

Universiteit Utrecht



Universitair Medisch Centrum
Utrecht

Universiteit Utrecht
Master Kinder- en Jeugdpsychologie

THESIS

**Cognitieve flexibiliteit bij kinderen en jong volwassenen met een Autisme
Spectrum Stoornis**

Iris van Ginkel

0457574

06 juli 2009

Begeleider vanuit Kinder- en Jeugdpsychologie : Dr. J. Boom

Begeleiders vanuit het UMC Utrecht : Dr. M. V. de Jonge
Drs. M. A. Agterberg
Drs. R. H. Houben

Voorwoord

Deze thesis beschrijft het onderzoek dat ik als student aan de Universiteit Utrecht heb uitgevoerd, ter afsluiting van de Master Kinder- en Jeugdpsychologie 2008-2009. Het onderzoek is opgezet en uitgevoerd binnen het Universitair Medisch Centrum Utrecht, afdeling Kinder- en Jeugdpsychiatrie. Na het behalen van mijn bachelor Kinder- en Jeugdpsychologie, was deze master een logisch vervolg. Door mijn stage heb ik de mogelijkheid gekregen om mij meer in autisme spectrum stoornissen te verdiepen, waardoor mijn interesse verder gewekt is en deze thesis een waardevolle afsluiting is.

Namens het Universitair Medisch Centrum Utrecht heeft dr. Maretha de Jonge mij ondersteund in het onderzoek door een wetenschappelijke, theoretische en praktische leidraad te bieden. Haar brede theoretische kennis, kritische noten en optimistische houding, hebben mij voortdurend gestimuleerd en hebben het onderzoek inhoudelijk diepgang gegeven. Door waardevolle feedback van drs. Maartje Agterberg, ben ik in staat geweest om mij de theoretische kennis eigen te maken en op een goede manier te verwerken. Daarnaast gaat mijn dank uit naar drs. Renske Houben, voor de praktische begeleiding en zeer prettige samenwerking. Van haar praktische kennis, goede inzichten en een juiste dosis relativeringsvermogen, heb ik veel geleerd tijdens de uitvoering van het onderzoek.

Dr. Jan Boom heeft het onderzoek vanuit de Universiteit Utrecht wetenschappelijk ondersteund. Zijn geruime statistische en praktische kennis, tezamen met zijn kritische inval en opbouwende feedback, hebben het onderzoek theoretisch en inhoudelijk gewicht gegeven. Mijn medestudenten, Randy Snoeck en Erica van de Lugt, wil ik graag bedanken voor de fijne samenwerking en hun stimulerende houding. Tot slot bedank ik de participanten van dit onderzoek. Zonder hun tijd en energie zou dit onderzoek niet mogelijk zijn geweest.

Abstract

Within the current research literature, there is a paradox in the field of cognitive flexibility in autism spectrum disorders. The aim of the present study is to investigate whether there is a difference in cognitive flexibility, between children and young adults with an autism spectrum disorder and children and young adults without the disorder. It is expected that children and young adults with ASD are less flexible than their healthy peers. This study also investigates whether cognitive flexibility, as assessed by neuropsychological tasks, is related to reported autistic traits on the Autism-Spectrum Quotient questionnaire. A weak performance on tasks that assess cognitive flexibility, is expected to be strongly related to reported autistic traits on the questionnaire. To determine cognitive flexibility, two tasks of the D-KEFS were administered to 35 children and young adults between the ages of 9 to 26 years old. Results show that children and young adults with ASD performed significantly worse on the Color-Word Interference Test, in comparison to children and young adults in the control group. Performance on the Design Fluency Test did not differ significantly between both groups. Cognitive flexibility as assessed by the CWIT, appears not to be related to cognitive flexibility as assessed by the DFT. Cognitive flexibility as assessed by both tasks, also appears not to be related to reported autistic traits. In line with this evidence, results from neuropsychological tasks don't always seem to be a good predictor of behaviour in daily practice. In interpreting these results, the limitations of the present study should be taken into account. There also seems to be an indication that both the age and gender of the participants, can affect cognitive flexibility.

Samenvatting

Binnen de huidige onderzoeksliteratuur bestaat er een paradox op het gebied van cognitieve flexibiliteit bij personen met autisme. Het doel van deze studie is om te onderzoeken of er op het gebied van cognitieve flexibiliteit een verschil bestaat tussen kinderen en jong volwassenen met een autisme spectrum stoornis en kinderen en jong volwassenen zonder deze stoornis. De verwachting is dat kinderen en jong volwassenen met ASS minder cognitief flexibel zijn dan gezonde leeftijdgenoten. Tevens wordt onderzocht of de mate van cognitieve flexibiliteit, zoals vastgesteld met de neuropsychologische taken, gerelateerd is aan gerapporteerde autistische kenmerken op de AQ vragenlijst. De bijbehorende verwachting is dat een zwakke prestatie op de cognitieve flexibiliteitstaken sterk gerelateerd is aan gerapporteerde autistische kenmerken op de vragenlijst. Bij 35 kinderen en jong volwassenen in de leeftijdscategorie van 9 tot 26 jaar oud, zijn twee taken van de D-KEFS afgenomen voor het vaststellen van de mate van cognitieve flexibiliteit. De resultaten tonen aan dat kinderen en jong volwassenen met ASS significant slechter presteren op de Color-Word Interference Test, dan kinderen en jong volwassenen uit de controlegroep. Dit is echter niet het geval bij de Design Fluency Test. De mate van cognitieve flexibiliteit zoals vastgesteld met de CWIT, blijkt niet gerelateerd te zijn aan de mate van cognitieve flexibiliteit zoals vastgesteld met de DFT. Ook blijkt de mate van cognitieve flexibiliteit zoals vastgesteld met beide testen, niet gerelateerd te zijn aan gerapporteerde autistische kenmerken. De uitkomst op neuropsychologische taken lijkt daarom niet altijd een goede voorspeller te zijn van gedrag in de dagelijkse praktijk. Bij het interpreteren van dergelijke resultaten, dient rekening gehouden te worden met de beperkingen van het huidige onderzoek. Tevens lijken er aanwijzingen te zijn dat zowel de leeftijd als de sekse van de participanten, van invloed is op de mate van cognitieve flexibiliteit.

Inleiding

Case 3: Richard M.

“At near 5 years, his first move on entering the office was to turn the lights on and off. He climbed on a chair, and from the chair to the desk in order to reach the switch of the wall lamp. He had no contact with people, whom he definitely regarded as an interference when they talked to him or otherwise tried to gain his attention.”

Leo Kanner – 1971, p. 125

Boven aangehaalde casus is slechts één van de elf casussen die Leo Kanner bestudeerde in een klassiek paper uit 1943 (Wenar & Kerig, 2005). Deze psychiater gebruikte de term autisme, om te refereren naar een ongewone groep patiënten die drie essentiële kenmerken gemeen hadden. Deze drie kenmerken zijn tot op heden nog steeds terug te vinden in de vierde editie van de Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders (DSM-IV-TR). Autisme is een ernstige ontwikkelingsstoornis die substantiële sociale, communicatieve en gedragsmatige problemen kent (DSM-IV-TR; American Psychiatric Association, 2001). Binnen het sociale domein ervaren personen met autisme vaak problemen met het gebruik van verschillende non-verbale gedragingen (waaronder oogcontact en gezichtsuitdrukking), het ontwikkelen van relaties met leeftijdgenoten en met sociale of emotionele wederkerigheid. Op het gebied van communicatieve problemen komt naar voren dat er vaak een achterstand bestaat in de ontwikkeling van gesproken taal. Daarnaast bestaan er problemen met het aangaan en voortzetten van conversaties, stereotype gebruik van taal en is er een gebrek aan gevarieerd, spontaan fantasiespel. Gedragmatig vertonen personen met autisme vaak rigiditeit en herhaalde en stereotype patronen van gedrag, interesses en activiteiten.

De term Autisme Spectrum Stoornissen (ASS) wordt klinisch vaak gebruikt om condities te beschrijven die allen in de basis, de drie bovengenoemde beperkingen omvatten, maar waarbij deze in verschillende mate tot uiting komen (Wing, 1996). Autisme, de Stoornis van Asperger en de Pervasieve Ontwikkelingsstoornis Niet Anderszins Omschreven (PDD-NOS), zijn allen stoornissen die geïnccludeerd worden onder de term ASS. De Stoornis van Asperger wordt eveneens gekenmerkt door beperkingen in wederkerige interacties en herhaalde, stereotype patronen van activiteiten en interesses (Frith, 2004). Bij personen met deze stoornis ontstaat er echter geen achterstand in de taal- of intellectuele ontwikkeling. De diagnose PDD-NOS wordt gegeven indien autistische kenmerken ontstaan na het derde levensjaar of wanneer niet alle symptomen aanwezig zijn (Carr, 2006). De prevalentie van autisme wordt geschat op 10 op de 10.000 personen binnen de algehele bevolking, bij de Stoornis van Asperger is dit ongeveer 2.5 per 10.000 personen (Fombonne, 2003). De prevalentie van

PDD-NOS is onbekend, het komt echter vaker voor dan autisme en de Stoornis van Asperger. Autisme is een stoornis die vaker voorkomt bij jongens dan bij meisjes, deze sekse ratio is 3 à 4 : 1 en is sterk gerelateerd aan intellectuele beperkingen. De hoogste man-vrouw ratio wordt gevonden bij kinderen met een Intelligentie Quotiënt (IQ) in de normale range, de laagste ratio wordt gevonden wanneer kinderen sterke intellectuele beperkingen hebben.

Hoewel de oorzaak van autisme onbekend blijft, is het op dit moment wijs geaccepteerd dat er een sterke genetische component bestaat, die van invloed is op het ontstaan van de stoornis (Carr, 2006). Bewijs hiervoor komt vanuit tweelingstudies waarin onderzoek gedaan is naar de concordantie, oftewel de kans dat de stoornis beide tweelingen van een paar treft. Onderzoek uit 1995 van Bailey en collega's toonde aan dat de concordantie voor autisme bij monozygote tweelingen 69% bedroeg, terwijl deze bij dizygote tweelingen niet meer dan 5% bedroeg (in Dawson, et al., 2002). Andere studies hebben een vergelijkbare discrepantie in concordantie ratio aangetoond, hetgeen alleen maar kan duiden op een genetische invloed. Monozygote tweelingen die niet aan de criteria voor autisme voldoen, vertonen echter wel vaak aan autisme gerelateerde symptomen (Wener & Kerig, 2005). Wanneer biologische familieleden van personen met autisme eveneens enkele kenmerken van deze stoornis vertonen, maar niet in voldoende mate voor het stellen van een diagnose, kan gesteld worden dat zij onder het zogeheten 'bredere fenotype' van autisme vallen. Kenmerken van dit fenotype omvatten onder andere persistente sociale en communicatieve beperkingen. Autisme wordt gekenmerkt door genetische heterogeniteit, wat inhoudt dat verschillende genetische afwijkingen allen leiden tot hetzelfde klinische patroon (Wenar & Kerig, 2005). Het model van transmissie is complex en omvat multipale interacterende genen. Slechts bij een zeer klein deel van het aantal personen met autisme (5-10%) is de stoornis wellicht het resultaat van een enkele genverstooring of chromosomale abnormaliteit (Carr, 2006).

Naast onderzoek gericht op het genetische aspect van autisme, zijn er tevens neuropsychologen die geprobeerd hebben om de relaties tussen hersenstructuren, en de daaraan gerelateerde psychologische en gedragsmatige functies, te begrijpen (Sanders, Johnson, Garavan, Gill & Gallagher, 2008). Hoewel de relaties hier tussen nog onduidelijk zijn, is op dit moment wel bekend dat personen met autisme specifieke neuropsychologische beperkingen hebben. Naar aanleiding hiervan zijn verschillende cognitieve theorieën geformuleerd en onderzocht. Deze theorieën stellen dat centrale cognitieve beperkingen, sommige of alle klinische kenmerken en symptomen van autisme, kunnen verklaren. Het executief functioneren van personen met autisme is onderdeel van één van deze theorieën, waarop nader zal worden ingegaan.

