Sensorische informatieverwerking en functionele incontinentie bij kinderen met en zonder het Autisme Spectrum Stoornis (ASS).

Universiteit Utrecht

Clinical Child, Family and Education Studies

Master

2020-2021

Naam : Anne Neelen *(5960320)*

Cursus : Clinical Child, Family and Education Studies: Thesis *(201600202)*

Eerste beoordelaar : Mevr. R. Schappin

Tweede beoordelaar :

Datum : 22 juni 2021

Woorden : 4422

Abstract

Children with autism (ASS) have been observed to experience urine-incontinence on a frequent basis. Approximately 7-19% of children with ASS experience urine-incontinence, compared to 4-9% for children without ASS, which is a significant difference. According to research, children with ASS have trouble registering and processing external incentives which could point out a relation between the ability of processing information or stimuli, and the extent of urine-incontinence. The current study focusses on the relation between the processing capabilities (Short Sensory Profile) of children with ASS and urine-incontinence. In total 185 parents of children, between the age of 6 and 12, participated in this research program. The participating parents have been divided in four distinctive groups: (1) parents of children (n=74) without ASS, (2) parents of children (n=54) who experience incontinence, (3) parents of children (n=39) with ASS, and (4) parents of children (18) who experience both ASS and incontinence. The results of this study prove that both children with and without ASS show significant shortcomings in the processing of incentives and stimuli. Furthermore, the diagnoses ASS was found to be correlated to urine-incontinence. However, no conclusive results were found which suggest a moderation (ASS) effect in the relation of information processing and the extent of urine-

Keywords: Autism, Sensory information processing, functional urine-incontinence, Short Sensory Profile

Samenvatting

Bij kinderen met autisme (ASS) is functionele urine-incontinentie een veelvoorkomend verschijnsel. Circa 7-19% van de totale groep kinderen met ASS heeft te kampen met urine-incontinentie. Dit is significant meer ten opzichte van de groep kinderen zonder ASS (4 – 9 %). Uit onderzoek is gebleken dat kinderen met ASS moeilijkheden ervaren met het registreren en verwerken van prikkels. Hierdoor zou een verband kunnen bestaan tussen de mate van sensorische informatieverwerking (Short Sensory Profile) en mate van urine-incontinentie. Huidige studie heeft als doel het verband tussen de mate van sensorische informatieverwerking en de mate van urine-incontinentie nader te onderzoeken. Daarnaast wordt gekeken of ASS een modererende rol heeft voor deze samenhang. In totaal hebben 185 ouders van kinderen tussen de zes en twaalf jaar deelgenomen. Participanten zijn onderverdeeld in vier groepen: Groep één, bestaande uit kinderen (n = 74) zonder ASS-diagnose. Groep twee bestaande uit kinderen (n = 54) met enkel urine-incontinentie problematiek. Groep drie bestaande kinderen (n = 39) met enkel ASS. Groep vier bestaande uit kinderen (n = 18) met zowel ASS als urine-incontinentie problematiek. Resultaten bevestigen dat kinderen met en zonder ASS significante tekorten laten zien in de sensorische informatieverwerking. Ook bleek de diagnose ASS significant samen te hangen met urine-incontinentie. Er is echter geen sprake van een moderatie (ASS) effect voor het verband tussen mate van sensorische informatieverwerking en mate van urine-incontinentie.

Trefwoorden: ASS, sensorische informatieverwerking, functionele urine incontinentie, Short Sensory Profile

Tussen het tweede en vierde levensjaar raken de meeste kinderen in Nederland zindelijk (Klijn et al., 2015). Zindelijkheid behoort tot een van de ontwikkelingsmijlpalen die een kind gedurende zijn leven bereikt, de plas en poepreflex krijgen kinderen dan onder bewuste controle. Om zindelijk te kunnen worden moet een kind voelen dat zijn blaas vol is, vervolgens moet hij dit kunnen ophouden om naar het toilet te gaan. Daaropvolgend moet er gerichte druk op de blaas komen om te kunnen plassen. Echter blijkt dat veel schoolgaande kinderen, tussen de zes en twaalf jaar, problemen ervaren omtrent zindelijkheid. Deze groep bedraagt zo'n 4 - 9% van de totale populatie (Gontard et al., 2017). Bij kinderen met speciale behoeften, zoals het Autisme Spectrum Stoornis (hierna ASS) is de prevalentie zelfs 7 - 19% (Gontard et al., 2015; Gontard et al., 2017; Landman et al., 2017). Incontinentie is daarmee één van de meest voorkomende problemen in de kinderleeftijd (Van Hoecke et al., 2007). Onafhankelijk van de oorzaak heeft urine-incontinentie (hierna UI) een negatieve invloed op het leven van kinderen (Palmer et al., 2012). Hoewel incontinentieproblemen regelmatig voorkomen worden veel kinderen niet adequaat beoordeeld en behandeld. Het doel van huidige studie is de mate van functionele urine-incontinentie bij kinderen mét en zonder ASS nader te onderzoeken.

UI kan gedefinieerd worden als ongewenst urineverlies vanaf het vijfde levensjaar of wanneer de blaascontrole is bereikt. Er moet sprake zijn van minimaal één keer per maand een kleine of grote hoeveelheid urineverlies, ook wel mictie, met daartussen droge periodes gedurende de dag of de nacht. De klachten moeten minimaal een periode van drie maanden aanhouden (Nevéus et al., 2006). Bij veel kinderen met incontinentieproblematiek is er sprake van functionele urine-incontinentie (hierna FUI). FUI wordt niet veroorzaakt door een afwijking aan de blaas(functie). Deze kinderen lijken te verschillen in hun percepties van volheid van de blaas ten opzichte van kinderen die wel zindelijk zijn (Cupelli et al., 2014). FUI kan onderverdeeld worden in twee subgroepen, urge incontinentie en dysfunctional voiding. Urge incontinentie is een plotseling opkomende aandrang om te plassen. Dysfunctional voiding is een verminderd blaasgevoel als gevolg van uitstelgedrag (Neveus et al., 2006).

