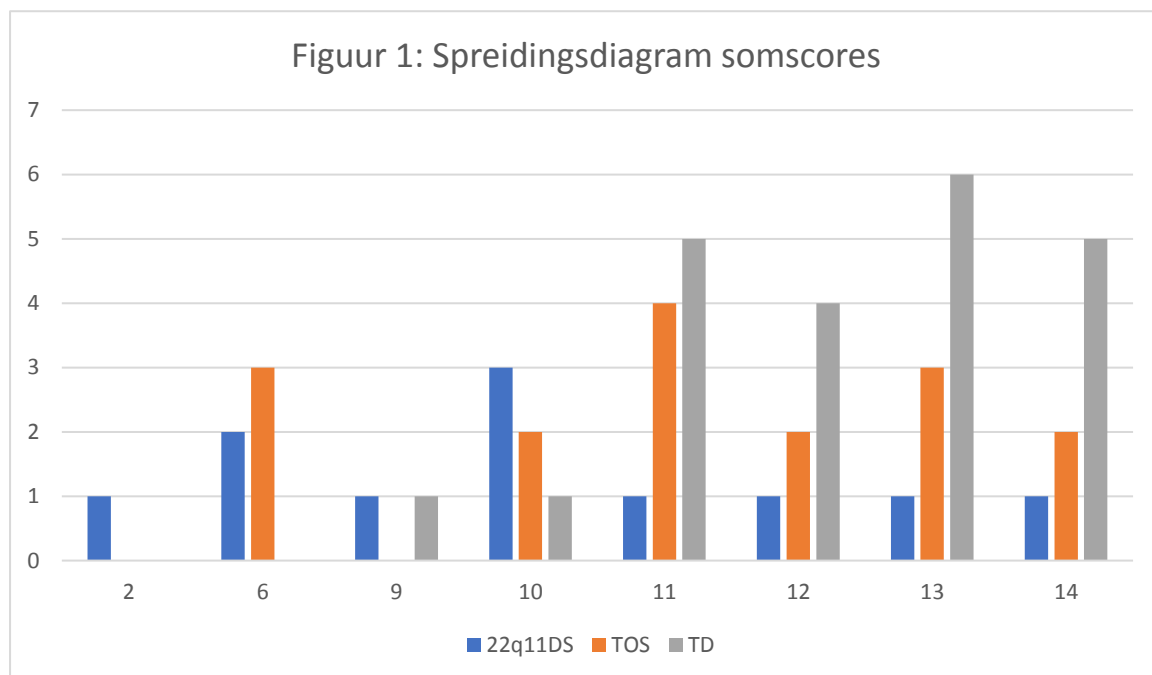
TOS exact dezelfde gemiddelde score. Er waren echter minder participanten met 22q11DS dan met TOS, waardoor het verschil tussen TD en TOS wel significant is, maar het verschil tussen TD en 22q11DS niet significant is (*binding*) of in het grensgebied ligt (*actief/passief*). Voor het deelgebied aspect werd er geen significant verschil gevonden tussen kinderen met TOS en TD-kinderen ($p = .62$).

Tabel 3

Gemiddelde score voor kinderen met 22q11DS (n = 11), TOS (n = 16) of TD-kinderen (n = 22) per grammaticale constructie en voor drie constructies samen.

| | Score 22q11DS (SD) | Score TOS (SD) | Score TD (SD) |
|--------------------------------|--------------------|----------------|---------------|
| Totale score (max = 14) | 9,4 (3,5) | 10,8 (2,7) | 12,3 (1,4) |
| Score aspect (max = 6) | 2,7 (1,8) | 4,2 (1,4) | 4,4 (1,3) |
| Score actief/passief (max = 4) | 3,3 (1,0) | 3,3 (1,1) | 4,0 (0,2) |
| Score binding (max = 4) | 3,4 (1,2) | 3,4 (0,8) | 3,9 (0,3) |

In figuur 1 zijn de kinderen met 22q11DS (n = 11), TOS (n = 16) en de TD-kinderen (n = 22) verdeeld over de somscore die ze hebben behaald voor hun test, waarbij de resultaten van de categorie terugverwijzen met ze niet zijn meegenomen. De maximale score is dus 14.



4.4 Aspect

Aspect was het enige deelgebied waarop er verschil is tussen kinderen met 22q11DS en kinderen met TOS. De zes opdrachten uit die categorie worden hier apart besproken. In tabel 4 staan de gemiddelde scores voor de zes opdrachten over aspect voor kinderen met 22q11DS of TOS en voor TD-kinderen. Per vraag is het aantal antwoorden te klein om significante verschillen te meten. De gemiddelde scores van alle vragen liggen voor 22q11DS lager dan voor TOS en TD.