Executieve functies

Executief functioneren kan omschreven worden als het vermogen om gedachten en handelingen op een zodanige manier te reguleren, dat deze doelgericht en efficiënt kunnen zijn (Huizinga, 2007). Hierdoor is een persoon in staat om gedrag te organiseren in nieuwe, onbekende situaties. Meer basale cognitieve processen, zoals taal, perceptie, leren en actie ondernemen, worden gecontroleerd, gereguleerd en geleid door deze hogere orde executieve functies. Voorbeelden van executieve functies zijn de mogelijkheid om ongewilde responsen te inhiberen, acties te plannen, flexibel te denken en om de eigen prestaties te overzien en feedback te gebruiken om acties aan te passen (Carr, 2006). Ook het werkgeheugen is een belangrijke executieve functie. Om een toekomstig doel te bereiken of om een nieuwe taak te volbrengen, zijn intacte executieve functies nodig om een geschikte manier van probleemoplossing te kiezen (Pennington & Ozonoff, 1996; Sanders, 2008).

Uit verschillende studies blijkt dat executieve functies zich tijdens de kindertijd ontwikkelen, waarbij de ontwikkeling zelfs voort kan duren tot ver in de adolescentie (Huizinga, 2007). Uit een review artikel van Smidts (2003) komt naar voren dat er bij kinderen vóór het eerste levensjaar reeds inhibitieprocessen aanwezig blijken te zijn. Hierna ontwikkelen en verfijnen deze processen zich relatief snel tussen de leeftijd van één en zes jaar oud en blijft de ontwikkeling zelfs tot in de vroege adolescentie doorlopen (Huizinga, 2007; Smidts, 2003). De kleutertijd is tevens een periode waarin diverse executieve processen tot stand komen en zich verder ontwikkelen. Het vermogen om flexibel te denken ontstaat rond het vierde levensjaar en de meeste vooruitgang vindt plaats tussen de leeftijd van zes en tien jaar oud. Kinderen beginnen rond het vierde levensjaar ook reeds vooruit te denken en zijn op dat moment al in staat om eenvoudige problemen op te lossen. Het werkgeheugen blijft zich geleidelijk ontwikkelen tijdens de kindertijd en duurt voort tot in de adolescentie.

Één van de meest invloedrijke cognitieve verklaringen voor ASS, is de suggestie dat de sociale en niet-sociale moeilijkheden wellicht ontstaan door een beperking in het executieve functioneren (Happé, Booth, Charlton & Hughes, 2006; Hill, 2004). De 'executieve disfunctie hypothese' van autisme houdt dan ook in dat beperkingen in executieve controle over gedrag, de bepalende gedragskenmerken van autisme verklaren (Turner, 1999). De theorie is met name gericht op de kenmerkende, stereotype patronen van gedrag. Er wordt gesuggereerd dat personen met autisme moeilijkheden ervaren met hogere orde cognitieve functies zoals volgehouden aandacht, response inhibitie en cognitieve flexibiliteit (Pennington & Ozonoff, 1996). Deze moeilijkheden zouden het gevolg zijn van een anatomische disfunctie binnen de fronto-striatal en fronto-parietal circuits in de hersenen. Deze verklaring vindt zijn oorsprong

in een paper van Damasio en Maurer uit 1978 (in Griffith, Pennington, Wehner & Roger, 1999). In deze paper werden de symptomen van personen met autisme, vergeleken met de symptomen van patiënten met een beschadiging aan de frontaal kwabben van de hersenen. Er kwam naar voren dat er bepaalde overeenkomsten bestonden tussen de twee groepen (Russo, et al., 2007). Personen in beide groepen ondervonden moeilijkheden met het wisselen tussen taken, met het aanleren en reguleren van sociale regels en met het plannen van directe en toekomstige doelen. Deze overeenkomsten suggereren dat de gedragingen van personen met autisme, net als die van personen met beschadiging aan de frontaal kwabben, wellicht geassocieerd zijn aan specifieke neurologische schade. Deze link tussen gedrag en de hersenen, heeft geleid tot de ontwikkeling van de hierboven aangehaalde theorie. De theorie is opgesteld vanwege de aanname dat executieve functies gecontroleerd worden door de frontale kwabben en zich beginnen te ontwikkelen in de eerste levensjaren (Griffith et al., 1999). Kenmerken van autisme zijn reeds waarneembaar voor het vierde levensjaar, waardoor deze theorie een aannemelijk verklaring lijkt te bieden.

Niet alleen bij gezonde kinderen is er veel aandacht geweest voor het bestuderen van executieve functies. De laatste decennia is veel onderzoek gedaan naar bovenstaande executieve disfunctie theorie. Hieruit kwam naar voren dat verschillende executieve functies zich minder goed ontwikkeld hebben bij personen met ASS, dan bij gezonde leeftijdgenoten. Review onderzoek van Pennington en Ozonoff (1996) toonde aan dat er in 13 van de 14 onderzochte studies, op ten minste één van de gemeten executieve functies, een significant verschil bestond tussen participanten met autisme en controle participanten. Zowel de cognitieve flexibiliteit als het werkgeheugen bleken aangetast te zijn bij participanten met autisme, inhibitie was daarentegen intact. In meer recente review studies wordt gewezen op tegenstrijdige resultaten, hieruit blijkt dat inhibitie wel degelijk verstoord is wanneer gebruik wordt gemaakt van andere meetinstrumenten (Hill, 2004). De beperkingen in het werkgeheugen blijken daarnaast meer complex te zijn dan voorheen gedacht werd en niet overall komen dezelfde uitkomsten naar voren (Russo, et al., 2007). Ook Geurts, Corbett en Solomon (2009) geven aan dat er op basis van recente studies, waarin gebruik werd gemaakt van diverse methoden en participanten met verschillende subtypen van autisme, geen consistent bewijs wordt gevonden voor beperkingen in cognitieve flexibiliteit. De definitie van cognitieve flexibiliteit is daarnaast breed uiteenlopend en in verschillende studies worden verschillende termen naast elkaar gebruikt. Ook het gebruik van het meetinstrumentarium op dit gebied is een punt van discussie.

Cognitieve flexibiliteit als executieve disfunctie bij autisme

Cognitieve flexibiliteit is één van de meer complexere executieve functies, waarvan nog geen eenduidige definitie bestaat. In de literatuur worden verschillende termen voor dit concept gebruikt, waaronder ‘mentale flexibiliteit’, ‘set-shifting’, ‘set-switching’ en ‘task-switching’ (Crone, Ridderinkhof, Worm, Somsen & Van der Molen, 2004; Huizinga, 2007; Kaland, Smith & Mortensen, 2008). De term cognitieve flexibiliteit, of één van de andere termen, wordt echter in de meerderheid van de literatuur niet nader omschreven. Dit maakt het moeilijk om onderzoeken te vergelijken en maakt het aannemelijk dat niet in ieder onderzoek exact hetzelfde concept is bestudeerd. Wanneer termen met elkaar vergeleken worden en samen worden gevoegd, kan er een algemene definitie gevormd worden. Cognitieve flexibiliteit kan omschreven worden als “het vermogen snel en accuraat te wisselen tussen het uitvoeren van twee (of meer) verschillende taken” (Huizinga, 2007, p. 77).

Over cognitieve flexibiliteit bij volwassenen is veel bekend, bij kinderen is dit echter niet het geval (Huizinga, 2007). Volgens onderzoek van Chelune en Baer uit 1986 vertonen kinderen met betrekking tot cognitieve flexibiliteit, met name taakverbeteringen tussen het zesde en tiende levensjaar (in Smidts, 2003). De prestatie van kinderen ouder dan tien jaar was daarbij vrijwel gelijk aan die van volwassenen. Dit lijkt te wijzen op een snelle toename in de ontwikkeling van cognitieve flexibiliteit gedurende de kindertijd, waarna deze ontwikkeling over het algemeen gelijk zal blijven. Wanneer naar het aspect cognitieve flexibiliteit gekeken wordt, is het duidelijk dat er voor deze executieve functie ook meer basale, cognitieve vaardigheden nodig zijn. Hierbij kan gedacht worden aan het richten van de aandacht en het inhiberen van andere responsen. Tevens spelen meer persoonsgebonden aspecten, zoals intelligentie, verbaal begrip en kennis, een grote rol in dit geheel.

Bij kinderen en volwassenen met autisme is door verschillende studies aangetoond dat er sprake is van beperkingen rondom cognitieve flexibiliteit (Hill, 2004; Pennington & Ozonoff, 1996). De manier waarop deze beperking met name tot uiting lijkt te komen, is in de vorm van de herhaalde, stereotype gedragspatronen. Lopez, Lincoln, Ozonoff en Lai (2005) toonden aan dat onder andere cognitieve flexibiliteit, sterk gerelateerd is aan deze stereotype gedragingen. Wanneer een persoon zich niet kan aanpassen aan een wisselende omgeving, zal deze persoon niet van de eigen routine kunnen afwijken, waardoor hij of zij blijft hangen in rigide of persevererend gedrag. In het dagelijks leven komt dit er op neer dat de persoon van slag zal raken in situaties die verandering vereisen, zoals in nieuwe of onbekende situaties. Toch komen er ook tegenstrijdige bevindingen naar voren rondom een beperking in cognitieve flexibiliteit. In onderzoek van Goldberg en collega's (2005) werden kinderen met

ADHD en autisme vergeleken met gezonde controle kinderen. Zij concludeerden dat er op de taken die set-shifting beoogde te meten, geen afwijkingen werden gevonden bij kinderen met autisme. Ook in eerder aangehaald review onderzoek van Geurts en collega's (2009), wordt gesproken over een paradox rondom cognitieve flexibiliteit in autisme. Na bestudering van verschillende studies, waarin gebruik werd gemaakt van verschillende methoden, concluderen zij dat er sprake is van inconsistente bevindingen rondom beperkingen in cognitieve flexibiliteit bij personen met autisme. Ze geven dan ook aan dat hun bevindingen een oproep zijn voor meer onderzoek op dit gebied.

De Wisconsin Card Sorting Test (WCST) is naar alle waarschijnlijkheid één van de meest gebruikte taken om cognitieve flexibiliteit in klinische en onderzoekscontexten te meten (Crone et al., 2005). Tijdens de uitvoering van deze taak worden participanten gevraagd om kaarten te sorteren naar drie categorieën; kleur, vorm en aantal (Pennington & Ozonoff, 1996). Na tien opeenvolgende goed gecategoriseerde kaarten, veranderen de sortering-principes zonder waarschuwing van de onderzoeker. Alle sorteringen die uitgevoerd worden met behulp van de vorige strategie, ontvangen nu negatieve feedback. Van participanten wordt verwacht dat ze uiteindelijk zullen over gaan naar een nieuw categoriseringsprincipe. De meest gebruikte en meest sensitieve variabele die ontleend wordt vanuit de WCST, is een meting van perseveratie. Één van de grote kritiepunten op dit meetinstrument is dat dit een zeer complexe taak is, die naast cognitieve flexibiliteit, niet alleen probleemoplossend vermogen en een efficiënt werkgeheugen vereist, maar waarbij tevens de mogelijkheid om ongewenste responsen te inhiberen van belang is (Crone et al., 2004). Mentale flexibiliteit, planning, het behouden van een cognitieve set en ook het vermogen om abstracte concepten waar te nemen, zijn allen van belang bij het uitvoeren van deze taak (Kaland et al., 2008). Kortom, de WCST is een instrument waarbij niet alleen cognitieve flexibiliteit van belang is, maar waarbij tevens vele andere executieve functies een rol spelen.