Uit onderzoek is gebleken dat er een verband bestaat tussen FUI en de sensorische registratie van de blaas welke onderdeel is van de sensorische informatieverwerking (hierna SI) (Kern et al., 2016). De SI is een term die verwijst naar het vermogen van het centrale zenuwstelsel om zintuigelijke informatie te registreren, te ordenen en te interpreteren (Bogdashina, 2014). Het model of Sensory Processing (Dunn, 1997) is gebaseerd op interactie tussen neurologische drempels en gedragsresponsen van personen welke in een continuüm

worden geplaatst. Neurologische drempels zijn de hoeveelheid prikkels die nodig zijn om een neuron te activeren. Dit kan oplopen van laag (er zijn weinig prikkels nodig) naar hoog (er zijn veel prikkels nodig). Een gedragsrespons ook wel zelfregulatie genoemd heeft betrekking op de manier waarop personen reageren op drempels. Dit kan actief (gevoelig reageren) of juist passief (onder gevoelig reageren) zijn. Bij een actieve respons werkt men tegen de prikkel in om een evenwicht te bereiken. Bij een passieve respons laat men prikkels over zich heen komen. Zowel de neurologische drempel als de gedragsrespons vormen een continuüm welke een voortdurende wisselwerking op elkaar hebben. Er ontstaan wanneer de drempel en gedragsrespons in een matrix worden gezet vier patronen: gebrekkige registratie, prikkel zoekend, sensorische gevoeligheid en prikkel vermijdend. Succesvolle integratie en verwerking van prikkels is essentieel voor het dagelijks functioneren (Dunn, 1999).

Verschillende studies laten een samenhang zien tussen SI en incontinentieproblematiek (Bellefeuille et al., 2013; Cupelli et al., 2014; Pallock et al., 2014). In de studie van Cupelli en collega's (2014) werd bij 209 gezonde kinderen tussen de zes en twaalf jaar die de polikliniek urologie bezochten de Short Sensory Profile ([SSP]Dunn, 1999) ingevuld. Er werd een negatieve samenhang gevonden tussen SI en UI. Met behulp van een t-test was de totaalscore op de SSP van deelnemende participanten met UI significant lager ($p = .007$) in vergelijking met de normgroep van de SSP (Dunn, 1999). In een studie van Pollock en collega's (2014) werd bij negentien kinderen, tussen de vijf en tien jaar met functionele urine- en darm incontinentie en 55 gezonde kinderen van dezelfde leeftijdsgroep (controlegroep), de SSP (Dunn, 1999) en Vancouver Nonneurogenic Lower Urinary Tract Dysfunction/Dysfunctional Elimination Syndrome Questionnaire ([NLUTD/DES] (Afshar et al., 2009) ingevuld. Ook hier werd een significante negatieve samenhang gevonden voor FUI en problemen in de SI. Er werd een significant negatieve correlatie (Spearman's $\rho = -.493$, $p < .001$) gevonden. Een hoge score op de NLUTD/DES werd geassocieerd met een lage totaalscore op de SSP wat suggereert dat de ernst van de twee variabelen gerelateerd is aan elkaar. Middels een $n = 1$ studie van Bellefeuille en collega's (2013) werd onderzocht wat de werkzame factoren zijn bij behandeling van UI. Middels de SSP (Dunn, 1999) werd een voor- en nameting in de mate van SI getoetst. Uit de resultaten kwam naar voren dat naarmate het kind verscheiden therapiesessies had doorlopen en er sprake was van minder mictieverlies, de totaalscore op de SSP significant was verbeterd ten opzichte van de voormeting. Dit suggereert dat de mate van SI samenhangt met UI. Desondanks blijft onderzoek naar SI bij gezonde kinderen beperkt.

Er komt daarentegen steeds meer wetenschappelijke aandacht voor de samenhang tussen een afwijkende SI en ASS (Bogdashina, 2004; Rogers & Ozonoff, 2005; Tomchek & Dunn, 2007). Studies hebben aangetoond dat 70 – 100% van de kinderen met ASS SI problemen ervaren waardoor zintuigelijke informatie wel wordt ontvangen maar niet of niet goed wordt verwerkt in de hersenen. Hierdoor wordt betekenis verlenen aan deze zintuigelijke informatie bemoeilijkt (Adamson et al., 2006; Ben- Sasson et al., 2007). Tomchek & Dunn (2007) onderzochten de SI bij 400 kinderen met ASS en 1075 kinderen zonder ASS tussen de 3 en 10 jaar. Ouders /verzorgers vulden voor hun kinderen de SSP (Dunn,1999) in. Met behulp van een MANOVA-analyse werd duidelijk dat kinderen met ASS significant lagere totaalscores behaalden op de SSP (p <.001) ten opzichte van kinderen zonder ASS. Kleine tot matige effect grotes werden gevonden (.219 – .628) voor onderreactief/zoekt prikkels, smaak/reuk gevoeligheid, auditieve filtering en tactiele gevoeligheid. Dit bleek ook het geval in de studie van Kenn en collega's (2007) waarbij 104 participanten zowel met als zonder ASS, de SSP (Dunn, 1999) hebben ingevuld. Uit bovenstaande studies blijkt dat ASS vaker wordt geassocieerd met een afwijkende SI ten opzichte van kinderen zonder ASS, waarbij zij veelal ondergevoelig reageren.