Opvallend is verder het verschil in score tussen TegenT1 en TegenT2, twee opdrachten die hetzelfde construct pogen te meten. Gemiddeld scoren de drie groepen samen op de eerste opdracht over tegenwoordige tijd .86 en op de tweede opdracht .43. Uit een paired-samples t-test

blijkt dat er op de eerste opdracht significant beter wordt gescoord ($t(48) = 5.56, p < .001$). Ook voor de twee opdrachten over toekomstige tijd geldt dat er een significant verschil is tussen de gemiddelde scores ($t(48) = 3.57, p = .001$). Bij de eerste opdracht is het gemiddelde van de drie groepen samen hoger (.61), dan bij de tweede opdracht (.37).

Bij de opdrachten over verleden tijd was er geen significant verschil ($p = .77$).

In de discussiesectie wordt verder ingegaan op mogelijke verklaringen voor deze verschillen. De betrouwbaarheid van het resultaat dat kinderen met 22q11DS slechter scoren op aspect dan kinderen met TOS lijkt door de verschillen binnen de opdrachten die hetzelfde construct pogen te meten niet te worden aangetast, omdat alle drie de groepen slechter scoren bij de TegenT2 en ToeT2 dan bij TegenT1 en ToeT1, en omdat de kinderen met 22q11DS op alle vragen lager scoren dan kinderen met TOS.

Tabel 4

Gemiddelde score van kinderen met 22q11DS (n = 11), TOS (n = 16) en TD (n = 22) voor de zes aspectvragen.

| | Score 22q11DS (SD) | Score TOS (SD) | Score TD (SD) |
|--------------------|--------------------|----------------|---------------|
| VT 1 (max = 1) | .64 (.51) | .88 (.34) | .91 (.29) |
| VT 2 (max = 1) | .64 (.51) | .94 (.25) | .91 (.29) |
| TegenT 1 (max = 1) | .64 (.51) | .88 (.34) | .95 (.21) |
| TegenT 2 (max =1) | .27 (.47) | .44 (.51) | .50 (.51) |
| ToeT 1 (max = 1) | .36 (.51) | .69 (.48) | .68 (.48) |
| ToeT 2 (max = 2) | .18 (.41) | .38 (.50) | .45 (.51) |

Omdat de scores van de opdrachten die hetzelfde construct meten zover uit elkaar liggen en er maar twee opdrachten per construct zijn, wordt er geen vergelijking gemaakt tussen de drie varianten van aspect (verleden tijd, tegenwoordige tijd en toekomstige tijd). Zo'n vergelijking zou onbetrouwbaar zijn.

Kwalitatief valt er ook nog het een en ander te zeggen over de antwoorden die gegeven zijn op de vragen over tegenwoordige tijd en toekomstige tijd.

Zes van de zeven kinderen met 22q11DS of TOS die TegenT1 fout deden, kleurden de VT-clown. De zevende kleurde alle drie de clowns. Dertien van de zeventien kinderen met 22q11DS of TOS die TegenT2 fout deden, kleurden de ToeT-clown. Drie kinderen kleurden de VT-clown en één kind kleurde ze alle drie.

Elf van de twaalf kinderen die ToeT1 fout deed kleurden de TegenT-clown. De twaalfde kleurde de VT-clown. Achttien van de negentien kinderen die ToeT2 fout deden kleurden de TegenT-clown. De negentiende kleurde zowel de TegenT-clown als de ToeT-clown.

Kwalitatief maakten kinderen met 22q11DS en TOS dus veelal dezelfde fouten.

4.5 Actief/passief

Voor actief/passief zijn in paragraaf 4.2 alleen de somscores, de scores voor de vier vragen samen, vermeld. Volgens de literatuur zouden de opdrachten in passieve vorm slechter moeten worden gemaakt dan de opdrachten in actieve vorm. In tabel 5 staan de gemiddelde scores per vraag en de gemiddelde scores voor de vragen in actieve vorm ($n = 2$) en in passieve vorm ($n = 2$)². Kinderen met 22q11DS scoren iets hoger op de actieve vorm dan op de passieve vorm, bij kinderen met TOS is dat andersom, maar die verschillen zijn niet significant (22q11DS: $p = .34$; TOS: $p = .22$). Als de twee

² In 4.5 en 4.6 zijn de resultaten van de TD-kinderen niet opnieuw meegenomen, omdat uit tabel 3 al blijkt dat TD-kinderen de opdrachten uit deze categorieën (vrijwel) perfect maken. Uitsplitsen is dus niet relevant.

groepen bij elkaar opgeteld worden, is het gemiddelde voor de actieve opdrachten 1.59 en voor de passieve opdrachten 1.67. Er is geen sprake van een significant verschil ($p = .60$). Opdrachten met passieve constructies worden door kinderen met 22q11DS en TOS dus niet slechter gemaakt dan opdrachten met actieve constructies.