In de afgelopen jaren lijkt er voor dit instrument een goed alternatief in opkomst te zijn gekomen. Het Delis-Kaplan Executive Function System (D-KEFS) omvat negen nieuwe, op zichzelf staande testen, die een uitgebreid onderzoek van een hoger niveau van functioneren mogelijk maken (Delis, Kaplan & Kramer, 2008). De verschillende testen zijn gericht op het vaststellen van vitale executieve functies als flexibiliteit van denken, inhibitie, planning, probleemoplossend vermogen en abstract redeneren. De D-KEFS is de eerste batterij van gestandaardiseerde testen om hogere orde cognitieve functies te evalueren, bij personen met een leeftijd vanaf acht jaar oud. Twee specifieke testen uit deze batterij, de Color-Word Interference Test (CWIT) en de Design Fluency Test (DFT), zijn aanpassingen van veel

gebruikte neuropsychologische testen die wereldwijd gezien worden als sensitief voor het vaststellen van executieve disfuncties; een Stroop taak en een Fluency taak. Aan beide D-KEFS taken zijn specifieke nieuwe switching condities toegevoegd, die altijd vooraf worden gegaan door het afnemen van baseline condities. Hierdoor wordt de onderzoeker in staat gesteld om een onderscheid te maken tussen lagere orde basisvaardigheden en hogere orde switching vaardigheden. De D-KEFS taken zijn binnen recente onderzoeken bij autisme nog niet veel ingezet en over de geschiktheid voor het vaststellen van deze specifieke executieve functie is dan ook nog niet veel bekend. Vanwege de bestaande normering voor een breed leeftijdsbereik en de mogelijkheid om basisvaardigheden te kunnen onderscheiden van specifieke switching vaardigheden, lijken beide taken echter zeer geschikt om cognitieve flexibiliteit bij kinderen en jong volwassenen met autisme te onderzoeken.

Kleinhans, Akshoomhoff en Delis (2005) hebben zowel de CWIT als de DFT, reeds eerder gebruikt in een onderzoek naar executieve functies bij adolescenten en volwassenen met autisme. In dit onderzoek werden zes participanten met autisme en zes participanten met de Stoornis van Asperger, vergeleken met de nationale normatieve database van de D-KEFS. Naar voren kwam dat de participanten in beide groepen een gemiddelde score behaalden op zowel de switching conditie van de CWIT, als op de switching conditie van de DFT. De onderzoekers geven echter aan dat replicatie van hun studie nodig is, vanwege hun kleine onderzoeksgroep en brede leeftijdsrange. Daarnaast hebben ze de participanten vergeleken met een normatieve database en niet met een controlegroep, bij wie exact dezelfde procedure heeft plaats gevonden. Tot slot zijn de verschillende testen niet afgenomen bij kinderen jonger dan 14 jaar, waardoor de mogelijkheid bestaat dat de uitkomsten voor een dergelijke jongere leeftijdsgroep afwijkt van bovengenoemde bevindingen.

Huidige onderzoek

Uit bovenstaande studies blijkt dat personen met autisme problemen ervaren met het executief functioneren (Hill, 2004; Huizinga, 2007; Pennington & Ozonoff, 1996). Over beperkingen in cognitieve flexibiliteit bestaat echter nog geen eenduidigheid en er zijn verschillende tegenstrijdige onderzoeksresultaten. Het huidige onderzoek is er dan ook op gericht om meer inzicht te krijgen in de cognitieve flexibiliteit bij kinderen en jong volwassenen met ASS en 'gezonde' controle personen in dezelfde leeftijdscategorie.

Het huidige onderzoek is onderdeel van een vier jaar durend onderzoek naar de invloed van verschillende genetische mechanisme bij ASS en naar de relatie tussen genetische variatie en specifieke klinische kenmerken van de stoornis. Op dit moment is het onderzoek net

opgestart en bevindt het zich nog in het eerste jaar. Het bestuderen van cognitieve flexibiliteit als specifiek klinisch kenmerk van ASS, doormiddel van het afnemen van de eerdere genoemde nieuwe D-KEFS taken, zal centraal staan binnen het huidige onderzoek. Kinderen en jong volwassenen die onderzocht worden, vallen allen binnen de leeftijdscategorie van negen tot en met zesentwintig jaar oud. Er staan drie algemene vraagstellingen centraal.

De eerste vraagstelling is: “Bestaat er een verschil met betrekking tot de mate van cognitieve flexibiliteit, tussen kinderen en jong volwassenen met een autisme spectrum stoornis en kinderen en jong volwassenen zonder deze stoornis?”. Op basis van verschillende studies, waarin wordt aangetoond dat personen met autisme beperkingen ervaren op het gebied van cognitieve flexibiliteit, wordt verwacht dat er een verschil bestaat tussen beide groepen (Hill, 2004; Pennington & Ozonoff, 1996). Kinderen en jong volwassenen met ASS, zullen minder cognitief flexibel zijn dan kinderen en jong volwassenen in de controlegroep. De vraagstelling is onderverdeeld in een viertal onderzoeksvragen. (a) “Bestaat er met betrekking tot de voltooiingstijd, een verschil in het contrast tussen de baseline- en switching conditie op de D-KEFS Color-Word Interference Test, tussen kinderen en jong volwassenen met ASS en gezonde kinderen en jong volwassenen in de controlegroep?”. De hypothese is dat het contrast tussen de baseline- en switching conditie op deze taak, groter zal zijn bij kinderen en jong volwassenen met ASS, dan bij kinderen en jong volwassenen in de controlegroep. In verhouding tot de baseline conditie zullen kinderen en jong volwassenen met ASS trager zijn op de switching conditie, dan kinderen en jong volwassenen in de controlegroep. (b) “Bestaat er met betrekking tot het aantal gemaakte fouten, een verschil in het contrast tussen de baseline- en switching conditie op de D-KEFS Color-Word Interference Test, tussen kinderen en jong volwassenen met ASS en gezonde kinderen en jong volwassenen in de controlegroep?”. De verwachting is dat kinderen en jong volwassenen met ASS in verhouding tot de baseline conditie meer fouten zullen maken op de switching conditie van de CWIT, dan kinderen en jong volwassenen in de controlegroep. Wanneer er gekeken wordt naar het aantal fouten, zal het contrast tussen de baseline- en switching conditie op deze taak groter zijn bij kinderen en jong volwassenen met ASS, dan bij kinderen en jong volwassenen in de controlegroep. (c) “Bestaat er met betrekking tot het aantal juiste patronen, een verschil in het contrast tussen de baseline- en switching conditie op de D-KEFS Design Fluency Test, tussen kinderen en jong volwassenen met ASS en gezonde kinderen en jong volwassenen in de controlegroep?”. De hypothese is dat het contrast tussen de baseline- en switching conditie op deze taak, groter zal zijn bij kinderen en jong volwassenen met ASS dan bij kinderen en jong volwassenen in de controlegroep. In verhouding tot de baseline

conditie zullen kinderen en jong volwassenen met ASS minder juiste patronen genereren op de switching conditie, dan kinderen en jong volwassenen in de controlegroep. (d) “Bestaat er met betrekking tot het aantal herhaalde patronen, een verschil in het contrast tussen de baseline- en switching conditie op de D-KEFS Design Fluency Test, tussen de kinderen en jong volwassenen met ASS en gezonde kinderen en jong volwassenen in de controlegroep?” Pennington en Ozonoff (1996) gaven in hun review studie aan dat personen met autisme meer perseveratieve fouten maakten op de WCST, in vergelijking met de controlegroep. Op grond hiervan wordt verwacht dat kinderen en jong volwassenen met ASS tevens zullen persevereren wanneer zij verschillende patronen moeten tekenen. De verwachting is dat kinderen en jong volwassenen met ASS in verhouding tot de baseline conditie, meer herhaalde patronen zullen genereren op de switching conditie van de DFT, dan kinderen en jong volwassenen in de controlegroep. Het contrast tussen de baseline- en switching conditie op deze taak zal groter zijn bij kinderen en jong volwassenen met ASS dan bij kinderen en jong volwassenen in de controlegroep.

De tweede vraagstelling is: “Bestaat er een relatie tussen de mate van cognitieve flexibiliteit zoals vastgesteld met de Color-Word Interference Test en de mate van cognitieve flexibiliteit zoals vastgesteld met de Design Fluency Test?” De hypothese is dat er een sterke relatie zal bestaan tussen de prestatie van personen op de beide D-KEFS taken. Verwacht wordt dat wanneer kinderen en jong volwassenen een zwakke prestatie behalen met betrekking tot cognitieve flexibiliteit op de ene taak, zij ook een zwakke prestaties zullen behalen op dit gebied op de andere taak.

De derde vraagstelling is: “Bestaat er een relatie tussen de mate van cognitieve flexibiliteit zoals vastgesteld met de D-KEFS taken en gerapporteerde autistische gedragskenmerken op de Autisme Spectrum Quotiënt (AQ) vragenlijst?”. In onderzoek van Lopez en collega's (2005) werd een positieve relatie gevonden tussen cognitieve flexibiliteit en beperkte, herhaalde gedragingen bij personen met autisme. Op basis van deze resultaten wordt verwacht dat er een sterke relatie zal bestaan tussen de mate van cognitieve flexibiliteit zoals vastgesteld met de D-KEFS taken en de totale AQ score en de specifieke subschalen ‘attention shifting’ en ‘attention to detail’ op de AQ vragenlijst. Kinderen en jong volwassenen die een zwakkere prestatie behalen met betrekking tot cognitieve flexibiliteit op de D-KEFS taken, zullen hoog uitkomen op beide subschalen van de AQ en de totale AQ score. Een hoge score op deze schalen en de totale schaal, houdt in dat personen een hoge mate van autistische gedragskenmerken vertonen.

Methoden

Design

Het design voor deze studie is een groepsvergelijking. Kinderen en jong volwassenen met ASS, in de leeftijd van negen tot en met zesentwintig jaar, vormen de experimentele groep. Op basis van de beide D-KEFS taken en de AQ vragenlijst zal de experimentele groep vergeleken worden met een controlegroep. Deze bestaat uit 'gezonde' controle kinderen in dezelfde leeftijdscategorie, zonder ASS of andere psychiatrische of gedragproblemen.

Participanten

In totaal hebben er 20 kinderen en jong volwassenen met ASS (leeftijd 9-25 jaar, $M = 15.9$, $SD = 5.7$) en 15 gezonde controle kinderen en jong volwassenen zonder ASS (leeftijd 10-26, $M = 14.7$, $SD = 5.1$), aan dit onderzoek deelgenomen. Binnen de experimentele groep waren er 15 jongens en vijf meisjes, 17 van deze deelnemers hadden een rechterhandvoorkeur en drie een linkerhandvoorkeur. Het gemiddelde intelligentieniveau (TIQ) was 104.7 ($SD = 18.9$, range 77-138). Binnen de controlegroep waren er 10 jongens en vijf meisjes, 14 van deze deelnemers hadden een rechterhandvoorkeur en één een linkerhandvoorkeur. Het gemiddelde intelligentieniveau van de controlegroep betrof 108.2 ($SD = 12.3$, range 79-131). Zowel binnen de experimentele als binnen de controlegroep, zijn er twee subgroepen te onderscheiden wanneer er gekeken wordt naar leeftijd. In Tabel 1 zijn daarom de kinderen en jong volwassenen per groep, apart weergegeven. Vanwege het relatief kleine aantal participanten is er bij het analyseren voor gekozen om de kinderen en jong volwassenen binnen de groepen samen te voegen.

Tabel 1

Demografische kenmerken van de experimentele groep (ASS) en de controlegroep (Controle)

	ASS			Controle		
	Kinderen ($n = 12$)	Jong volwassenen ($n = 8$)	Totaal ($n = 20$)	Kinderen ($n = 9$)	Jong volwassenen ($n = 6$)	Totaal ($n = 15$)
Leeftijd ^a	11.7 (1.9) ^b	22.3 (2.3)	15.9 (5.7)	11.0 (1.0)	20.3 (2.9)	14.7 (5.1)
TIQ	109.7 (18.2)	97.8 (18.6)	104.7 (18.9)	108.2 (9.5)	108.2 (16.7)	108.2 (12.3)
VIQ	103.6 (14.1)	91.1 (15.1)	98.3 (15.4)	107.3 (13.2)	91.3 (16.6)	100.9 (16.2)
PIQ	112.2 (21.5)	108.3 (24.8)	110.5 (22.3)	106.8 (12.1)	130.3 (16.8)	116.2 (18.1)

^a Leeftijd in jaren. ^b Mean (SD).

