

Universiteit Utrecht  
Master kinder- en jeugdpsychologie

THESIS

**Cognitieve flexibiliteit bij kinderen en jong volwassenen met een autisme  
spectrum stoornis en hun ouders**

J.A.H.B. Snoeck, 3064433

6 juli 2009

Begeleiding UU: Dhr. dr. J. Boom

Begeleiding UMCU: Mw. dr. M. de Jonge

Mw. drs. R.H. Houben

Mw. drs. M.A. Agterberg

## ***Voorwoord***

Deze thesis is geschreven in het kader van de Master Kinder- en Jeugdpsychologie van de Universiteit Utrecht. Dit werkstuk vertolkt het onderzoek dat als masterthesis is opgezet en uitgevoerd.

Voorafgaand aan het behalen van mijn bachelordiploma Psychologie heb ik de PABO gedaan aan de Hogeschool van Arnhem en Nijmegen. Na het voltooien van deze opleiding wilde ik mij verder verdiepen in de ontwikkelingspsychologie. De Master Kinder- en Jeugdpsychologie was een logisch gevolg. Mijn interesse voor autisme spectrum stoornissen was altijd al groot en na tien maanden stage ben ik nog meer gefascineerd geraakt door deze psychiatrische stoornis. Mijn thesisonderzoek was dan ook erg boeiend.

Maretha de Jonge en Jan Boom waren respectievelijk mijn eerste en tweede thesisbegeleider. Mijn dank gaat uit naar beiden voor de hulp bij de opzet van het onderzoek en het schrijven van de uiteindelijke thesis. Ook wil ik Maartje Agterberg bedanken voor haar waardevolle feedback. Verder gaat mijn dank uit naar Renske Houben voor de uitvoering van het onderzoek, de leerzame bijeenkomsten en de prettige samenwerking. Tot slot wil ik Iris van Ginkel en Erica van der Lugt bedanken voor de fijne samenwerking tijdens dit onderzoek.

## *Samenvatting*

Er is in toenemende mate aandacht voor de genetische factoren bij het ontstaan van autisme spectrum stoornissen. Een klein aantal onderzoeken waarbij biologische ouders en broertjes/zusjes van personen met een autisme spectrum stoornis werden onderzocht, stellen dat tekorten in de executieve functies planning en cognitieve flexibiliteit het breder cognitief fenotype omschrijven. Maar er zijn ook onderzoeken waarbij deze defecten in cognitieve flexibiliteit niet gevonden werden bij individuen met een autisme spectrum stoornis.

In dit onderzoek wordt gekeken naar groepsverschillen op verschillende cognitieve flexibiliteitstaken, namelijk de D-KEFS Color Word Interference Test en de ANT – Shifting Attentional Set – Visual (SSV). Een groep met een autisme spectrum stoornis (ASS) bestaande uit 20 kinderen en jong volwassenen is vergeleken met een controlegroep (15 participanten). Een oudergroep (27 ouders van de kinderen en jong volwassen uit de ASS groep) is vergeleken met normgroepen. Tot slot zijn de verschillende cognitieve flexibiliteitstaken met elkaar vergeleken. Gebleken is dat de ASS groep significant trager is dan de controlegroep op de Color Word Interference Test; er was echter geen verschil op de SSV. De oudergroep bleek significant trager te zijn dan de normgroep op de Color Word Interference Test, maar er werden geen verschillen op de SSV gevonden. Tot slot is er geen correlatie gevonden tussen de cognitieve flexibiliteitstaken. Suggesties voor vervolgonderzoek zullen in het licht van de gevonden resultaten worden besproken.

## ***Abstract***

There is an increasing attention to the genetic factors of autism disorders. A small number of researches, where biological parents and siblings of persons with autism were examined, show that deficits in the executive functions ‘planning’ and ‘cognitive flexibility’ describe the broader cognitive phenotype. However, there are also researches where these deficits were not found on individuals with autism.

This research looks at differences on several cognitive flexibility tasks, namely D-KEFS Color Word Interference Test and the ANT – Shifting Attentional Set – Visual (SSV). One group of 20 children and young adults with autism is compared to a control group (15 participants). A parent group (27 parents of the children and young adults who are part of the autism group) is compared to a normal group. The two cognitive flexibility tasks have been compared to each other. The children and young adults with autism are significantly slower than the control group on the Color Word Interference Test, however no differences were found on the SSV. The parents of the children and young adults with autism are significantly slower than the normal group on the Color Word Interference Test, but no differences were found on the SSV. No correlation has been found between these two cognitive flexibility tasks.