Tabel 5

Gemiddelde score van kinderen met 22q11DS (n = 11), TOS (n = 16) en TD (n = 22) voor de vier actief/passief-vragen en voor de som van de actief-vragen en de som van de passief-vragen.

| | Score 22q11DS (SD) | Score TOS (SD) |
|------------|--------------------|----------------|
| Actief 1 | .91 (.30) | .81 (.40) |
| Actief 2 | .82 (.41) | .69 (.48) |
| Passief 1 | .73 (.47) | .88 (.34) |
| Passief 2 | .82 (.41) | .88 (.34) |
| ActiefSom | 1.73 (.65) | 1.50 (.82) |
| PassiefSom | 1.55 (.52) | 1.75 (.45) |

4.6 Binding

Voor binding zijn in paragraaf 4.2 alleen de somscores, de scores voor de vier vragen samen, vermeld. Volgens de literatuur zouden de opdrachten met pronomina (hem) meer problemen op moeten leveren dan opdrachten met reflexieven (zichzelf). In tabel 6 staan de gemiddelde scores per vraag en de gemiddelde scores voor de vragen met reflexieven ($n = 2$) en de vragen met pronomina ($n = 2$).

De vragen met een pronomina lijken in dit geval juist iets beter te zijn gemaakt dan de vragen met een reflexief. Tussen TOS en 22q11DS en tussen verschillende opdrachten voor hetzelfde construct zijn er geen opvallende verschillen. Als de twee groepen bij elkaar opgeteld worden, is het gemiddelde voor de opdrachten met pronomina 1.81 en voor de opdrachten met reflexieven 1.56. Dat verschil is net niet significant ($t(26) = 1,89$, $p = .070$). Opdrachten met pronomina worden door kinderen met 22q11DS en TOS in ieder geval niet slechter gemaakt dan opdrachten met reflexieven.

Tabel 6

Gemiddelde score van kinderen met 22q11DS (n = 11), TOS (n = 16) en TD (n = 22) voor de vier vragen over binding en voor de som van de reflexief-vragen en de som van de pronomina-vragen.

| | Score 22q11DS (SD) | Score TOS (SD) |
|-------------|--------------------|----------------|
| Hem 1 | .91 (.30) | .94 (.25) |
| Hem 2 | .91 (.30) | .88 (.34) |
| Zichzelf 1 | .82 (.41) | .81 (.40) |
| Zichzelf 2 | .73 (.47) | .75 (.45) |
| HemSom | 1.82 (.41) | 1.81 (.54) |
| ZichzelfSom | 1.55 (.82) | 1.56 (.63) |

4.7 Goede 'foute' opdrachten

Sommige antwoorden van kinderen met 22q11DS en TOS die niet perfect waren, werden toch goed gerekend (zie 3.2.3 tot en met 3.2.6). In onderstaande tabel (tabel 7) is te vinden hoe vaak dit voorkwam. Zowel kinderen met 22q11DS als kinderen met TOS vergeten dus af en toe het voor de interpretatie van de zin minder belangrijke element te kleuren bij de categorieën actief/passief en binding. Het gebruiken van de verkeerde kleur bij de goede figuur bij de categorieën aspect en terugverwijzen met ze komt slechts één keer voor.

Bij actief/passief komen goede 'foute' antwoorden het vaakst voor. 9 van de 108 gegeven antwoorden (8.3%) waren niet perfect, maar werden volgens de hier gehanteerde norm goed gerekend. Omdat dit een substantieel gedeelte is, is er ook bekeken of de antwoorden van de proefpersonen die soms vergeten de patiens te kleuren goed zijn op het moment dat ze wel zowel agens als patiens kleuren. Vier kinderen (één met TOS, drie met 22q11DS) gaven de agens bij één of twee opdrachten de goede kleur en kleurden de patiens niet, terwijl ze bij de andere twee of drie opdrachten geen goed 'foute' antwoord gaven. Twee daarvan deden structureel de andere opdrachten goed (dus kleurden daar zowel patiens als agens met de goede kleur) en blijken dit grammaticale aspect dus te begrijpen. De twee andere kinderen deden de andere opdrachten structureel verkeerd.

Ook voor binding (5 van de 108 vragen = 4,6%) vraagt het aantal goede 'foute' antwoorden om nadere bestudering. De vijf goede 'foute' antwoorden werden gegeven door vier participanten (twee met 22q11DS en twee met TOS). Zij gaven samen dus nog elf andere antwoorden. Daarvan waren er acht goed en drie fout.