Noot. TIQ = Totaal IQ; VIQ = Verbaal IQ; PIQ = Performaal IQ. Bij het TIQ, VIQ en PIQ van de kinderen binnen de controlegroep, is er sprake van $n = 8$ vanwege het ontbreken van IQ gegevens van één van de meisjes.

Om participanten te benaderen voor de experimentele groep, is er een selectie gemaakt uit een groot databestand van de afdeling Kinder- en Jeugdpsychiatrie van het Universitair Medisch Centrum Utrecht (UMCU). Dit databestand bestond uit kinderen en jong volwassenen met ASS die reeds meedoen in een studie naar erfelijkheid en autisme. Vervolgens werd gekeken of de kinderen en jong volwassenen aan de inclusiecriteria voldeden. Participanten moesten in de leeftijdscategorie van 8 tot en met 26 jaar oud vallen en reeds op jongere leeftijd in het UMCU gediagnosticeerd zijn met ASS, op basis van de Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders, vierde editie (DSM-IV; APA, 1994). Deze diagnose diende vervolgens bevestigd worden aan de hand van het Autisme Diagnostisch Interview-Revised (ADI-R; Lord, Rutter & Le Couteur, 1994, Nederlandse bewerking door De Jonge & De Bildt, 2007) en het Autisme Diagnostisch Observatie Schema (ADOS; Lord et al., 2000, Nederlandse bewerking door De Bildt & De Jonge, 2008). Participanten werden uitgesloten van deelname indien er sprake was van een IQ lager dan 70 of van ernstige ziekten in het cardiovasculaire, het endocriene, het long of maag/darmstelsel of een neurologische stoornis. Aan de ouders van de geselecteerde kinderen en/of jong volwassenen is per brief verzocht om mee te doen aan het onderzoek. Een toestemmingsformulier kon worden ingevuld en geretourneerd. Indien een gezin wilde meewerken aan het onderzoek is telefonisch contact met hen opgenomen en is een afspraak gemaakt.

Om in contact te komen met gezonde controle participanten, zijn verschillende basisscholen en een MBO school benaderd. Aan de kinderen en jong volwassenen binnen de gewenste leeftijdscategorie zijn informatiebrieven, toestemmingsformulieren en retour-enveloppen uitgedeeld. Indien de ouders van de kinderen en/of de jong volwassenen het toestemmingsformulier voor deelname aan het onderzoek retourneerden, is ook met hen telefonisch contact opgenomen voor het maken van een afspraak. De inclusiecriteria op het gebied van de leeftijdscategorie en de exclusiecriteria voor de controlegroep, zijn gelijk aan die van de experimentele groep. Daarnaast werden kinderen en jong volwassenen in de controlegroep niet geïncludeerd in het onderzoek, wanneer er sprake was van een psychiatrische stoornis of gedragsproblemen, vastgesteld aan de hand van de Child Behavior Checklist (CBCL; Achenbach 1991, Nederlandse bewerking door Verhulst, Van der Ende & Koot, 1996). Tevens mag er geen sprake zijn van ASS bij eerstelijns familieleden.

Procedure

Aan de ouders en het kind of jong volwassene met ASS, werd na het maken van een afspraak gevraagd om tweemaalig naar het UMCU te komen. Voor twee gezinnen was dit echter niet mogelijk, waardoor er een huisbezoek heeft plaats gevonden. De kinderen in de controlegroep hoefden slechts met één ouder, eenmalig naar het UMCU te komen. Jong volwassenen kwamen zelfstandig. Voor het bevestigen van de diagnose, is er tijdens het eerste bezoek bij de ouders van de participanten met ASS, de eerder genoemde ADI-R afgenomen. Dit semigestructureerde interview heeft ongeveer anderhalf tot twee uur in beslag genomen. Tijdens het tweede bezoek is er, gedurende een uur, bij een aantal kinderen en jong volwassenen met ASS, de ADOS afgenomen. Beide instrumenten zijn afgenomen door en getrainde onderzoeker. Indien de ADI-R en ADOS in een eerder stadium reeds afgenomen waren, hoefde deze procedure niet herhaald te worden. Na een pauze werd aansluitend verkort intelligentieonderzoek uitgevoerd en werden de D-KEFS Color-Word Interference Test en de D-KEFS Design Fluency Test afgenomen. Gezamenlijk heeft dit ongeveer anderhalf uur in beslag genomen, exclusief een kort pauze tussen de taken door. Bij de kinderen en jong volwassenen uit de controlegroep is, tijdens hun bezoek aan het UMCU, hetzelfde intelligentieonderzoek uitgevoerd en ook bij hen zijn de twee neuropsychologische taken afgenomen. Iedere participant is individueel getest in een rustige onderzoeksruimte. Tot slot is er door de ouders van de kinderen in beide groepen de AQ vragenlijst ingevuld, die betrekking heeft op specifieke kenmerken van autisme. Vanaf de leeftijd van 18 jaar oud, heeft de participant deze vragenlijst zelf ingevuld.

Meetinstrumenten

Intelligentie

Een verkorte versie van de derde editie van de Wechsler Intelligence Scale for Children (WISC-III^{NL}; Wechsler, 2005, Nederlandse bewerking door Kort, et al., 2005) is gebruikt om een schatting te verkrijgen van het IQ van de kinderen tot 16 jaar oud, in zowel de experimentele als de controlegroep. Voor een bepaling van het intelligentieniveau van de jong volwassenen is gebruik gemaakt van een verkorte versie van de derde editie van de Wechsler Adult Intelligence Scale (WAIS-III^{NL}; Wechsler 2000, Nederlandse bewerking door Uterwijk, 2000). De subtesten Overeenkomsten, Woordkennis/Woordenschat, Blokpatronen en Figuur Leggen zijn hiervoor geselecteerd.

Cognitieve flexibiliteit

Om de mate van cognitieve flexibiliteit te bepalen, is gebruik gemaakt van twee taken uit de Delis-Kaplan Executive Function System (D-KEFS; Delis, Kaplan & Kramer, 2008). Dit is een uitgebreide testbatterij voor het onderzoeken van executieve functies. De D-KEFS is geschikt voor kinderen en volwassenen in de leeftijd van 8 tot en met 89 jaar en bestaat uit negen verschillende subtests.

D-KEFS Color – Word Interference Test (CWIT) (Delis et al., 2008) – Deze taak is samengesteld uit vier condities, die allen vooraf worden gegaan door een korte oefening. De condities zijn (1) Kleuren Benoemen (vierkantjes in de kleuren rood, blauw en groen), (2) Woorden Lezen (de woorden rood, blauw en groen in zwarte inkt gedrukt), (3) Inhibitie (woorden die kleuren aanduiden maar drukt zijn in een incongruente inktkleur, benoem de kleur van de inkt) en (4) Inhibitie/Switching (wissel af tussen het voorlezen van het woord wanneer deze in een hokje staat, of noem de incongruente inktkleur wanneer deze niet in een hokje staat). Participanten krijgen de opdracht bij iedere conditie zo snel mogelijk te werken, zonder fouten te maken. De eerste twee condities zijn de baseline condities voor het beoordelen van de fundamentele deelvaardigheden van de hogere-orde taken. De test biedt normatieve data voor zowel snelheid (voltooiingstijd per conditie) als nauwkeurigheid (gecorrigeerde en niet-gecorrigeerde fouten). Onderzoek naar de test-herstest betrouwbaarheidcoëfficiënten van de CWIT test toonde aan dat deze van .62 tot .76 lopen, afhankelijk van de onderzochte leeftijdsgroep (Homack, Lee & Riccio, 2005).

In het huidige onderzoek zullen de prestaties van de experimentele groep en de controlegroep direct met elkaar vergeleken worden. Er is gekozen voor het vergelijken van de ruwe scores, om op deze manier zo weinig mogelijk verlies van data te bewerkstelligen. De scores zullen niet worden omgezet in geschaalde scores en er zal geen vergelijking met de normatieve database plaatsvinden. Zowel de baseline condities (1 en 2), als de specifieke switching conditie (4) zijn van belang binnen het huidige onderzoek. Om een gemiddelde, ruwe baseline score te verkrijgen, zijn de ruwe scores op conditie 1 en 2 bij elkaar opgeteld en is hiervan het gemiddelde genomen. Deze ruwe, gemiddelde baseline score en de ruwe score op de switching conditie, zijn beide input voor een herhaalde metingen analyse. Ook is er gewerkt met ruwe contrastmetingen, waarbij de gemiddelde, ruwe baseline score is afgetrokken van de ruwe score op de switching conditie. De ruwe voltooiingstijden en het ruwe totaal aantal fouten per conditie, dienen als afhankelijke variabelen.

D-KEFS Design Fluency Test (DFT) (Delis et al., 2008) – Deze taak is samengesteld uit drie condities, die allen vooraf worden gegaan door een korte oefening. De condities zijn (1) Volle Stippen (verbindt de volle stippen), (2) Alleen Lege Stippen (verbind alleen de lege stippen, negeer de volle stippen) en (3) Switchen (wissel af tussen het verbinden van volle en lege stippen). Bij elke conditie krijgt de participant rijen met vakjes te zien die elk een reeks stippen bevatten die de participant, met slechts vier lijnen, moet verbinden om zo steeds een nieuw patroon te tekenen. De participant krijgt voor elke conditie 60 seconden de tijd om zoveel mogelijk verschillende patronen te genereren. Voor alle condities geldt dat er geen punten gegeven worden, indien een patroon meer of minder dan vier lijnen bevat of wanneer het patroon een herhaling is van een eerder getekend patroon. De eerste twee condities omvatten baseline condities voor het vaststellen van non-verbale fluency. In conditie 3 wordt zowel de design fluency als het switchen vastgesteld. In alle drie de condities, omvat de algemene score het totaal aantal juiste patronen dat binnen 60 seconden getekend is. Ook wordt er onderscheidt gemaakt tussen set-loss patronen (regelovertradingen) en herhaalde patronen. Onderzoek naar de test-hertest betrouwbaarheid toont aan dat de correlaties voor de belangrijkste metingen over het algemeen gemiddeld betrouwbaar waren, waarbij conditie 3 een lagere correlatie vertoonde (Delis et al., 2008).

Ook bij deze taak zullen de prestaties van de experimentele groep direct vergeleken worden met de prestaties van de controlegroep, aan de hand van de ruwe scores. Zowel de baseline condities (1 en 2), als de specifieke switching conditie (3) zijn van belang binnen het huidige onderzoek. Ook hier is zelf een gemiddelde, ruwe baseline score berekend. Deze ruwe, gemiddelde baseline score en de ruwe score op de switching conditie, zijn beide input voor een herhaalde metingen analyse. Opnieuw zijn ook hier ruwe contrastmetingen berekend, door de gemiddelde, ruwe baseline score van de ruwe score op de switching conditie af te trekken. Het ruwe totaal aantal juiste patronen en het ruwe totaal aantal herhaalde patronen per conditie, dienen als afhankelijke variabelen.