Behalve dat er een sterke samenhang bestaat tussen ASS en een afwijkende SI tonen andere studies aan dat ASS een sterke samenhang heeft met incontinentieproblematiek. Er is de afgelopen jaren veel onderzoek gedaan naar incontinentieproblematiek bij kinderen met ASS met name gericht op gastro-intestinale incontinentie ofwel ontlastingsincontinentie. Onderzoeken toonden aan dat er een significante samenhang bestaat tussen ASS en ontlastingsincontinentie (Buie et al., 2010; Margolis, 2020). Onderzoek naar het verband tussen FUI en ASS is daarentegen zeer beperkt concluderen Van Gonthard en collega (2013) in een review studie. Hierdoor werden in een cross-sectionele studie Van Gonthard en collega (2015), enkele jaren later, 40 kinderen met ASS en 40 kinderen zonder ASS gescreend op UI middels twee vragenlijsten. Er werd gecorrigeerd op het intelligentie Quotient (IQ). Uit de resultaten kwam naar voren dat bij 30% van de kinderen met ASS sprake was van UI ten opzichte van 0% bij kinderen zonder ASS. Een laag IQ blijkt hierbij een negatief modererend effect te hebben. Ook Niemczyk en collega (2018) hebben middels een systematisch review een kritische blik geworpen op UI bij ASS. Zij concludeerden dat er verhoogde prevalenties zijn van UI bij kinderen met ASS in vergelijk met kinderen zonder ASS. Echter is er nog geen eenduidige verklaring voor de hoge prevalentie van incontinentieproblematiek bij kinderen met ASS. Wel zijn er enkele typerende gedragskenmerken van kinderen met ASS die zindelijkheid in de weg kunnen staan waaronder een algemene ontwikkelingsachterstand,

spraak-taalproblematiek en/of een verstoorde SI (Nieuwhof-Lepping et al., 2019; Niemczyk et al., 2018). Studies naar UI en ASS zijn zeer beperkt. In bestaande studies zijn voornamelijk kinderen met ASS en UI geïncludeerd, vrijwel geen kinderen met ASS zonder UI. Opvallend is dat ondanks beperkt onderzoek naar UI en ASS er wel verschillende toilettrainingen ontwikkeld zijn speciaal voor kinderen met ASS. De resultaten op deze therapie zijn veelbelovend (van Gontard, 2015).

Met enige voorzichtigheid kan worden geconcludeerd dat er sprake is van een mogelijke negatieve samenhang tussen UI en SI en dat deze samenhang sterker is voor kinderen met ASS. Onderzoek naar UI en SI bij zowel kinderen met als zonder ASS is echter zeer beperkt. Tevens zijn er grote limitaties en zeer heterogene populaties waardoor er zeer voorzichtig moet worden omgegaan met resultaten. Desondanks is het belangrijk dat er meer wetenschappelijke en maatschappelijke aandacht komt voor UI bij kinderen met ASS om vroegtijdig interventie te kunnen inzetten. In dit onderzoek wordt getracht de samenhang tussen SI en UI bij kinderen met ASS tussen de zes en twaalf jaar nader te onderzoeken. De onderzoeksvraag luidt als volgt: Is er een samenhang tussen SI en FUI? Is er sprake van een modererend effect voor ASS? Op basis van recente literatuur wordt verwacht dat een verstoorde SI negatief samenhangt met FUI en dat deze samenhang sterker is voor kinderen met ASS ten opzichte van kinderen zonder ASS (Bellefeuille et al., 2013; Cupelli et al., 2014; Niemczyk et al., 2018; Pallock et al., 2014).

Methode

Participanten

Ouders van kinderen met en zonder ASS en met en zonder blaasproblemen in de leeftijd van zes tot twaalf jaar werden geïncludeerd. Kinderen werden geïncludeerd als er sprake was van een klinische diagnose ASS vastgesteld door een kinderpsychiater of kinderpsycholoog, en/of wanneer er sprake was van dusdanige incontinentieproblematiek dat zij in aanmerking kwamen voor urotherapie in het Wilhelmina Kinderziekenhuis te Utrecht.

Kinderen (n = 23), waarbij sprake was van comorbide problematiek waaronder gedragsmatige stoornissen zoals ADHD, psychiatrische problematiek, verstandelijke beperking (IQ<80) of een leeftijd jonger dan zes jaar of ouder dan twaalf jaar zijn niet geïncludeerd.

Steekproef

Uit de literatuur bleek dat een effectgrootte van Cohen's d = .36 kon worden verwacht (Cohen, 1992). Dit komt overeen met een waarde van Cohen's f = .18. Op basis van de

sample size berekening werd in de hoofdstudie uitgegaan van een steekproefgrootte van n = 248 met vier even grootte groepen. De huidige steekproef bestaat uit 185 participanten. Participanten tussen de zes en twaalf jaar werden onderverdeeld in vier groepen (zie Tabel 1). Groep één, bestaande uit 74 kinderen zonder diagnose. Groep twee bestaande uit 54 kinderen met enkel incontinentie problematiek. Groep drie bestaande uit 39 kinderen met enkel ASS. Groep vier bestaande uit achttien kinderen met zowel incontinentie problematiek als ASS.

Procedure

De date is verzameld middels een gemakssteekproef op basis van een cross-sectioneel studiedesign via ouders van kinderen in het Wilhelmina Kinderziekenhuis te Utrecht, GGZ centraal te Amersfoort, de website van de Nederlandse Vereniging voor Autisme en basisscholen in de regio Utrecht en Amersfoort. De ouders werden op de polikliniek van het Wilhelmina Kinderziekenhuis, GGZ centraal of telefonisch door hun behandelaar gevraagd of ze wilden deelnemen aan het onderzoek. Bij belangstelling ouders thuis een informatiepakket namens hun behandelaar met daarin uitleg over het onderzoek, een toestemmingsformulier en vragenlijsten met retourenvelop. Ouders die via de website van de Nederlandse Vereniging voor Autisme aangaven interesse te hebben in deelname aan het onderzoek ontvingen thuis hetzelfde informatiepakket. Ouders die via de scholen werden benaderd ontvingen een informatiebrief en toestemmingsformulier met een retourenvelop gericht aan het WKZ. Na ontvangst van het toestemmingsformulier kregen deze ouders de vragenlijst opgestuurd inclusief de retourenvelop. Bij geen respons belde de behandelaar/onderzoeker na 21 dagen het gezin op om te vragen of de onderzoeksinformatie duidelijk was en men alsnog wilde deelnemen door de vragenlijsten in te vullen. Vragenlijsten werden ingevuld door ouders/verzorgers van het kind. Het onderzoek is voorgelegd aan de METC-commissie, een verklaring niet-WMO plichtig is afgegeven. Alle ouders van deelnemende kinderen hebben informed consent gegeven.