Tabel 7

Aantal 'fout' gemaakte opdrachten per grammaticale categorie die goed zijn gerekend bij kinderen met 22q11DS (n = 11) en TOS (n = 16).

| | 22q11DS | TOS |
|-------------------------------|---------|-----|
| Aspect (miskleurd) | 0 | 1 |
| Actief/passief (alleen agens) | 4 | 5 |
| Binding (alleen figuur 1/3) | 2 | 3 |
| Terugverwijzen (miskleurd) | 0 | 0 |

4.8 IQ

In het theoretisch kader werd besproken dat lagere taalvaardigheid bij kinderen met 22q11DS mogelijk te wijten is aan een lager IQ. Daarom is er voor zowel kinderen met TOS als kinderen met 22q11DS gekeken of IQ correleert met de prestaties op de taak (de somscore van de vier grammaticale constructies). Voor kinderen met 22q11DS bleek dat niet het geval te zijn ($p = .45$). Voor kinderen met TOS was dat wel het geval ($R(15) = .54, p = .036$). Een hoger IQ correleert met een betere somscore bij kinderen met een TOS.

5 Discussie

5.1 Beantwoording van de hoofdvraag

De hoofdvraag was: *Hoe goed is de taalvaardigheid op het gebied van receptieve grammatica van kinderen met 22q11DS in vergelijking met kinderen met TOS en met een controlegroep van TD-kinderen.* Uit de resultaten blijkt dat er slechts voor één grammaticale constructie een significant verschil is tussen kinderen met 22q11DS en kinderen met TOS: kinderen met 22q11DS scoren slechter op *aspect*. Bij alle andere constructies hadden kinderen met 22q11DS en TOS hetzelfde of vrijwel hetzelfde gemiddelde en dus werden er geen significante verschillen voor de andere constructies gevonden. Ook voor de somscore van de verschillende grammaticale constructies werd er geen verschil gevonden. Kwalitatief was er geen verschil te zien tussen kinderen met 22q11DS en kinderen met een TOS op gebied van *aspect*. Beide groepen kozen systematisch voor hetzelfde alternatieve antwoord als er een fout werd gemaakt, maar de kinderen uit de groep met 22q11DS kozen vaker voor het foute antwoord.

De groep normaal ontwikkelende kinderen scoorde significant hoger op de somscore (waarbij de categorie *terugverwijzen met 'ze'* niet meegenomen was) dan zowel de groep kinderen met 22q11DS ($p = .022$) als de groep kinderen met TOS ($p = .037$), ondanks hun gemiddeld jongere leeftijd. Ook scoorden ze significant hoger op de deelgebieden actief/passief en binding dan de kinderen met een TOS en op het deelgebied *aspect* dan de kinderen met 22q11DS. De kinderen met 22q11DS hadden exact dezelfde scores als de kinderen met TOS voor de categorieën actief/passief en binding, maar toch was het verschil tussen TD-kinderen en kinderen met 22q11DS in die categorieën niet significant, al zaten de p-waardes wel dicht bij de .05. Dit komt doordat het aantal kinderen met 22q11DS dat getest is, lager is dan het aantal kinderen met een TOS dat getest is. Mogelijk worden er ook voor die deelcategorieën significante verschillen gevonden indien er meer kinderen met 22q11DS getest worden.

Dat TD-kinderen mogelijk meer instructie hebben gehad dan kinderen met 22q11DS of TOS, blijkt geen invloed te hebben gehad op de resultaten. Bij opdrachten over *aspect* zijn kinderen met 22q11DS en TOS er niet op gewezen dat ze maar één figuur moeten inkleuren als ze meerdere figuren wilden inkleuren. TD-kinderen zijn daar mogelijk wel op gewezen. Er zijn echter vrijwel geen kinderen met 22q11DS of TOS die meerdere figuren hebben ingekleurd bij de categorie *aspect*. Als er een fout gemaakt werd, was dat vrijwel altijd het inkleuren van de verkeerde figuur, niet het inkleuren van meerdere figuren. Bij opdrachten over *terugverwijzen met ze* werden door de kinderen met 22q11DS en TOS wel vaak twee figuren ingekleurd terwijl er maar één ingekleurd moest worden. Echter, doordat deze opdrachten niet mee werden genomen bij de vergelijking met TD-kinderen, hebben deze antwoorden geen invloed op het resultaat.

Op basis van de somscores kan worden vastgesteld dat de hypothese dat zowel kinderen met 22q11DS als kinderen met een TOS achterlopen ten opzichte van TD-kinderen op het gebied van receptieve grammatica, inderdaad waar blijkt te zijn. De somscores wijzen niet uit dat kinderen met 22q11DS minder vaardig zijn op het gebied van receptieve grammatica dan kinderen met TOS, maar er wordt door het significante verschil op het gebied van *aspect* ook niet bevestigd dat 22q11DS en TOS hetzelfde type taalproblemen met zich meebrengen.