Autistische gedragskenmerken

Voor het vaststellen van autistische kenmerken bij de participanten binnen beide groepen, is gebruikt gemaakt van de Autisme-Spectrum Quotient (AQ), de AQ-Children's Version en de AQ-Adolescent Version (Auyeng, Baron-Cohen, Wheelwright & Allison, 2008; Baron-Cohen, Hoekstra, Knickmeyer & Wheelwright, 2006; Baron-Cohen, Wheelwright, Skinner, Martin & Clubley, 2001, Nederlandse bewerking door Hoekstra, Bartels, Cath & Boomsma, 2008). Deze vragenlijst bestaat uit 50 items, waarmee persoonlijke voorkeuren en gewoontes

worden vastgesteld. De descriptieve items zijn ontwikkeld om vijf gebieden te beoordelen, die geassocieerd zijn met autisme en het bredere fenotype: Social Skills, Attention Switching, Attention to Detail, Communication en Imagination. Op een 4-punts Likert schaal kan worden aangegeven in welke mate de persoon het eens of oneens is met de beweringen. Voor items waarbij een 'mee eens' response kenmerkend is voor autisme, is de scoring gehercodeerd. Dit was voor 24 vragen het geval. Alle item scores kunnen vervolgens worden opgeteld, waardoor er een minimum totale AQ score van 50 (geen autistische kenmerken) en er een maximum score van 200 (voldoet volledig aan alle kenmerken) ontstaat. Voor kinderen en adolescenten onder de 18 jaar, wordt de vragenlijst ingevuld door één van beide ouders. Participanten vanaf 18 jaar vullen de vragenlijst zelf in.

Binnen het huidige onderzoek zal gebruik worden gemaakt van de totale AQ score en twee van de vijf subschalen, te weten 'Attention Switching' en 'Attention to Detail'. Deze subschalen zijn gekozen, omdat ze het meest gerelateerd lijken te zijn aan cognitieve flexibiliteit. Onderzoek van Hoekstra en collega's (2008) toont aan dat de interne consistentie en de test-hertest betrouwbaarheid van de totale AQ score, respectievelijk .81/.71 en .78 zijn. Voor de subschaal Attention Switching is dit respectievelijk .63/.62 en .68 en voor de subschaal Attention to Detail respectievelijk .63/.68 en .71.

Data-analyse

Voor het beantwoorden van de eerste vraagstelling, waarbij gekeken wordt of er een verschil bestaat tussen de experimentele groep en de controlegroep met betrekking tot de mate van cognitieve flexibiliteit, is er viermaal een 'general lineair model' met herhaalde metingen uitgevoerd (Repeated Measures ANOVA). Voor de Color-Word Interference Test wordt cognitieve flexibiliteit gemeten aan de hand van de voltooiingstijd en het aantal fouten. Er is hierbij gekeken naar het contrast tussen de ruwe score op de baseline condities en de ruwe score op de switching conditie. Dit contrast, oftewel het verschil in voltooiingstijd tussen de baseline condities en de switching conditie, is indicatief voor de mate van cognitieve flexibiliteit. De prestatie op de vierde conditie wordt afgezet tegen de gemiddelde prestatie op de eerste twee baseline condities. Bij de eerste herhaalde meting zijn de ruwe, gemiddelde voltooiingstijd van de baseline condities en de ruwe voltooiingstijd van de switching conditie hiervoor ingevoerd als 'within-subject' variabelen. Bij de tweede herhaalde meting zijn het ruwe aantal fouten van beide condities gebruikt. De groepen zijn onderling vergeleken door de variabele 'groep' mee te nemen als 'between-subject factor'. Voor de Design Fluency Test wordt cognitieve flexibiliteit gemeten aan de hand van het aantal juiste gegenereerde patronen

en het aantal herhaalde patronen. Ook hierbij is gekeken naar het contrast tussen de ruwe score op de baseline condities en de ruwe score op de switching conditie. De prestatie op de derde conditie wordt afgezet tegen de gemiddelde prestatie op de eerste twee baseline condities. Bij de derde herhaalde meting zijn het ruwe, gemiddelde aantal juiste patronen van de baseline condities en het ruwe aantal juiste patronen van de switching conditie ingevoerd als 'within-subject' variabelen. Het ruwe aantal herhaalde patronen zijn bij de vierde herhaalde meting gebruikt. Ook bij deze herhaalde metingen is de variabele 'groep' als 'between-subject factor' meegenomen. Bij alle vier de herhaalde metingen is er tevens gekeken naar een mogelijke invloed van leeftijd of sekse. De variabele 'leeftijd' is hiervoor meegenomen als covariabele en de variabele 'sekse' is ingevoerd als 'between-subject factor'.

Voor de tweede vraagstelling is onderzocht of er een relatie bestaat tussen de mate van cognitieve flexibiliteit zoals vastgesteld met de CWIT en de mate van cognitieve flexibiliteit zoals vastgesteld met de DFT. De correlatie is getoetst met Pearson's correlatie coëfficiënt. Om de mate van cognitieve flexibiliteit uit te drukken, zijn ruwe contrastscores berekend. Hierbij is de gemiddelde, ruwe prestatie op de baseline condities af getrokken van de ruwe prestatie op de specifieke switching conditie. In totaal zijn er vier contrastscores verkregen; ruwe contrastscores voor de voltooiingstijden en het aantal fouten op de CWIT en ruwe contrastscores voor het aantal juiste patronen en het aantal herhaalde patronen op de DFT. Voor de derde vraagstelling is onderzocht of er een relatie bestaat tussen de mate van cognitieve flexibiliteit zoals vastgesteld met beide D-KEFS taken en gerapporteerde autistische gedragskenmerken op de AQ vragenlijst. Ook hiervoor zijn de correlaties getoetst met Pearson's correlatie coëfficiënt. De vier ruwe contrastscores, de totale AQ score en de scores op de subschalen 'attention switching' en 'attention to detail', zijn allen ingevoerd in een correlatiematrix.

Bij alle analyses is er een alfa van 5% gehanteerd. Controle voor outliers heeft aangetoond dat deze niet aanwezig waren.

Resultaten

Descriptieve analyses

De descriptieve statistieken voor de onderzochte populatie zijn weergegeven in Tabel 1. Een t-toets voor onafhankelijke groepen toont aan dat er geen significant verschil bestaat tussen de experimentele groep en de controlegroep met betrekking tot de gemiddelde leeftijd, $t(33) = .63$; $p = .27$. Ook verschillen het gemiddelde Totaal IQ, het Verbaal IQ en het Perfoaal IQ van beide groepen niet van elkaar, respectievelijk $t(32) = -.62$; $p = .27$, $t(32) = -.48$; $p = .32$ en $t(32) = -.80$; $p = .22$.

Cognitieve flexibiliteit

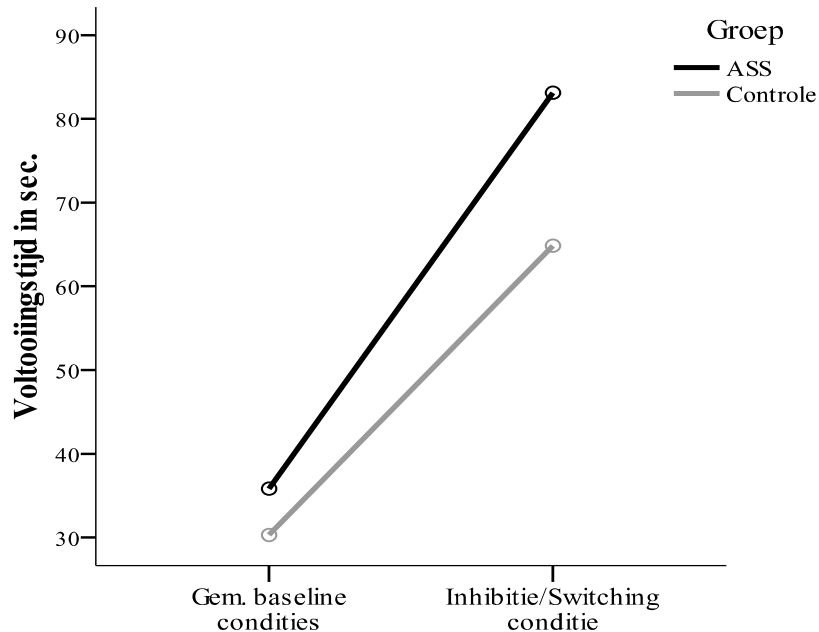
Bij de eerste vraagstelling is gekeken of er een verschil bestaat met betrekking tot de mate van cognitieve flexibiliteit, tussen kinderen en jong volwassenen met ASS en kinderen en jong volwassenen zonder deze stoornis. Aan de hand van vier onderzoeksvragen is deze vraagstelling nader onderzocht.

Voltooiingstijd – CWIT

Bij de eerste onderzoeksvraag is gekeken naar de voltooiingstijd op de Color-Word Interference Test. Er is onderzocht of er een verschil bestaat in het contrast tussen de baseline- en switching conditie, tussen kinderen en jong volwassenen met ASS en kinderen en jong volwassenen in de controlegroep. Dit contrast is indicatief voor de mate van flexibiliteit. Mauchly's test geeft aan dat er aan de assumptie van sfericiteit is voldaan. Er is een hoofdeffect van voltooiingstijd, $F(1,30) = 59.86$, $p < .001$, partial $\eta^2 = .67$. Er bestaat een significant verschil in voltooiingstijd over de verschillende condities, waarbij participanten gemiddeld een langere voltooiingstijd hebben bij de inhibitie/switching conditie, dan bij de baseline condities. Daarnaast zijn er tevens significante hoofdeffecten gevonden van leeftijd ($F(1,30) = 12.65$, $p < .01$, partial $\eta^2 = .30$), groep ($F(1,30) = 14.50$, $p < .01$, partial $\eta^2 = .33$) en sekse ($F(1,30) = 7.21$, $p < .05$, partial $\eta^2 = .19$).

Om de onderzoeksvraag te beantwoorden is gekeken naar het interactie-effect tussen conditie en groep op voltooiingstijd. Dit interactie-effect is significant ($F(1,30) = 7.47$, $p < .05$, partial $\eta^2 = .19$) en is weergegeven in Figuur 1. Het verschil in voltooiingstijd tussen de inhibitie/switching conditie en de baseline condities is groter voor de experimentele groep dan voor de controlegroep. Verder blijken er geen interactie-effecten te bestaan tussen conditie en leeftijd ($F(1,30) = 3.53$, $p = .07$, partial $\eta^2 = .11$) en tussen conditie en sekse

($F(1,30) = 3.08$, $p = .09$, partial $\eta^2 = .09$). Wel lijkt er met deze p-waarden een trend te bestaan, waarbij het patroon van prestatie over de condities kan verschillen tussen participanten van verschillende leeftijden en sekse.



Figuur 1. Voltooiingstijd van de experimentele en de controlegroep op de verschillende condities.

Aantal fouten – CWIT

Bij de tweede onderzoeksvraag is gekeken naar het aantal fouten op de Color-Word Interference Test. Er is onderzocht of er een verschil bestaat in het contrast tussen de baseline- en switching conditie, tussen de experimentele en de controlegroep. Aan de assumptie van sfericiteit is voldaan. Er is een significant hoofdeffect van het aantal fouten, $F(1,30) = 4.25$, $p < .05$, partial $\eta^2 = .12$. Participanten maken gemiddeld meer fouten in de switching conditie, dan in de baseline condities. Er zijn geen significante hoofdeffecten gevonden van leeftijd ($F(1,30) = 3.21$, $p = .08$, partial $\eta^2 = .10$), groep ($F(1,30) = 1.56$, $p = .22$, partial $\eta^2 = .05$) of sekse ($F(1,30) = .84$, $p = .37$, partial $\eta^2 = .03$).

Het interactie-effect tussen conditie en groep op het aantal fouten, is van belang voor het beantwoorden van de onderzoeksvraag. Dit interactie-effect is niet significant, $F(1,30) = .289$, $p = .595$, partial $\eta^2 = .010$. Het verschil in het aantal fouten tussen de inhibitie/switching conditie en de baseline condities, verschilt niet tussen de experimentele en de controlegroep. Daarnaast zijn er geen interactie-effecten gevonden tussen conditie en leeftijd ($F(1,30) = .83$, $p = .37$, partial $\eta^2 = .03$) en tussen conditie en sekse ($F(1,30) = .06$, $p = .80$, partial $\eta^2 = .00$).