Meetinstrumenten

Incontinentie. De mate van incontinentie is gemeten middels een mictieanamnese. Dit is een vragenlijst welke normaliter bij de klinische intake van kinderen op de incontinentiepolikliniek wordt gebruikt. Het geeft inzicht in de reden van komst, het plas/poep patroon en eventuele bijkomende problematiek. In het huidige onderzoek zal enkel vraag acht worden gebruikt ‘hoeveel urine verliest uw kind?’. Middels een zes-puntsschaal wordt aangegeven in hoeverre er sprake is van incontinentie. De antwoordcategorieën zijn als volgt:

0) kind is niet nat, 1) meestal wordt de onderbroek nat (klein beetje), 2) meestal wordt de onderbroek nat (flink), 3) meestal wordt de onder- en bovenbroek nat, 4) zeer wisselend en 5) draagt een luier.

Sensorische informatieverwerking. Om de SI van kinderen in kaart te brengen is gebruik gemaakt van de Short Sensory Profile (SSP) (Dunn, 1999) vragenlijst. De SSP meet het vermogen tot SI tussen vier en twaalf jaar. Het is een vragenlijst welke ingevuld wordt door de ouders van het kind. De items beschrijven reacties van een kind op diverse sensorische ervaringen, met name sensorische modulatie wordt uitgevraagd. De antwoordopties geven door middel van een vijf-puntsschaal de frequenties van een reactie weer (bijna nooit, zelden, af en toe, vaak, bijna altijd). De vier hoofschalen die gemeten worden zijn: gebrekkige registratie, prikkel zoekend, gevoeligheid voor prikkels en prikkel vermijdend. De genormeerde scores zijn ruwe scores met bijbehorende kwalificaties (Veel minder dan anderen, minder dan anderen, vergelijkbaar met anderen, meer dan anderen, veel meer dan anderen). De variabele SI in huidig onderzoek is ontstaan door de schaalscores op te tellen tot één totaalscore.

Onderzoek wijst uit dat er een sterke relatie bestaat tussen ouderrapportage en objectieve metingen van de sensorische functies van kinderen. De interne betrouwbaarheid van totaal- en schaalscores lag tussen 0.70 en 0.90 (Guttman Lambda-2) en discriminant validiteit van >95%. Om de validiteit te onderzoeken is gekeken naar de inter-itemcorrelaties en de item-rest correlatie. De correlaties van de secties liggen tussen de .19 en .72. Uit de item-rest correlaties blijken alle waarden te voldoen aan de eis dat deze boven de .20 liggen (Dunn, 2001). Dit maakt de SSP betrouwbaar en valide als onderzoeksinstrument.

Autisme Spectrum Stoornis. Indien er sprake is van een klinische classificatie ASS werd ouders gevraagd wie de diagnose heeft vastgesteld.

Analyseplan

Alle data is geanalyseerd met behulp van het programma Statistics Package for Social Science (SPSS 25) (IBM Corp, 2017). In deze studie is gebruik gemaakt van een multipele regressieanalyse. Deze techniek biedt de mogelijkheid te toetsen of de onafhankelijke variabele (SI en de covariaten leeftijd, geslacht en moderator ASS) invloed hebben op de afhankelijke variabele (mate van UI) als ook het interactie-effect (SI x ASS). De variabele ASS is dichotoom en fungeert in deze analyse als moderator. De variabele SI en mate van incontinentie zijn beide van interval meetniveau. Extreme uitschieters die door middel van een boxplot, mahalonobis distance, Cook's distance en de Z-score <3 of >3 werden

opgespoord, zijn uit de onderzoeksgroep verwijderd. De variabelen SI en UI zijn gecentreerd alvorens de interactievariabele is aangemaakt en assumpties zijn getoetst.

Voorafgaand aan de analyse is getoetst of er is voldaan aan de assumpties voor een hiërarchische multiple regressie (Field, 2013). Normaalverdeling is getoetst middels een Shapiro-Wilk-Toets. Met een $p < .05$ wordt er niet voldaan aan normaalverdeeldheid. Wanneer met behulp van een histogram wordt gekeken naar de frequentieverdeling, blijkt dat de residuen niet volledig normaal zijn verdeeld. Dit wordt bevestigd als wordt gekeken naar de skewness. Zowel de afhankelijke- (skewness = 1.28, SE = .18, z = 7.11) als de onafhankelijke variabelen (skewness = 1.42, SE = .18, z = 7.89) blijken rechtsscheef verdeeld. Als wordt gekeken naar de bijbehorende z-scores bij een 95% betrouwbaarheidsinterval kan geconcludeerd worden dat beide niet significant zijn, wat duidt op een niet normaalverdeeldheid van de variabele SI en mate van UI. Als wordt gekeken naar de kurtose, blijken beide variabelen daarentegen wel normaal verdeeld. Aangezien niet is voldaan aan de assumptie normaalverdeeldheid is een cube root transformatie uitgevoerd. Deze transformatie is met name geschikt voor het corrigeren van de skew naar rechts met negatieve waardes (SI) (Piepho, 2009). Na deze transformatie wordt eveneens niet voldaan aan de assumptie normaliteit. Gezien de grote van de sample (n =185) kan volgens de Limit theorem worden aangenomen dat weliswaar wordt voldaan aan de aanname van normaliteit (Borkar, 1995). Lineariteit is getoetst middels een spreidingsdiagram van de afhankelijke- en onafhankelijke variabele. De invloed van SI op UI is constant. Multicollineariteit is getoetst middels een VIF-score. Met een VIF-score <4 op alle variabelen is er geen sprake van multicolinariteit (Miles & Shevlin, 2001). Homoscedasticiteit is getoetst middels een p-plot. Voor elke waarde van de variabele UI en SI liggen de scores even ver van de regressielijn. Aan deze assumpties is grotendeels voldaan.

Vervolgens is er een stapsgewijze multipele regressieanalyse uitgevoerd met als afhankelijke variabele de mate van urineverlies. In stap één de covariaten (leeftijd kind, geslacht kind en ASS), in stap twee de onafhankelijke variabele de mate van problemen op het gebied van SI op basis van de totale schaalscore op de Short Sensory Profile NL (SSP-NL) en in stap drie de interactie variabele (SI X ASS).