5.2 De aard van de achterstand

Van tevoren werd verwacht dat er bij binding vooral fouten zouden worden gemaakt in de zinnen met pronomina en dat er bij actief/passief vooral problemen zouden zijn met de passieve vormen. Beide verwachtingen kwamen niet uit. Er bleek geen verschil te zijn. Zeker voor actief/passief is dat opvallend. Alle kinderen deden de controleopdrachten goed, dus ze zouden een simpele actieve zin ook goed moeten kunnen beantwoorden. Toch werden bij deze zinnen door zowel kinderen met 22q11DS als kinderen met TOS fouten gemaakt. Er worden dus niet meer fouten gemaakt in de opdrachten waarbij volgens de theorie de fouten door de grammatica meer worden uitgelokt. Daardoor is het goed om vraagtekens te plaatsen bij waarom kinderen met 22q11DS en TOS fouten maken. Is dat doordat ze bepaalde receptieve grammatica niet beheersen, of heeft het redenen op bijvoorbeeld het gebied van *processing* of een ander cognitief gebied waarvoor actieve en passieve zinnen wellicht even uitdagend zijn? Voor binding zou gesteld kunnen worden dat de beperkingen aan de referent bij reflexieven toch ook moeilijker te bevatten zijn voor kinderen met 22q11DS en TOS dan werd verwacht en dat er dus een achterstand is door een specifiek talige moeilijkheid, maar voor de actieve zinnen uit de actief/passief-categorie, is dat moeilijker vol te houden. De resultaten wijzen er daar toch meer op dat kinderen met 22q11DS en TOS fouten maken door andere beperkingen dan alleen receptief grammaticale. De kinderen uit de controlegroep bleken op deze leeftijd (vrijwel) alle vragen van deze categorieën goed te maken. Door te vergelijken met een nog jongere controlegroep van kinderen die nog wel fouten maken bij deze opdrachten, kan gekeken worden of er bij deze categorieën sprake is van vertraging of van wezenlijk andere verwerving. Indien jongere kinderen bijvoorbeeld geen fouten maken in actieve zinnen maar wel in passieve, is de verwerving wezenlijk anders.

Vicari et al. (2012) verklaarden de taalachterstand van kinderen met 22q11DS volledig vanuit IQ. In dit onderzoek is er echter geen correlatie gevonden tussen lager IQ en lagere taalvaardigheid voor kinderen met 22q11DS. Die zou wel worden verwacht als IQ de enige oorzaak is van een lagere taalvaardigheid. Wel werd er een gemiddeld IQ gevonden van 75. Dat ligt in de range die standaard is voor kinderen met 22q11DS (70-75). Het verlaagde IQ blijft ondanks dat er in dit onderzoek geen correlatie werd gevonden een mogelijke verklaring voor een gedeelte van de problemen. Opvallenderwijs werd er wel een positieve correlatie gevonden tussen de somscores van kinderen met TOS en hun IQ. De diagnose taalontwikkelingsstoornis wordt juist gegeven als taalachterstand niet verklaard kan worden vanuit andere achterstanden, zoals bijvoorbeeld lagere intelligentie (Evans et al., 2009). De resultaten van dit onderzoek wijzen erop dat bij TOS een lager IQ niet de enige factor is voor de lagere taalvaardigheid (het gemiddelde IQ van de kinderen met TOS is 107 en toch zijn er taalproblemen), maar dat een lager IQ wel deels verantwoordelijk kan zijn voor taalproblemen.

Mogelijk speelt de grotere spreiding (hogere SD) in het IQ van kinderen met een TOS dan in het IQ van kinderen met 22q11DS bij dit onderzoek een rol in het aanwezig zijn van een correlatie tussen IQ en taalprestaties bij kinderen met een TOS en het afwezig zijn van een correlatie tussen IQ en taalprestaties bij kinderen met 22q11DS. Op basis van dit onderzoek wil ik dan ook niet de conclusie trekken dat IQ geen factor is bij taalvaardigheid van kinderen met 22q11DS, maar wel dat IQ waarschijnlijk niet de enige factor is.

5.3 Constructvaliditeit bij aspect

Bij aspect waren er significante verschillen tussen vragen die hetzelfde construct poogden te meten. De eerste opdracht over toekomstige tijd werd beter gemaakt dan de tweede opdracht over toekomstige tijd en de eerste opdracht over tegenwoordige tijd werd ook beter gemaakt dan de

tweede opdracht over tegenwoordige tijd. Door de grote verschillen in gemiddelde tussen opdrachten voor hetzelfde construct, durf ik geen uitspraken te doen over het eventueel moeilijker zijn van toekomstige tijd dan van verleden of tegenwoordige tijd (en of er daarbinnen nog verschillen zijn te vinden tussen kinderen met 22q11DS en TOS). Ook was het reden om alleen controlepersonen te gebruiken uit het onderzoek van Pinto & Zuckerman (2018) die exact dezelfde versie van de opdrachten hadden gemaakt.