Aantal juiste patronen – DFT

Bij de derde onderzoeksvraag is gekeken naar het aantal juiste patronen op de Design Fluency Test. Er is onderzocht of er een verschil bestaat in het contrast tussen de baseline- en switching conditie, tussen kinderen en jong volwassenen met ASS en kinderen en jong volwassenen in de controlegroep. Dit contrast is indicatief voor de mate van cognitieve flexibiliteit. Aan de assumptie van sfericiteit is voldaan. De resultaten geven weer dat er een hoofdeffect is van het aantal juist patronen ($F(1,30) = 6.01, p < .05, \text{partial } \eta^2 = .17$) en van groep ($F(1,30) = 6.52, p < .05, \text{partial } \eta^2 = .18$). In de switching conditie worden gemiddeld minder juiste patronen gegenereerd dan in de baseline condities. Er zijn geen hoofdeffecten gevonden van leeftijd ($F(1,30) = 1.88, p = .18, \text{partial } \eta^2 = .06$) en sekse ($F(1,30) = .35, p = .56, \text{partial } \eta^2 = .01$).

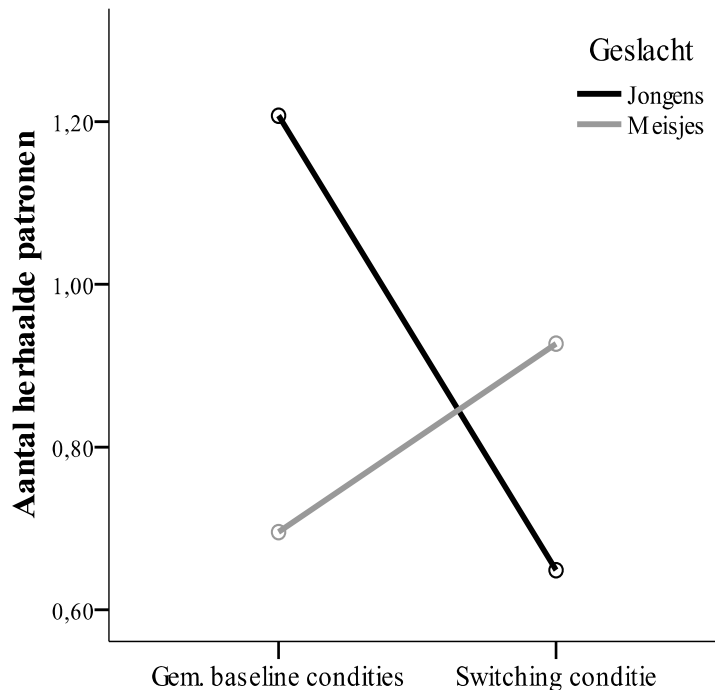
Voor beantwoording van de onderzoeksvraag is gekeken naar het interactie-effect tussen conditie en groep op het aantal juiste patronen. Dit interactie-effect is niet significant, $F(1,30) = 1.73, p = .20, \text{partial } \eta^2 = .05$. Het verschil in het aantal juiste patronen tussen de switching conditie en de baseline condities, verschilt niet tussen de experimentele en de controlegroep. Daarnaast zijn er geen significante interactie-effecten gevonden tussen conditie en leeftijd ($F(1,30) = .27, p = .61, \text{partial } \eta^2 = .01$), en tussen conditie en sekse ($F(1,30) = 1.83, p = .19, \text{partial } \eta^2 = .06$).

Aantal herhaalde patronen – DFT

Bij de vierde onderzoeksvraag is gekeken naar het aantal herhaalde patronen op de Design Fluency Test. Ook hier is onderzocht of er een verschil bestaat in het contrast tussen de baseline- en switching conditie, tussen de experimentele en de controlegroep. Opnieuw is aan de assumptie van sfericiteit voldaan. Er zijn geen significante hoofdeffecten van het aantal herhaalde patronen ($F(1,30) = .27, p = .60, \text{partial } \eta^2 = .01$), leeftijd ($F(1,30) = 1.49, p = .23, \text{partial } \eta^2 = .05$), groep ($F(1,30) = .69, p = .41, \text{partial } \eta^2 = .02$) en sekse ($F(1,30) = .11, p = .75, \text{partial } \eta^2 = .00$).

Voor het beantwoorden van de onderzoeksvraag is het interactie-effect tussen conditie en groep op het aantal herhaalde patronen, van belang. Dit interactie-effect is niet significant, $F(1,30) = .10, p = .75, \text{partial } \eta^2 = .00$. Het verschil in het aantal herhaalde patronen tussen de switching conditie en de baseline condities, verschilt niet tussen de experimentele en de controlegroep. Daarnaast zijn er geen significante interactie-effecten gevonden tussen conditie en leeftijd ($F(1,30) = .08, p = .77, \text{partial } \eta^2 = .00$) en tussen conditie en sekse ($F(1,30) = 3.26, p = .08, \text{partial } \eta^2 = .10$). De p-waarde behorende bij het interactie-effect tussen conditie en

sekses, lijkt echter wel een indicatie voor een trend te zijn. Jongens genereren meer herhaalde patronen op de baseline condities en minder op de switching conditie, terwijl voor meisjes het omgekeerde patroon waarneembaar is (zie Figuur 2).



Figuur 2. Aantal herhaalde patronen van jongens en meisjes over de verschillende condities.

Correlationele analyses

Bij de tweede vraagstelling is onderzocht of er een relatie bestaat tussen de mate van cognitieve flexibiliteit zoals vastgesteld met de CWIT en de mate van cognitieve flexibiliteit zoals vastgesteld met de DFT. In Tabel 2 zijn de verschillende Pearson's productmoment-correlatiecoëfficiënten weergegeven, voor de gehele onderzoeksgroep. De vier contrastscores geven allen een indicatie van de mate van cognitieve flexibiliteit. Wanneer de mate van cognitieve flexibiliteit gemeten wordt aan de hand van contrastscore van de voltooiingstijd en het aantal fouten bij de CWIT, blijkt tussen beide een positieve correlatie te bestaan ($r = .40$, $p < .05$, $n = 35$). Om de vraagstelling te beantwoorden zijn vier andere correlaties van belang. Er bestaat geen significante correlaties tussen de contrastscore van de voltooiingstijd op de CWIT en de contrastscore van het aantal juist patronen op de DFT ($r = -.07$, $p = .68$, $n = 35$). Tussen de contrastscore van de voltooiingstijd op de CWIT en de contrastscore van het aantal herhaalde patronen op de DFT ($r = .08$, $p = .67$, $n = 35$), bestaat tevens geen significantie

correlatie. Daarnaast is er geen significante correlaties tussen de contrastscore van het aantal fouten op de CWIT en de contrastscore van het aantal juiste patronen op de DFT ($r = .01, p = .97, n = 35$). Ook tussen de contrastscore van het aantal fouten op de CWIT en de contrastscore van het aantal herhaalde patronen op de DFT ($r = .07, p = .69, n = 35$), wordt geen significante correlatie gevonden. De mate van cognitieve flexibiliteit zoals vastgesteld met de CWIT is niet gerelateerd aan de mate van cognitieve flexibiliteit zoals vastgesteld met de DFT.

Tabel 2

Correlaties tussen de Color-Word Interference Test (CWIT), de Design Fluency Test (DFT) en de Autisme-Spectrum Quotiënt (AQ).

	1	2	3	4	5	6	7
1. Contrastscore voltooiingstijd CWIT	–						
2. Contrastscore fouten CWIT	.40*	–					
3. Contrastscore juiste patronen DFT	-.07	.01	–				
4. Contrastscore herhaalde patronen DFT	.08	.07	-.01	–			
5. AQ subschaal Attention Switching	.22	.13	.15	-.08	–		
6. AQ subschaal Attention to Detail	.22	.28	.29	-.21	.55**	–	
7. Totale AQ score	.13	.04	.17	-.17	.95**	.60**	–

Noot. Correlaties tussen de ruwe contrastscore van de CWIT en de DFT omvatten een $n = 35$. Correlaties tussen de ruwe contrastcores, de AQ subschalen en de totale AQ score omvatten een $n = 30$. Deze steekproefgrootte is kleiner, omdat vijf participanten de AQ vragenlijst niet geretourneerd hebben.

* $p < .05$, ** $p < .01$

Bij de derde vraagstelling is gekeken of er een relatie bestaat tussen de mate van cognitieve flexibiliteit zoals vastgesteld met de D-KEFS taken en gerapporteerde autistische gedragskenmerken op de AQ vragenlijst. De inter-correlaties tussen de subschalen van de AQ en de totale AQ score zijn sterk. Alle Pearson's productmoment-correlatiecoëfficiënten zijn terug te vinden in Tabel 2. Allereerst is gekeken naar de mate van cognitieve flexibiliteit zoals gemeten met de beide contrastcores op de CWIT. Er zijn geen significante correlaties gevonden tussen de contrastscore van de voltooiingstijd op deze taak en de subschaal Attention Switching ($r = .22, p = .24, n = 30$), de subschaal Attention to Detail ($r = .22, p = .25, n = 30$) en de totale AQ score ($r = .13, p = .50, n = 30$). Er bestaan ook geen significante correlaties tussen de contrastscore van het aantal fouten op deze taak en de AQ subschalen ($r = .13, p = .50, n = 30$; $r = .28, p = .14, n = 30$) en de totale AQ score ($r = .04, p = .85, n = 30$). Ten tweede is gekeken naar de mate van cognitieve flexibiliteit zoals gemeten met de beide

contrastscores op de DFT. Er bestaan geen significante correlaties tussen de contrastscore van het aantal juiste patronen op deze taak en de subschaal Attention Switching ($r = .15, p = .43, n = 30$), de subschaal Attention to Detail ($r = .29, p = .12, n = 30$) en de totale AQ score ($r = .17, p = .38, n = 30$). Daarnaast zijn er geen correlaties gevonden tussen de contrastscore van het aantal herhaalde patronen op deze taak en de AQ subschalen ($r = -.08, p = .69, n = 30; r = .29, p = .12, n = 30$) en de totale AQ score ($r = -.17, p = .38, n = 30$).

Ook zijn er Pearson's productmoment-correlatiecoëfficiënten berekend, om te kijken of de correlatie tussen bovenstaande variabelen wellicht verschilt binnen de experimentele groep en de controlegroep afzonderlijk. De correlatieve analyse in beide groepen, liet ook hier zien dat er geen enkele significante correlatie bestaat tussen de mate van cognitieve flexibiliteit zoals vastgesteld met de CWIT en de DFT en tussen deze maten van cognitieve flexibiliteit, de beide AQ subschalen en de totale AQ score (alle p waarden $>.05$).

Conclusie en discussie

In deze studie is de mate van cognitieve flexibiliteit onderzocht aan de hand van twee taken van de D-KEFS, te weten de Color-Word Interference Test (CWIT) en de Design Fluency Test (DFT). De mate van cognitieve flexibiliteit is bepaald om te onderzoeken of er een onderscheid gemaakt kan worden op dit gebied, tussen kinderen en jong volwassenen met een autisme spectrum stoornis (ASS) en kinderen en jong volwassenen zonder deze stoornis. De verwachting was dat kinderen en jong volwassenen met ASS minder cognitief flexibel zouden zijn dan kinderen en jong volwassenen in de controlegroep. Voor het meten van cognitieve flexibiliteit is er bij de CWIT gekeken naar de voltooiingstijd en het aantal fouten en bij de DFT naar het aantal juiste patronen en het aantal herhaalde patronen. Zowel met betrekking tot de voltooiingstijd, het aantal fouten, het aantal juiste patronen, als het aantal herhaalde patronen, is onderzocht of er een verschil bestaat in het contrast tussen de baseline- en switching condities, tussen kinderen en jong volwassen met ASS en gezonde kinderen en jong volwassenen in de controlegroep. Dit contrast is indicatief voor de mate van cognitieve flexibiliteit. Pas wanneer er relatief gezien een groot verschil zit tussen de switching conditie en de baseline condities, kan gesteld worden dat iemand minder cognitief flexibel is omdat hij of zij dan gehinderd wordt door taakmoeilijkheid. De verwachting was dat het contrast tussen de baseline- en switching conditie groter zou zijn bij kinderen en jong volwassenen met ASS, dan bij kinderen en jong volwassenen in de controlegroep. Daarnaast is er onderzocht of er een relatie bestaat tussen de mate van cognitieve flexibiliteit zoals vastgesteld met de CWIT en de mate van cognitieve flexibiliteit zoals vastgesteld met de DFT, en of deze maten van cognitieve flexibiliteit gerelateerd zijn aan gerapporteerde autistische gedragskenmerken op de AQ vragenlijst. Verwacht werd dat wanneer participanten een slechte prestatie behalen met betrekking tot cognitieve flexibiliteit op de ene taak, zij ook een slechte prestatie zouden behalen op dit gebied op de andere taak. Tevens was de verwachting dat de mate van cognitieve flexibiliteit, zoals vastgesteld met beide D-KEFS taken, sterk gerelateerd zou zijn aan gerapporteerde autistische gedragskenmerken op de AQ.