Resultaten

Beschrijvende statistiek

De onderzoeksgroep bestond uit 185 participanten tussen de zes en twaalf jaar. Participanten werden onderverdeeld in vier groepen (zie Tabel 1). Er zijn een aantal punten welke opvallen als gekeken wordt naar de beschrijvende analyse. Ten eerste heeft één participant binnen de groep ‘geen diagnose’ wel urine-verlies. Dit kan verklaard worden doordat er naar alle waarschijnlijkheid sprake zal zijn van bedplassen, hetgeen in de huidige studie niet wordt beschouwd als UI. Ten tweede is het opvallend dat het percentage jongens (62%) zichtbaar hoger ligt dan het percentage meisjes (38%). Dit kan mogelijk verklaard worden doordat de diagnose ASS significant vaker gesteld wordt bij jongens dan bij meisjes (Matson & Kozlowski, 2011). Tot slot zijn de vier groepen ongelijk verdeeld, waarbij de groep zonder diagnose aantoonbaar groter is (n = 74) dan de groep ASS en incontinentie (n = 18).

Tabel 1

Beschrijvende statistiek

	Geen diagnose		Alleen incontinent		Alleen ASS		ASS en incontinent		Totaal	
	M (SD)	*N (%)*	*M (SD)*	*N (%)*	*M (SD)*	*N (%)*	*M (SD)*	*N (%)*	*M*	*N*
Leeftijd in jaren	9.03 (1.74)	74	8.46 (1.51)	54	9.21 (1.79)	39	8.72 (1.74)	18	8.87 (1.70)	185
Jongen*	-	42 (56.7)	-	26 (48.1)	-	31 (79.5)	-	15 (83.3)	-	114 (61.8)
Incontinentie										
Kind is droog		71 (95.9)		-		38 (97.4)		1 (5.6)		110 (59.1)
Meestal onderbroek nat – klein beetje		-		17 (31.5)		-		9 (50)		26 (14.0)
Meestal onderbroek nat – flink nat		-		8 (14.8)		-		4 (22.2)		12 (6.5)
Meestal worden onderbroek en bovenbroek nat		1 (1.4)		17 (31.5)		-		2 (11.1)		21 (11.3)
Zeer wisselend		-		9 (16.7)		1 (2.6)		2 (11.1)		12 (6.5)
Draagt een luier		-		2 (3.7)		-		-		2 (1.1)
Totaal Sensory Profile										
Normaal		71 (95.9)		43 (79.6)		14 (35.9)		3 (16.7)		131 (70.8)
Meer dan anderen		2 (2.7)		7 (13.0)		13 (33.3)		7 (38.9)		29 (15.7)
Veel meer dan anderen		1 (1.4)		2 (3.7)		12 (30.8)		8 (44.4)		23 (12.4)

Noot. Jongen = 1

Multipele regressie met onafhankelijke variabele en covariaten

Middels een hiërarchische multiple lineaire regressie (Tabel 2) is getoetst of ASS een modererende rol heeft voor het verband tussen de mate van SI en de mate van UI.

In Model 1 zijn de covariaten leeftijd, geslacht en de moderator ASS opgenomen. Model 1 bleek significant (R^2 = 0.06, F (3, 176) = 3.70, p = .01). De verklaarde variantie bedraagt 6%. Binnen het model is er een positief significant effect gevonden voor leeftijd. Voor de variabele geslacht en ASS is echter geen significant effect gevonden.

In Model 2 is de mate van SI opgenomen op basis van de normscores op de subschalen van de SSP-NL. Model twee bleek significant (R^2 = .09, F (4, 175) = 3.97, p = .004). Het betreft een significant verbetering ten opzichte van Model één ($^{\Delta}R^2$= .06, p = .05). De verklaarde variantie bedraagt slechts 2%, wat minimaal is. Binnen het model is er een significant effect gevonden voor mate van SI, ASS en leeftijd. Er is geen significant effect gevonden voor geslacht.

Hieruit blijkt een negatieve significante samenhang tussen FUI en mate van SI bij kinderen tussen de zes en twaalf jaar.

Multipele regressie met moderatie

In Model 3 is getoetst of ASS een modererende rol heeft voor de samenhang tussen de mate van SI en de mate van UI. Model drie bleek op basis van de analyse significant (R^2 = .09, F (5, 174) = 3,41, p = .006). Binnen de analyse bleek de interactievariabele op basis van de mate van SI en ASS daarentegen niet significant. De variabele is verantwoordelijk voor 6% verklaarde variantie ($^{\Delta}R^2$ = .06, p = .29). Er is geen sprake van een interactie-effect voor de samenhang tussen SI en mate van UI. ASS blijkt de negatieve samenhang tussen SI en UI niet te versterken.

Tabel 2

Multiple regressieanalyse voor de samenhang tussen SI en mate van UI met ASS als moderator.

	B (*SE*)	*β*	t
Model 1			
Contante	2.19 (.54)		
Geslacht	.11 (.11)	.08	1.03
Leeftijd	-.14 (.06)	-.12	-2.44*
Diagnose ASS	-.16 (.11)	-.18	-1.50
Model 2			
Constante	2.01 (.54)		
Geslacht **	.12 (.10)	.09	1.13
Leeftijd	-.13 (.06)	-.16	-2.09*
Diagnose ASS	-.31(.13)	-.23	-2.43*
Sensorische informatieverwerking (totaal)	.36 (.18)	.19	1.02*
Model 3			
Constante	2.01(.54)		
Geslacht	.12 (.10)	.09	1.16
Leeftijd	-.12 (.06)	-.14	-1.93
Diagnose ASS	-.31 (.13)	-.23	-2.40*
Sensorische informatieverwerking (totaal)	.51 (.22)	.26	2.26*
Autisme x SI	-.19 (.18)	-.11	-1.07

Noot. * Significant effect bij $p < .05$, ** jongen = 1

Discussie en conclusie

Bij kinderen met ASS is vaker sprake van functionele incontinentie binnen de leeftijd van zes tot twaalf jaar ten opzichte van kinderen zonder ASS van dezelfde leeftijd. De SI lijkt van invloed te zijn op de mate van UI. Bij kinderen met ASS lijkt de SI anders ontwikkeld te zijn ten opzichte van kinderen zonder ASS (Tomchek & Dunn, 2007). Er is nog weinig onderzoek verricht naar de invloed van SI op FUI bij zowel kinderen met als zonder ASS. Desondanks is het van maatschappelijk belang om inzicht te krijgen in hoe UI bij deze kinderen met ASS verklaard kan worden. Het doel van deze studie was dan ook te onderzoeken in hoeverre er een samenhang bestaat tussen de mate van sensorische-informatieverwerking en mate van UI. Daarnaast werd gekeken of ASS een modererend effect heeft op deze samenhang.