De verschillen kunnen vanuit de combinatie van vragen en plaatjes enigszins verklaard worden. TegenT1 was *de rode clown eet de meloen op*. Hierbij was er een plaatje met een clown die een opgegeten meloen in de prullenbak gooit, een clown die een meloen eet en een clown die met zijn handen boven een hele meloen zweeft om hem op te gaan pakken. Alleen bij de goede optie is de clown bezig met eten. Bij de ToeT-optie is het nog onzeker of de clown wel gaat eten. Bij de VT-optie is het wel duidelijk dat de clown heeft gegeten.

TegenT2 was *een groene tijger springt door de hoepel*. Hierbij was er een plaatje met een tijger die zich afgezet heeft van de grond en stijgt richting de hoepel (waarbij zijn voorpoten er al doorheen gaan), een tijger die precies midden door de hoepel gaat en een tijger die net door de hoepel heen is gegaan en op weg is naar de landing. Bij alle drie de opties is de tijger aan het springen (door een hoepel). Alle drie de tijgers zijn bezig met hun sprong. Het is dus logischer om hier voor een andere 'verkeerde' optie te kiezen, dan bij TegenT1, waarbij twee clowns het werkwoord niet aan het uitvoeren zijn op het plaatje.

Zoals in paragraaf 4.4 aangegeven, kleurden vrijwel alle kinderen die TegenT1 fout deden de VT-clown, terwijl de meeste kinderen die TegenT2 fout deden de ToeT-clown kleurden en slechts een enkeling de VT-clown. Dit kwalitatieve verschil wijst er net als de al eerder genoemde kwantitatieve verschillen op dat niet alleen aspect (VT, TegenT of ToeT) een factor is voor hoe goed vragen gemaakt worden, maar dat het ook uitmaakt hoe er getekend is en welk werkwoord er is gebruikt. Het verbeteren van de tekeningen zou vergelijken makkelijker en betrouwbaarder maken.

Het verschil tussen ToeT1 en ToeT2 was alleen kwantitatief van aard (bij beide vragen kleurden de kinderen die de opdracht fout deden voornamelijk de TegenT-optie). Waar het verschil in gemiddeldes tussen deze twee opdrachten vandaan komt, is moeilijker te verklaren, omdat de situatie op de plaatjes hier meer gelijk lijkt. Bij beide plaatjes staat de goede optie op het punt van beginnen met de actie en is de vaak gekozen verkeerde optie daar al duidelijk mee bezig.

Al met al lijkt vooral TegenT2 niet goed genoeg getekend, omdat voor het inkleuren van alle drie de tijgers iets te zeggen lijkt (ze zijn alle drie bezig met springen door een hoepel). Als er bij TegenT2 voor een duidelijkere tekening was gekozen, was het gemiddelde voor tegenwoordige tijd waarschijnlijk hoger, lagen de TegenT-scores dichter bij elkaar en was er wellicht de conclusie te trekken dat toekomstige tijd inderdaad het lastigst is voor kinderen. Op basis van de gegevens van deze test is die conclusie helaas niet te trekken.



Tekening TegenT2, waarbij de tijgers alle drie aan het springen zijn

5.4 22q11DS en TOS: een ander patroon?

Een laatste belangrijke vraag is of de resultaten ondersteunen dat 22q11DS en TOS een van elkaar afwijkend foutenpatroon hebben, zoals Kambanaros & Grohmann (2017) en Persson et al. (2006) betogen, of dat kinderen met 22q11DS en TOS dezelfde talige problemen hebben. Een aantal resultaten wijst op dat laatste. Bij drie van de vier categorieën was er geen verschil in het gemiddeld aantal fouten.

Bovendien werden er binnen de categorieën ook bij hetzelfde type constructies fouten gemaakt. Voor binding was er voor zowel de kinderen met 22q11DS als de kinderen met TOS bijvoorbeeld een trend dat de zinnen met reflexieven iets moeilijker gevonden werden dan de zinnen met pronomina (het verschil was net niet significant, $p = .07$). Voor actief/passief was er zowel bij kinderen met 22q11DS als bij kinderen met TOS geen significant verschil tussen het aantal fouten bij actieve zinnen en het aantal fouten bij passieve zinnen, dus was er ook onderling geen verschil in het type constructie waarin fouten werden gemaakt.

Tenslotte was er ook weinig verschil in wat voor foute keuze er werd gemaakt. Voor aspect hebben we hierboven al gezien dat kinderen met 22q11DS en kinderen met TOS veelal voor hetzelfde foute antwoord kiezen als ze een fout maken. Ook voor de andere categorieën geldt dat er geen opvallende kwalitatieve verschillen zijn in de gemaakte fouten. Bij terugverwijzen met ze was de meest gemaakte fout bij zowel kinderen met 22q11DS als kinderen met TOS bijvoorbeeld dat de objecten van beide figuren gekleurd werden. Er waren bij beide groepen uitzonderingen van kinderen die de fout maakten alleen de objecten van de verkeerde figuur te kleuren.