Er is allereerst gekeken naar de mate van cognitieve flexibiliteit, zoals gemeten met de CWIT. Met betrekking tot de voltooiingstijd op deze taak, tonen de resultaten van de huidige studie aan dat het contrast tussen de inhibitie/switching conditie en de baseline condities groter is voor kinderen en jong volwassenen met ASS dan voor kinderen en jong volwassenen in de controlegroep. Wanneer er gecontroleerd wordt voor de baseline condities, blijken kinderen en jong volwassenen met ASS een significant langere voltooiingstijd te hebben op de cognitieve flexibiliteitstaak dan kinderen en jong volwassenen in de controlegroep. Deze

bevinding biedt steun voor de hypothese dat kinderen en jong volwassenen met ASS problemen ervaren op het gebied van cognitieve flexibiliteit en minder cognitief flexibel lijken te zijn dan gezonde kinderen en jong volwassenen in dezelfde leeftijdscategorie. Deze bevinding is in overeenstemming met verschillende studies, waarin cognitieve flexibiliteit is onderzocht bij personen met autisme (Pennington & Ozonoff, 1996; Hill, 2004). Ook uit deze studies komt naar voren dat er bij personen met autisme, beperkingen bestaan op het gebied van cognitieve flexibiliteit. Met betrekking tot het aantal fouten op deze taak, tonen de resultaten echter aan dat het contrast tussen de inhibitie/switching conditie en de baseline condities, niet verschilt tussen kinderen en jong volwassenen met ASS en kinderen en jong volwassenen in de controlegroep. Na controle voor de baseline condities, blijken kinderen en jong volwassenen met ASS ongeveer evenveel fouten te maken op de cognitieve flexibiliteitstaak dan kinderen en jong volwassenen in de controlegroep. Opvallend is dat er over het algemeen zeer weinig fouten gemaakt zijn, wat binnen deze test echter gunstig lijkt te zijn voor de interpretatie van de resultaten. Wanneer een persoon veel fouten maakt, die hij of zij zelf verbetert, zal dit ten koste gaan van de voltooiingstijd en is het lastig om nog een onderscheid te maken tussen snelheid en nauwkeurigheid. In de huidige studie ligt het aantal gemaakte fouten echter zeer laag. Het gevonden verschil op het gebied van het contrast van de voltooiingstijd, geeft hierdoor naar alle waarschijnlijkheid een goede indicatie voor de mate van cognitieve flexibiliteit.

Vervolgens is gekeken naar de mate van cognitieve flexibiliteit, zoals gemeten met de DFT. Met betrekking tot het aantal juiste patronen op deze taak, tonen de resultaten aan dat het contrast tussen de switching conditie en de baseline condities niet verschilt tussen kinderen en jong volwassenen met ASS en kinderen en jong volwassenen in de controlegroep. Wanneer er gecontroleerd wordt voor de baseline condities, blijken kinderen en jong volwassenen met ASS ongeveer evenveel juiste patronen te genereren op de cognitieve flexibiliteitstaak dan kinderen en jong volwassenen in de controlegroep. Deze bevinding biedt geen steun voor de hypothese dat kinderen en jong volwassenen met ASS minder cognitief flexibel zijn dan gezonde kinderen en jong volwassenen in dezelfde leeftijdscategorie. Uit onderzoek van Kleinhans en collega's (2005) komt echter ook naar voren dat personen met autisme en de Stoornis van Asperger een normale prestatie behalen op de Design Fluency Task. Een verklaring voor deze bevinding zou kunnen zijn dat personen met ASS over het algemeen relatief sterke visueel-ruimtelijke vaardigheden bezitten. Eerder onderzoek van onder andere Plaisted, O'Riordan en Baron-Cohen (1998) heeft aangetoond dat personen met ASS superieure visuospatiële vaardigheden vertonen. Het zou kunnen zijn dat de DFT,

waarbij visuele patronen gegenereerd moeten worden, een beroep doet op deze visuospatiële verwerking waardoor deze participanten over het algemeen een gemiddelde prestatie behalen. Ook met betrekking tot het aantal herhaalde patronen op deze taak, tonen de resultaten aan dat het contrast tussen de switching conditie en de baseline condities, niet verschilt tussen kinderen en jong volwassenen met ASS en kinderen en jong volwassenen in de controlegroep. Na controle voor de baseline condities, blijken kinderen en jong volwassenen met ASS ongeveer evenveel herhaalde patronen te genereren op de cognitieve flexibiliteitstaak als kinderen en jong volwassenen in de controlegroep. Wel komt er een zeer kleine aanwijzing naar voren dat er een verschil lijkt te bestaan tussen de prestaties van jongens en meisjes op dit gebied. Waar jongens naar verhouding meer herhaalde patronen genereren op de baseline condities in vergelijking met de switching conditie, vertonen meisjes het omgekeerde patroon. Er moet echter opgemerkt worden dat de sekse van de participant slechts 8,9% van de variantie verklaard in het genereren van herhaalde patronen. Dit duidt slechts op een zeer kleine invloed. Daarnaast was het aantal meisjes binnen het huidige onderzoek zeer gering, waardoor er een grotere kans bestaat op toeval of bias.

Uit de resultaten blijkt verder dat de mate van cognitieve flexibiliteit zoals vastgesteld met de CWIT, niet gerelateerd is aan de mate van cognitieve flexibiliteit zoals vastgesteld met de DFT. Deze bevinding komt niet overeen met de vooropgestelde verwachting, waarin gesteld werd dat een zwakke prestatie op de ene cognitieve flexibiliteitstaak gerelateerd zou zijn aan een zwakke prestatie op de andere cognitieve flexibiliteitstaak. Een verklaring voor deze bevinding zou kunnen zijn dat de aard van beide taken zeer verschillend is. Waar het bij de CWIT om een verbale taak gaat, betreft het bij de DFT een non-verbale, visuele taak. In eerder aangehaald onderzoek van Kleinhans en collega's (2005) bleken participanten met autisme beperkt op een test voor verbale fluency, maar behaalden zij een normale score wanneer het een test voor design fluency betrof. Deze bevindingen wijzen op het feit dat personen met autisme meer moeite ervaren met verbale, dan met non-verbale taken. Binnen het huidige onderzoek kan een verbale taak gezorgd hebben voor het ervaren van meer psychosociale stress bij participanten, waardoor beperkingen op het gebied van cognitieve flexibiliteit duidelijker naar voren komen, dan wanneer zij een non-verbale, visuele taak aangeboden kregen. De non-verbale visuele taak kunnen zij meer hebben gezien als een uitdaging, terwijl de verbale taak echter als een obstakel wordt gezien vanwege beperking rondom de communicatie die zij over het algemeen ervaren.

Tot slot hebben de resultaten uitgewezen dat de mate van cognitieve flexibiliteit zoals vastgesteld met de beide D-KEFS taken, niet gerelateerd is aan gerapporteerde autistische

kenmerken op de AQ vragenlijst. Ook deze uitkomst was niet in overeenstemming met de vooropgestelde hypothese. Verwacht werd dat wanneer er sprake was van een zwakke prestatie op de neuropsychologische taken, dit sterk gerelateerd zou zijn aan autistische gedragskenmerken. Onderzoek van Lopez en collega's (2005) wees eerder uit dat verschillende executieve processen, waaronder cognitieve flexibiliteit, werkgeheugen en respons inhibitie, sterk gerelateerd waren aan de restrictieve, herhaalde symptomen van autisme. Voor het vaststellen van cognitieve flexibiliteit hebben zij echter gebruik gemaakt van de WCST en de Trail Making Test. Het verschil in meetinstrumenten is een eerste verklaring voor deze tegenstrijdige resultaten. Een tweede verklaring zou kunnen zijn dat cognitieve flexibiliteit zoals vastgesteld met neuropsychologische instrumenten binnen een gestandaardiseerde onderzoekssetting, sterk verschilt van de dagelijkse praktijk waarin voortdurend onverwachte of veranderende gebeurtenissen plaatsvinden.

Binnen het huidige onderzoek was er sprake van een aantal beperkingen. Allereerst was er sprake van een relatief kleine onderzoeksgroep, waardoor er wellicht niet genoeg power bestond om het beoogde effect te verkrijgen. Bij het vaststellen van de mate van cognitieve flexibiliteit bij de DFT, lag de verklaarde variantie van de groep, ondanks een niet significant verschil, op bijna 20%. Deze verklaarde variantie wijst op het feit dat er wellicht met een grotere steekproef wel een significant effect naar voren zal komen. Een andere kanttekening van het huidige onderzoek betreft de scheve verdeling van de leeftijd binnen zowel de onderzoeksgroep, als de experimentele groep. Binnen beide groepen zijn er min of meer twee kleinere subgroepen te onderscheiden, te weten kinderen (9-14 jaar oud) en jong volwassenen (18-26 jaar oud). Er zijn geen participanten in de leeftijd van 15, 16 en 17 jaar oud opgenomen. Door in vervolgonderzoek de onderzoeksgroep aan te vullen met participanten uit deze leeftijdscategorie, kan er voor gezorgd worden dat deze scheve verdeling hersteld wordt. Uit de resultaten van het huidige onderzoek komen tevens aanwijzingen naar voren dat de leeftijd, en daarnaast ook de sekse, van de participanten van invloed is op de mate van cognitieve flexibiliteit. Ook op deze aspecten zou vervolgonderzoek zich kunnen richten. Binnen de experimentele groep van het huidige onderzoek, waren er enkele participanten die medicatie gebruikten tijdens de afname van de verschillende neuropsychologische taken. Theoretisch gezien, wordt verwacht dat geen van deze medicijnen een nadelig effect zal hebben op de prestaties van de participanten. Er is echter weinig tot geen informatie beschikbaar over het effect van medicatie op de neuropsychologische prestatie bij personen met ASS (Kleinmans et al., 2005). Hoewel er in het huidige onderzoek verkort intelligentieonderzoek heeft plaatsgevonden, om te onderzoeken of participanten aan de

inclusiecriteria voldeden, zijn deze IQ scores niet meegenomen in de analyses. Voor vervolgonderzoek is het interessant om (verkort) intelligentieonderzoek te gebruiken, om te kijken of de intelligentie van een bepaalde participant gerelateerd is aan zijn of haar mate van cognitieve flexibiliteit. Vanwege het feit dat de onderzoeksgroep bijna volledig uit blanke participanten bestond, kunnen de resultaten niet gegeneraliseerd worden naar andere bevolkingsgroepen. Daarnaast was er sprake van een zeer heterogene experimentele groep, waarbij participanten met autisme, de Stoornis van Asperger en PDD-NOS, allen onder de term ASS zijn geïncludeerd. De resultaten van dit onderzoek kunnen daarom niet gegeneraliseerd worden naar één van deze specifieke stoornissen.