Uit de bevindingen van de huidige studie kwamen de volgende resultaten naar voren. Ten eerste is, zoals verwacht, een negatieve significante samenhang gevonden voor mate van SI en mate van UI. Hoe meer de SI afwijkt van de normgroep, ofwel hoe lager de score op de SSP, hoe ernstiger de UI. De uitkomst sluit aan bij eerder gedane studies, allen gebaseerd op

de SSP (Bellefeuille et al., 2013; Cupelli et al., 2014; Pallock et al., 2014). Een mogelijke verklaring hiervoor is een passieve zelfregulatie, waarbij het kind prikkels over zich heen laat komen, in combinatie met een hoge prikkeldrempel waarbij prikkels niet snel opgemerkt worden. Bijgevolg dat de blaasvolheid niet opgemerkt wordt (Dunn, 2002).

Ten tweede werd er een significante samenhang gevonden voor de aanwezigheid van ASS en UI. Bij kinderen met ASS is er vaak sprake van UI. In verscheidene studies (Bogdashina, 2004; Rogers & Ozonoff, 2005; Tomchek & Dunn, 2007) wordt dit bevestigd. Hoewel er nog geen eenduidige oorzaak gevonden is voor deze samenhang lijkt SI hierin een rol te spelen. Kinderen met ASS hebben typerende gedragskenmerken welke het adequaat doorlopen van de zindelijkheidsontwikkeling in de weg kunnen staan. Onder andere een verminderde zelfredzaamheid, spraak-taalontwikkeling en sensorische problemen lijken hierbij een rol te spelen aldus (Nieuwhof-Leppink et al., 2019). Volgens Happé (2005) hebben kinderen met ASS een beperkte centrale coherentie, hierdoor zijn zij niet in staat losse elementen samen te voegen tot één geheel. De samenhang tussen het lijf en het hoofd ontbreekt, waardoor het signaal van de blaasdruk niet of niet op tijd kan worden omgezet naar een handeling. Een andere mogelijke oorzaak is dat kinderen met ASS voor andere prikkels, veelal omgevingsprikkels, overgevoelig zijn. Continue staat van overprikkeling zorgt ervoor dat zij niet of minder goed instaat zijn adequaat te reageren op interne zintuigelijke prikkels, waardoor zij de blaasdruk niet opmerken (Tomchek & Dunn, 2007).

Uit de resultaten komt daarentegen naar voren dat er geen sprake is van een moderatie effect van ASS op de samenhang tussen SI en UI. Het verband tussen SI en UI is dus niet sterker voor kinderen met ASS ten opzichte van kinderen zonder ASS. Een mogelijke verklaring hiervoor is dat in huidig onderzoek is uitgegaan van de totale score op de SSP om SI te meten. Uit de literatuur blijkt echter dat bij kinderen met ASS sprake is van zowel overgevoelig als onder gevoelig reageren en dat dit verschilt per domein (Kenn et al., 2007; Tomchek & Dunn, 2007). Mogelijk corrigeert de totaalscore op de SSP voor deze afwijkende schaalscores, waardoor kinderen met ASS alsnog een gemiddelde totaalscore behalen en de samenhang tussen SI en UI niet sterker is voor kinderen met ASS. Ook kan het zo zijn dat de streekproef niet groot genoeg, immers blijkt uit de sample size berekening dat het aantal participanten minimaal 248 moet bedragen om een effect aan kunnen tonen.

Deze studie heeft een aantal limitaties die in acht genomen moeten worden. Ten eerste is gebruik gemaakt van een gelegenheidssteekproef, hetgeen zorgt voor een minder goede afspiegeling van de totale populatie. Het geeft daarnaast een vertekend beeld, omdat participanten voornamelijk geworven zijn via derdelijns instellingen. Deze kinderen hebben

doorgaans complexere klachten ten opzichte van kinderen binnen eerste- of tweedelijns instellingen. Anderzijds is het de vraag hoeveel kinderen daadwerkelijk binnen eerste en tweedelijns instellingen geholpen kunnen worden gezien de complexiteit van de problematiek. Een bijkomend gegeven is dat de onderzoeksgegevens gebaseerd zijn op interpretaties van ouders en een screeningsinstrument (SSP). Objectieve testen hadden moeten worden gebruikt om de symptomen voor UI objectief te beoordelen (Anzalone & Lande, 2011). De kanttekeningen omtrent de steekproef leiden ertoe dat de onderzoeksresultaten slechts in beperkte mate generaliseerbaar zijn naar de totale populatie kinderen met en zonder ASS en UI.

Ondanks de kanttekeningen is de huidige studie één van de eerste studies naar de samenhang tussen SI en urine-incontinentie, waarbij verschillende groepen kinderen zijn geïncludeerd en worden vergeleken. Bestaand onderzoek naar deze samenhang en de rol van ASS is zeer beperkt (Von Gonthard et al., 2015). De huidige studie biedt implicaties voor toekomstig onderzoek. Studies welke al zijn uitgevoerd kennen een grote diversiteit aan inclusiecriteria en onderzoeksmethode, dit maakt het lastig studies onderling met elkaar te vergelijken. Landelijk onderzoek waarbij onderscheidt gemaakt wordt tussen verschillende sensorische integratie (tactiel, visueel etc.) op UI bij zowel kinderen met als zonder ASS wordt dan ook sterk aanbevolen. Op deze manier kunnen gericht (preventieve) interventies worden aangeboden.