Eén resultaat gaat tegen het bovenstaande beeld in: het resultaat dat kinderen met 22q11DS de vragen op het gebied van aspect duidelijk slechter maakten dan de kinderen met TOS. Uit de resultaten bleek dat dat niet voor één van de tijden gold, maar dat alle zes de vragen over alle drie de tijden gemiddeld slechter werden beantwoord door kinderen met 22q11DS. De in paragraaf 5.3 besproken mogelijke verschillen tussen vragen die hetzelfde construct wilden meten, hebben er dus niet voor gezorgd dat kinderen met 22q11DS op sommige vragen ineens hoger scoorden dan kinderen met TOS en het resultaat dat kinderen met 22q11DS slechter zijn in het onderscheiden van aspect dan kinderen met TOS lijkt daardoor betrouwbaar. Hoewel de meeste resultaten van dit onderzoek wijzen op een overeenkomende aard van de taalachterstand, moet dit laatste resultaat niet genegeerd worden. Dit kan namelijk voor een wezenlijk verschil zorgen in de problemen die kinderen met 22q11DS en TOS ondervinden en dus van belang zijn bij de hulpvraag van de kinderen. Het verschil in vaardigheid op het gebied van aspect kan een gevolg zijn van een verschillende aard van de talige beperking, maar de lage vaardigheid van kinderen met 22q11DS op het specifieke gebied van aspect zou ook een secundair gevolg kunnen zijn van een andere beperking die kinderen met het syndroom hebben. Een suggestie voor welke beperking daar verantwoordelijk voor zou kunnen zijn, heb ik momenteel echter niet.

Ik wil afsluiten met de opmerking dat ook niet voorbij moet worden gegaan aan de heterogeniteit van de groepen. Zoals in het spreidingsdiagram in hoofdstuk 4 is te zien, zijn er ook kinderen met 22q11DS en TOS die (vrijwel) geen talige achterstand hebben. Dat zijn niet alleen de oudere kinderen. Ook jongere kinderen kunnen in meer of mindere mate last hebben van talige achterstand. Hulp blijft dus maatwerk.

6 Conclusie

Kinderen met 22q11DS en TOS blijken minder vaardig te zijn op het gebied van receptieve grammatica dan een controlegroep met TD-kinderen, terwijl de TD-kinderen significant jonger waren. Op verschillende deelgebieden van de receptieve grammatica scoren kinderen met 22q11DS en TOS lager dan TD-kinderen en beide groepen scoren ook op de somscore van de verschillende grammaticale constructies lager dan de controlegroep. Onderling verschillen kinderen met 22q11DS en kinderen met TOS weinig van elkaar. Kwalitatief werden er geen verschillen gevonden in hun antwoorden. Alleen voor de deelcategorie aspect werd er een significant verschil gevonden tussen de twee groepen: kinderen met TOS waren significant beter in opdrachten die receptieve kennis op het gebied van aspect bevroegen dan kinderen met 22q11DS. Op dit belangrijke onderdeel wijkt de aard van de talige achterstand van kinderen met 22q11DS dus af van die met TOS en op dit onderdeel moet de geboden hulp door bijvoorbeeld logopedisten dus ook afwijken. Op basis van de resultaten van dit onderzoek is het moeilijk te concluderen of de aard van de talige achterstand van 22q11DS en TOS in het algemeen afwijkt, of dat die overeenkomt. De afwijking op het specifieke gebied van aspect zou een secundair gevolg van een andere beperking kunnen zijn, wat zou verklaren waarom er grotendeels wel een overeenkomende achterstand op kwalitatief en kwantitatief niveau wordt gevonden in dit onderzoek. Een suggestie voor welke beperking verantwoordelijk zou kunnen zijn voor een specifiek lagere vaardigheid op het gebied van aspect, heb ik echter niet.