Samenvattend kan geconcludeerd worden dat kinderen en jong volwassenen met ASS, in vergelijking met kinderen en jong volwassenen uit de controlegroep, problemen ervaren op het gebied van cognitieve flexibiliteit zoals gemeten met de Color-Word Interference Test. Wanneer cognitieve flexibiliteit gemeten wordt met de Design Fluency Test, bestaat er echter geen verschil tussen beide groepen. De mate van cognitieve flexibiliteit, zoals vastgesteld met beide neuropsychologische testen, is niet gerelateerd aan gerapporteerde autistische kenmerken op de AQ. Wanneer deze uitkomsten worden gerelateerd aan praktische implicaties, lijken de resultaten er op te wijzen dat de DFT in de praktijk niet geschikt lijkt te zijn voor het vaststellen van beperkingen op het gebied van cognitieve flexibiliteit bij personen met autisme. Met de CWIT lijken deze beperkingen wel naar voren te komen. Hierbij moet echter rekening gehouden worden met de aard van de taak, omdat deze in grote mate van elkaar verschilt. Het is daarnaast mogelijk dat neuropsychologische taken niet direct gerelateerd kunnen worden aan observeerbaar gedrag dat personen met ASS in het dagelijks leven vertonen. Hoewel personen in de dagelijkse praktijk veel moeite kunnen ervaren met het afwisselen tussen verschillende taken, of vervallen in stereotype, herhaalde gedragingen wanneer zij geconfronteerd worden met veranderde situaties, is het mogelijk dat zij toch goed scoren op neuropsychologische taken die cognitieve flexibiliteit beogen te meten. Aan de prestatie op een bepaalde neuropsychologische taak, moet daarom niet altijd een te grote waarde gehecht worden. Deze prestaties moeten gezien worden in het licht van alledaagse praktijkvoorbeelden en de ervaring van personen uit de directe omgeving. Daarnaast is het van belang dat er bij de interpretatie van bovengenoemde resultaten, rekening dient te worden gehouden met de beperkingen van dit onderzoek en dat er niet gegeneraliseerd kan worden naar verschillende etnische groepen, personen uit een andere leeftijdscategorie en personen met een specifieke vorm van autisme.

Referenties

- Achenbach, T. M. (1991). Nederlandse bewerking: Verhulst, F. C., Ende, J van der, & Koot, H. M. (1996). *Child Behavior Checklist / 4-18*. Burlington: University of Vermont.
- American Psychiatric Association (1994). *Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders, Fourth Edition*. Washington, DC: American Psychiatric Association.
- American Psychiatric Association / Koster van Goos (2001). *Beknopte handleiding bij de diagnostische criteria van de DSM-IV-TR*. Lisse: Swets & Zeitlinger.
- Auyeung, B., Baron-Cohen, S., Wheelwright, S., & Allison, C. (2008). The Autism Spectrum Quotient: Children's Version (AQ-Child). *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 38, 1230-1240.
- Baron-Cohen, S., Hoekstra, R. A., Knickmeyer, R., & Wheelwright, S. (2006). The Autism-Spectrum Quotient (AQ) – Adolescent Version. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 36, 343-350.
- Baron-Cohen, S., Wheelwright, S., Skinner, R., Martin, J., & Clubley, E. (2001). The Autism-Spectrum Quotient (AQ): Evidence from Asperger Syndrome/high-functioning autism, males and females, scientists and mathematicians. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 31, 5-17.
- Carr, A. (2006). *The handbook of child and adolescent clinical psychology: A contextual approach*. New York: Routledge.
- Crone, E. A., Ridderinkhof, K. R., Worm, M., Somsen, R. J. M., & Molen, M. W. van der (2004). Switching between spatial stimulus-response mappings: A developmental study of cognitive flexibility. *Developmental Science*, 7, 443-455.
- Dawson, G., Webb, S., Schellenberg, G. D., Dager, S., Friedman, S., Aylward, E., & Richards, T. (2002). Defining the broader phenotype of autism: Genetic, brain, and behavioural perspectives. *Development and Psychopathology*, 14, 581-611.
- Delis, D. C., Kaplan, E., & Kramer, J. H. Nederlandse bewerking: Noens, I., & Berckelaer-Onnes, I., van de (2008). *Delis – Kaplan Executive Function System Color-Word Interference Test: Handleiding*. Londen: Harcourt Test Publishers.
- Delis, D. C., Kaplan, E., & Kramer, J. H. Nederlandse bewerking: Noens, I., & Berckelaer-Onnes, I., van de (2008). *Delis – Kaplan Executive Function System Design Fluency Test: Handleiding*. Londen: Harcourt Test Publishers.
- Fombonne, E. (2003). Epidemiological surveys of autism and other pervasive developmental disorders: An update. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 33, 365-382.

- Frith, U. (2004). Emanuel Miller lecture: Confusions and controversies about Asperger syndrome. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 45, 672-686.
- Geurts, H. M., Corbett, B., & Solomon, M. (2009). The paradox of cognitive flexibility in autism. *Trends in Cognitive Sciences*, 13, 74-82.
- Goldberg, M.C., Mostofsky, S. H., Cutting, L. E., Mahone, E. M., Astor, B. C., Denckla, M. B., & Landa, R. J. (2005). Subtle executive impairment in children with autism and children with ADHD. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 35, 279-293.
- Griffith, E. M., Pennington, B. F., Wehner, E. A., & Rogers, S. J. (1999). Executive functions in young children with autism. *Child Development*, 70, 817-832.
- Happé, F., Booth, R., Charlton, R., & Hughes, C. (2006). Executive function deficits in autism spectrum disorders and attention-deficit/hyperactivity disorder: Examining profiles across domains and ages. *Brain and Cognition*, 61, 25-39.
- Hill, E. L. (2004). Executive dysfunction in autism. *Trends in Cognitive Science*, 8, 26-31.
- Hoekstra, R., Bartels, M., Cath, D., & Boomsma, D. I. (2008). Factor structure, reliability and criterion validity of the Autism-Spectrum Quotient (AQ): A study in Dutch population and patient groups. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 38, 1555-1566.
- Homack, S., Lee, D., & Riccio, C. A. (2005). Test review: Delis-Kaplan Executive Function System. *Journal of Clinical and Experimental Neuropsychology*, 27, 599-609.
- Huizinga, M. (2007). De ontwikkeling van executieve functies tussen kindertijd en jongvolwassenheid. *Neuropraxis*, 3, 74-82.
- Kaland, N., Smith, L., & Mortensen, E. L. (2008). Brief report: Cognitive flexibility and focused attention in children and adolescents with asperger syndrome or high-functioning autism as measured on the computerized version of the Wisconsin Card Sorting Test. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 38, 1161-1165.
- Kanner, L. (1971). Follow-up study of eleven autistic children originally reported in 1943. *Journal of Autism and Childhood Schizophrenia*, 1, 119-145.
- Kleinmans, N., Akshoomoff, N., & Delis, D. C. (2005). Executive functions in autism and asperger's disorder: Flexibility, fluency, and inhibition. *Developmental Neuropsychology*, 27, 379-401.
- Lopez, B. R., Lincoln, A. J., Ozonoff, S., & Lai, Z. (2005). Examining the relationship between executive functions and restricted, repetitive symptoms of autistic disorder. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 35, 445-460.
- Lord, C., Risi, S., Lambrecht, L., Cook, E., Leventhal, B., DiLavore, P., et al. (2000). Nederlandse bewerking: Bildt, A. de, & Jonge, M. V. de (2008). The Autism Diagnostic

- Observtion Schedule – Generic: A stand measure of social and communication deficits associated with the spectrum of autism. *Journal of Autism and Developmental Disorder* 30, 205-223.
- Lord, C., Rutter, M., & Le Couteur, A. (1994). Nederlandse bewerking: Jonge, M. V. de, & Bildt, A. de (2007). Autism Diagnostic Interview – Revised: A revised version of a diagnostic interview for caregivers of individuals with possible pervasive developmental disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 24, 659-685.
- Pennington, B. F., & Ozonoff, S. (1996). Executive functions and developmental psychopathology. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 37, 51-87.
- Plaisted, K., O’Riordan, M., & Baron-Cohen, S. (1998). Enhanced visual search for a conjunctive target in autism: A research note. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 39, 777-783.
- Russo, N., Flanagan, T., Iarocci, G., Berringer, D., Zelazo, P. D., & Burack, J. A. (2007). Deconstructing executive deficits among persons with autism: Implications for cognitive neuroscience. *Brain and Cognition*, 65, 77-86.
- Sanders, J., Johnson, K. A., Garavan, H., Gill, M., & Gallagher, L. (2008). A review of neuropsychological and neuroimaging research in autistic spectrum disorders: Attention, inhibition and cognitive flexibility. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 2, 1-16.
- Smidts, D. (2003). Executieve functies van geboorte tot adolescentie: Een literatuuroverzicht. *Neuropsaxis*, 7, 133-140.
- Turner, M. A. (1999). Generating novel ideas: Fluency performance in high-functioning and learning disabled individuals with autism. *Journal Child Psychology and Psychiatry*, 40, 189-201.
- Wechsler, D. (2000). Nederlandse bewerking: Uterwijk, J. (2000). *Wechsler Adult Intelligence Scale Derde Editie NL: Technische handleiding*. Lisse: Swets & Zeitlinger.
- Wechsler, D. (2005). Nederlandse bewerking: Kort, W., Schittekatte, M., Dekker, P. H., Verhaeghe, P., Compaan, E. L., Bosmans, M., et al. (2005). *Wechsler Intelligence Scale for Children Derde Editie NL: Handleiding en Verantwoording*. Londen: Harcourt Test Publishers.
- Wenar, C., & Kerig, P. K. (2005). *Developmental psychopathology: From infancy through adolescence*. New York: McGraw-Hill.
- Wing, L. (1996). Autistic spectrum disorders. *British Medical Journal*, 312, 327-328.

Appendix 1: De Autisme-Spectrum Quotiënt (AQ)

	Volstrekt mee eens	Beetje mee eens	Beetje mee oneens	Volstrekt mee oneens
1.				
2.				
3.				
4.				
5.				
6.				
7.				
8.				
9.				
10.				
11.				
12.				
13.				
14.				
15.				
16.				
17.				
18.				
19.				
20.				
21.				
22.				
23.				
24.				
25.				
26.				
27.				
28.				
29.				

Appendix 1 (vervolg)

	Volstrekt mee eens	Beetje mee eens	Beetje mee oneens	Volstrekt mee oneens
30. Kleine veranderingen in een situatie of in het uiterlijk van iemand vallen mij meestal <u>niet</u> op ^b				
31. Ik merk het wanneer iemand die naar mij luistert zich gaat vervelen				
32. Ik vind het makkelijk om meer dan één ding tegelijk te doen ^a				
33. Wanneer ik aan de telefoon ben, vind ik het moeilijk om te bepalen wanneer het mijn beurt is om te spreken				
34. Ik vind het leuk om dingen spontaan te doen ^a				
35. Ik ben vaak de laatste die de clou van een grap begrijpt				
36. Ik vind het makkelijk om te bepalen wat iemand denkt of voelt door alleen naar zijn/haar gezicht te kijken				
37. Als ik onderbroken word, vind ik het makkelijk om daarna de draad snel weer op te pakken ^a				
38. Ik ben goed in het maken van een praatje				
39. Mij wordt vaak verteld dat ik maar door blijf gaan over één en hetzelfde onderwerp				
40. Toen ik nog klein was, vond ik het leuk om alsof-spelletjes te doen met anderen kinderen				
41. Ik vind het leuk om informatie te verzamelen over bepaalde categorieën (bijvoorbeeld soorten auto's, soorten vogels, soorten treinen, soorten planten enz.)				
42. Ik vind het moeilijk om me in te leven in iemand anders				
43. Ik vind het prettig om de activiteit die ik doe zorgvuldig te plannen ^a				
44. Ik hou van sociale gelegenheden				
45. Ik vind het moeilijk om iemands bedoelingen te bepalen				
46. Nieuwe situaties maken me bang ^a				
47. Ik vind het leuk om nieuwe mensen te ontmoeten				
48. Ik ben een goede onderhandelaar				
49. Ik ben <u>niet</u> zo goed in het onthouden van iemands geboortedatum ^b				
50. Ik vind het makkelijk om met kinderen alsof-spelletjes te spelen				

^aItems behorende bij de subschaal 'Attention Switching'. ^bItems behorende bij de subschaal 'Attention to Detail'.