Ten eerste is het onbehandeld laten van incontinentie bij kinderen met ASS een groot risico voor eventuele medische klachten zoals blaas en/of urineweginfecties (NVU, 2012). Ten tweede is het belangrijk dat gekeken wordt naar de huidige richtlijnen diagnostiek en behandeling omtrent ASS. Ondanks dat UI een veel voorkomend probleem is staat het nog niet geregistreerd als comorbide probleem van ASS. Ten derde is incontinentie bij kinderen met ASS een nog grotere belasting voor zowel het kind als de ouders. Het kan een ernstige belemmering zijn voor de kwaliteit van leven. Bovendien kan het de afstand tussen ouder en kind nog meer vergroten (Bongers et al., 2009). Tot slot blijkt dat toilettrainingen bij zowel kinderen met als zonder ASS op latere leeftijd een significante verbetering oplevert. Wanneer de onderliggende oorzaak van UI wordt vastgesteld biedt dit mogelijkheden voor het preventief behandelen van kinderen, wat de kans op bijkomende lichamelijke- en sociale klachten drastische verkleind.

Deze studie is één van de weinige welke in Nederland is uitgevoerd en zich specifiek richt op SI en UI bij kinderen met en zonder ASS. Onderzocht is of er een samenhang bestaat tussen mate van SI en FUI. En of deze samenhang sterker is voor kinderen met ASS ten

opzichte van kinderen zonder ASS. Er bestaat een negatieve samenhang tussen SI en UI, echter blijkt ASS in deze studie geen modererende rol te hebben. De samenhang is dus niet sterker voor kinderen met ASS. Dit is opvallend gezien uit de literatuur blijkt dat kinderen met ASS wel vaak afwijkingen in de SI laten zien. Vervolgonderzoek gericht op de specifieke domeinen van SI zal moeten uitwijzen of ASS daadwerkelijk geen significant invloed heeft op de mate van FUI.

Referenties

Afshar, K., Mirbagheri, A., Scott, H., & MacNeily, A. E. (2009). Development of a symptom score for dysfunctional elimination syndrome. *Journal of Urology, 182,* 1939-1943. http://dx.doi.org/10.1016/j.juro.2009.03.009

Arbesman, M., & Lieberman, D. (2010). Methodology for the Systematic Reviews of Occupational Therapy for Children and Adolescents With Difficulty Processing and Integrating Sensory Information. *American Journal of Occupational Therapy, 64(3),* 368–374. http://10.5014/ajot.2010.09068

Adamson, A., O'Hare, A., & Graham, C. (2006). Impairments in sensory modulation in children with autistic spectrum disorder. British Journal of Occupational Therapy, 68, 357-364. https://doi.org/10.1177/030802260606900803

American Psychiatric Association (APA) (2013). *Diagnostic and statistical manual of mental disorders.* (5th ed) (DSM-5).

Anzalone M., & Lane, S. (2011). *Sensory processing disorders. Kids will be kids: a childhood occupations approach.* FA Davis

Bellefeuille, I. B., Schaaf, R. C., & Polo, E. R. (2013). Occupational therapy based on Ayres Sensory Integration in the treatment of retentive fecal incontinence in a 3-year-old boy. *American Journal of Occupational Therapy, 67(5),* 601-606. https://doi.org/10.5014/ajot.2013.008086

Ben-Sasson, A., Hen, L., Fluss, R., Cermak, S., Engel-Yeger, B., & Gal, E. (2009). A meta-analysis of sensory modulation symptoms in individuals with autism spectrum disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders, 39,* 1-11. https://doi.org/10.1007/s10803-008-0593-3

Bongers, M. E., van Dijk, M., Benninga, M. A., & Grootenhuis, M. A. (2009). Health related quality of life in children with constipation-associated fecal incontinence. *The Journal of pediatrics, 154,* 749-753. https://doi.org/10.1016/j.jpeds.2008.11.029

Borkar, V. S. (1995). *Basic Limit Theorems*. Springer https://doi.org/10.1007/978-1-4612-0791-7_4

Buie, T., Campbell, D. B., Fuchs, G. J., Furuta, G. T., Levy, J., van de Water, J., ... & Winter, H. (2010). Evaluation, diagnosis, and treatment of gastrointestinal disorders in individuals with ASDs: a consensus report. *Pediatrics, 125,* S1-S18. https://doi.org/10.1542/peds.2009-1878c

Cupelli, E. T., Escallier, L., Galambos, N., Xiang, S., & Franco, I. (2014). Sensory processing

differences and urinary incontinence in school-aged children. *Journal of pediatric urology*, *10*(5), 880-885. https://doi.org/10.1016/j.jpurol.2014.01.002

Cohen, J. (1992). A power primer. *Psychological Bulletin, 112(1),* 155–159. http://10.1037/0033-2909.112.1.155

Dakurah, M. N., Koo, C., Choi, W., & Joung, Y. H. (2015). Implantable bladder sensors: a methodological review. *International neurourology journal, 19,* 133. https://doi.org/10.5213/inj.2015.19.3.133

Dunn, W. (2001). The sensations of everyday life: Empirical, theoretical, and pragmatic considerations. *American Journal of Occupational Therapy, 55(6),* 608-620. https://doi.org/10.5014/ajot.55.6.608

Dunn, W., Saiter, J., & Rinner, L. (2002). Asperger syndrome and sensory processing: A conceptual model and guidance for intervention planning. *Focus on Autism and other Developmental Disabilities, 17,* 172-185. https://doi.org/10.1177%2F10883576020170030701

Franco, I. (2011). Neuropsychiatric Disorders and Voiding Problems in Children. *Current Urology Reports, 12(2),* 158–165. http://10.1007/s11934-010-0168-7

Franco, I. (2011). The Central Nervous System and its Role in Bowel and Bladder Control. *Current Urology Reports, 12(2),* 153–157. http://10.1007/s11934-010-0167-8

Happé, F. (2005). The weak central coherence account of autism. *Handbook of autism and pervasive developmental disorders, 1,* 640-649.