Bibliografie

- Antshel, K. M., Marrinan, E., Kates, W. R., Fremont, W., & Shprintzen, R. J. (2009). Language and literacy development in individuals with velo-cardio-facial syndrome. *Topics in Language Disorders, 29*, 170–186.
- Evans, J.L., Saffran, J.R. & Robe-Torres, K. (2009). Statistical learning in children with specific language impairment. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research, 52*, 321-335.
- Gerdes, M., Solot, C., Wang, P. P., LaRossa, D., Randall, P., Goldmuntz, E., ... Zackai, E. (1999). Cognitive and behavior profile of preschool children with chromosome 22q11.2 deletion. *Am J Med Genet., 85*, 127–133.
- Glaser, B., Mumme, D. L., Blasey, C., Morris, M. A., Dahoun, S. P., Antonarakis, S. E., et al. (2002). Language skills in children with velocardiofacial syndrome (deletion 22q11.2). *The Journal of Pediatrics, 140*(6), 753–758.
- Goorhuis-Brouwer, S., Dijkers, M., Robinson, P. H., & Kerstjens-Frederikse, W. S. (2003). Specific language impairment in children with velocardiofacial syndrome: Four case studies. *Cleft Palate-Craniofacial Journal, 40*(2), 190-195.
- Kampanaros, M. & Grohmann, K. K. (2017). Linguistic and nonverbal abilities over time in a child case of 22q11 deletion syndrome. *Biolinguistics, 11.S1*, 57–81.
- Moss, E. M., Batshaw, M. L., Solot, C. B., Gerdes, M., McDonald-McGinn, D. M., Driscoll, D. A., ... Wang, P. P. (1999). Psychoeducational profile of the 22q11.2 microdeletion: a complex pattern. *J Pediatr., 134*, 193–198.
- Persson, C., Niklasson, L., Oskarsdottir, S., Johansson, S., Jonsson, R., & Soderpalm, E. (2006). Language skills in 5–8-year-old children with 22q11 deletion syndrome. *International Journal of Language and Communication Disorders, 41*, 313–333.
- Pinto, M. & Zuckerman, S. (2018). Coloring book: A new method for testing language comprehension. *Behavior Research Methods*, (pp. 1-20).
- Scherer, N. J., D'Antonio, L. L., & Kalbfleisch, J. H. (1999). Early speech and language development in children with velocardiofacial syndrome. *American Journal of Medical Genetics, 88*(6), 714–723.
- Shprintzen, R. J. (2008). Velo-cardio-facial syndrome: 30 Years of study. *Developmental Disabilities Research Reviews, 14*, 3–10.
- Snowling, M. J., Duff, F. J., Nash, H. M., & Hulme, C. (2016). Language profiles and literacy outcomes of children with resolving, emerging, or persisting language impairments. *Journal of Child Psychology and Psychiatry, 57*, 1360–1369
- Vicari, S., Mantovan, M., Addona, F., Costanzo, F., Verucci, L., & Menghini, D. (2012). Neuropsychological profile of Italian children and adolescents with 22q11.2 deletion syndrome with and without intellectual disability. *Behavior Genetics, 42*(2), 287–298.

Bijlage 1 - Testzinnen

| Type | Specificatie | Zin |
|-------------------------|-------------------------|---|
| Controle 1 | | De paarse clown moet lachen |
| Controle 2 | | De oranje olifant staat op een kruk |
| Aspect 1 | VT | De groene clown heeft gedoucht |
| Aspect 2 | VT | Het blauwe acrobaatmeisje heeft op het touw gelopen |
| Aspect 3 | TegenT | De rode clown eet de meloen op |
| Aspect 4 | TegenT | Een groene tijger springt door de hoepel |
| Aspect 5 | ToeT | Een groene clown gaat het hek verven |
| Aspect 6 | ToeT | De gele aap gaat in de modder spelen |
| Actief/passief 1 | Passief 1 | Een blauwe olifant wordt natgemaakt door een rode olifant |
| Actief/passief 2 | Passief 2 | Een gele slang wordt gebeten door een rode slang |
| Actief/passief 3 | Actief 1 | Een groene ballerina tilt een rode ballerina op |
| Actief/passief 4 | Actief 2 | Een bruine aap krabt een groene aap |
| Binding 1 | Hem 1 | Een groen olifantje zit op een kruk en een blauwe olifant maakt hem nat |
| Binding 2 | Hem 2 | Een geel tijgertje drinkt water en een groene tijger likt hem |
| Binding 3 | Zichzelf 1 | Een rood aapje zit op een steen en een groene aap krabt zichzelf |
| Binding 4 | Zichzelf 2 | Een rood aapje staat op één been en een bruine aap fotografeert zichzelf |
| Terugverwijzen met ze 1 | Ze = ow met 'en' 1 | Een meisje zwaait naar haar moeder en ze danst met een blauwe aap |
| Terugverwijzen met ze 2 | Ze = ow met 'en' 2 | Het acrobaatmeisje loopt achter de ballerina en ze gooit de rode ballen in de lucht |
| Terugverwijzen met ze 3 | Ze = ow met 'terwijl' 1 | Een acrobaatmeisje fietst naast een ballerina terwijl ze met een oranje lint zwaait |
| Terugverwijzen met ze 4 | Ze = ow met 'terwijl' 2 | Een meisje staat te kletsen met haar kleine zusje, terwijl ze een oranje ijsje eet |