Huizinga, M., & Smidts, D. P. (2011). Age-related changes in executive function: A normative Study with the Dutch version of the Behavior Rating Inventory of Executive function (BRIEF). *Child Neuropsychology, 17(1),* 51-66. http://10.1002/9780470939345

Hoecke, E. van, Bossche, H. V. van den, Bruyne, E. D. de, Hoebeke, P., & Walle, J. V. van de. (2007). Enuresis and daytime wetting as a biopsychosocial problem: A review. *Expert Review of Pharmacoeconomics & Outcomes Research*, *7*, 633-640. http://10.1586/14737167.7.6.633.

Kern, J. K., Trivedi, M. H., Grannemann, B. D., Garver, C. R., Johnson, D. G., Andrews, A. A., Savla, J. S., Metha, J. A., & Schroeder, J. L. (2007). Sensory correlations in autism. *Autism, 11(2),* 123-134. https://doi.org/10.1177/1362361307075702

Klijn, A. J., Jong, T. P. V. M. de, Nieuwhof-Leppink, A., Chrzan, R., Kuijper, C. F., Mooij, K. L. de, & Dik, P. (2015). Luts bij kinderen. *Tijdschrift voor Urologie, 5,* 13-18. http://10.1007/s13629-015-0004-4.

Landman, M., van Everdingen, E., & Groeneweg, M. (2017). Niet zindelijk naar de Basisschool. Een toenemend probleem? *Tijdschrift voor jeugdgezondheidszorg, 49(3),* 45-48. http://dx.doi.org/10.1007%2Fs12452-017-0103-0

Margolis, K. G., Buie, T. M., Turner, J. B., Silberman, A. E., Feldman, J. F., Murray, K. F., ... & Winter, H. S. (2019). Development of a brief parent-report screen for common gastrointestinal disorders in autism spectrum disorder. *Journal of autism and developmental disorders, 49(1),* 349-362. https://doi.org/10.1007/s10803-018-3767-7

Matson, J. L., & Kozlowski, A. M. (2011). The increasing prevalence of autism spectrum disorders. *Research in Autism Spectrum Disorders, 5(1),* 418-425. https://psycnet.apa.org/doi/10.1016/j.rasd.2010.06.004

Miles, J., & Shevlin, M. (2001). *Applying regression & correlation. A guide for students and researchers.* Sage Publishers.

Nevéus, T., Gontard, A. von, Hoebeke, P., Hjälmås, K., Bauer, S., Bower, W., ... & Djurhuus, J. C. (2006). The standardization of terminology of lower urinary tract function in children and adolescents: Report from the Standardisation Committee of the International Children's Continence Society. *The Journal of Urology*, *176*, 314-324. http://10.1016/S0022-5347(06)00305-3

Newschaffer, C. J., Croen, L. A., Daniels, J., Giarelli, E., Grether, J. K., Levy, S. E., Mandell, D. S., Miller, L. A., Pinto-Martin, J., Reaven, J., Reynolds, A. M., Rice, C. E., Schendel, D., & Windham, G. C. (2007). The epidemiology of autism spectrum disorders. *Annual Review Public Health*, *28,* 235–258. http://10.1146/annurev.publhealth.28.021406.144007

Niemczyk, J., Wagner, C., & Von Gontard, A. (2018). Incontinence in autism spectrum disorder: a systematic review. *European Child & Adolescent Psychiatry*, *27*(12), 1523-1537. https://doi.org/10.1007/s00787-017-1062-3

Nieuwhof-Lepping, A., Schroeder, R. P. J., van de Putte, E. M., de Jong, T. P. V. M., & Schappin, R. (2019). Daytime urinary incontinence in children and adeolescents. *The Lancet Child & Adolescent Health, 3 (7),* 492-501. https://doi.org/10.1016/s2352-4642(19)30113-0

Palmer, M. H., Athanasopoulos, A., Lee, K. S., Takeda, M., & Wyndaele, J. J. (2012). Sociocultural and environmental influences on bladder health. *International Journal of Clinical Practice*, *66,* 1132-1138. http://10.1111/ijcp.12029

Piepho, H. P. (2009). Data transformation in statistical analysis of field trials with changing

treatment variance. *Agronomy Journal, 101(4),* 865-869. https://doi.org/10.2134/agronj2008.0226x

Pollock, M. R., Metz, A. E., & Barabash, T. (2014). Association between dysfunctional elimination syndrome and sensory processing disorder. *American Journal of Occupational Therapy, 68(4),* 472-477. https://doi.org/10.5014/ajot.2014.011411

Suarez, M. A. (2012). Sensory processing in children with autism spectrum disorders and impact on functioning. *Pediatric Clinics of North America, 59,* 203-214. http://10.1016/j.pcl.2011.10.012

Tomchek, S.D., & Dunn, W. (2007). Sensory processing in children with and without autism: a comparitive study using the short sensory profile. *American Journal of Occupational Therapy, 61,* 190–200. https://10.5014/ajot.61.2.190

Von Gontard, A., Pirrung, M., Niemczyk, J., & Equit, M. (2015). Incontinence in children with autism spectrum disorder. *Journal of Pediatric Urology, 11*(5), 264-e1-7. https://doi.org/10.1016/j.jpurol.2015.04.015

Von Gontard, A., De Jong, T. P., Badawi, J. K., O'Connell, K. A., Hanna-Mitchell, A. T., Nieuwhof-Leppink, A., & Cardozo, L. (2017). Psychological and physical environmental factors in the development of incontinence in adults and children. *Journal of Wound, Ostomy and Continence Nursing, 44*(2), 181-187. https://doi.org/10.1097/won.0000000000000308

Wicks-Nelson, R., & Israel, A. C. (2006). *Behavior disorders of childhood.* Pearson Education International.

World Health Organization. (1993). *Mental disorders: A glossary and guide to their classification in accordance with the 10th revision of the international classification of diseases research diagnostic criteria (ICD-10).* WHO.