Suggestions for further research will be discussed.

## ***Inleiding***

Autisme spectrum stoornissen (ASS) zijn neurologische ontwikkelingsstoornissen met defecten in de sociale interactie, communicatie en karakteristiek beperkte, herhalende patronen van gedrag, interesses en activiteiten. Autistische stoornis, stoornis van Rett, desintegratiestoornis van de kinderleeftijd, pervasieve ontwikkelingsstoornis niet anderszins omschreven en stoornis van Asperger zijn in de DSM-IV-TR geclassificeerd als de vijf pervasieve ontwikkelingsstoornissen (American Psychiatric Association, 2007; Sanders, Johnson, Garavan, Gill & Gallagher, 2008).

Er is in toenemende mate aandacht voor de genetische factoren bij het ontstaan van autisme spectrum stoornissen. In februari 2007 stond in de Volkskrant het artikel '*Onderzoekers dichterbij ontrafeling genetische achtergrond van autisme*'. Het beschreven onderzoek, een internationaal samenwerkingsverband (The Autism Genome Project Consortium, 2007) waar het Universitair Medisch Centrum Utrecht (UMCU) aan meewerkte, onderzocht 1181 gezinnen met op z'n minst twee individuen met een autisme spectrum stoornis. De verkregen resultaten uit het onderzoek naar de genen van het grootste cohort van ASS families tot nu toe geven een nieuw inzicht in de genetische basis voor deze complexe stoornis (Volkskrant, 2007).

Familieonderzoeken tonen aan dat er 50 tot 200 keer meer kans is op autisme bij broertjes/zusjes van een kind met een autisme spectrum stoornis. Wanneer deze broertjes/zusjes geen autisme spectrum stoornis blijken te hebben, lopen ze toch een verhoogd risico op een verscheidenheid van ontwikkelingsstoornissen die vaak gerelateerd zijn aan sociale en communicatievaardigheden. De moeilijkheden bij niet-autistische familieleden van personen met een autisme spectrum stoornis worden door onderzoekers aangeduid als het 'breder fenotype' (Sadock & Sadock, 2007). Een breder fenotype bestaat wanneer de biologische familieleden van personen met een autisme spectrum stoornis verhoogde defecten in cognitief functioneren laten zien die verbonden zijn aan de diagnose.

Een klein aantal onderzoeken waarbij biologische ouders en broertjes/zusjes van personen met een autisme spectrum stoornis werden onderzocht, stellen dat tekorten in de executieve functies planning en flexibiliteit het breder cognitief fenotype omschrijven (Hughes, Leboyer & Bouvard, 1997; Hughes, Plumet & Leboyer, 1999). Wong, Maybery, Bishop, Maley en Hallmayer (2006) concluderen in hun onderzoek naar ouders van kinderen met een autisme spectrum stoornis (ASS) en een controlegroep ouders een slechtere prestatie op fluency bij de ouders van kinderen met ASS. Bovendien waren de vaders uit de ASS oudergroep zwak in cognitieve flexibiliteit (Wong et al., 2006). Twee andere studies hebben

gevonden dat zowel vaders als moeders van kinderen met een autisme spectrum stoornis moeilijkheden vertonen tijdens een taak waarbij ze cognitief moeten switchen (Hughes et al., 1997; Hughes et al., 1999). Verder suggereren Bolton, MacDonald, Pickels en Rios (1994) dat ongeveer 10-20% van de broertjes/zusjes van personen met een autisme spectrum stoornis te maken hebben met taalproblemen, leermoeilijkheden, communicatieproblemen en problemen op sociaal gebied. Alleen zijn deze kenmerken in lichtere mate aanwezig waardoor zij geen diagnose verkrijgen (Hill, 2004). De specifieke manieren van overerving zijn nog niet duidelijk (Sadock & Sadock, 2007; Sanders et al., 2008). Hierdoor is het begrijpen van de complexe relaties tussen genotype en fenotype bij autisme een uitdaging van de huidige wetenschap (Sanders et al., 2008).

### ***Executieve functies***

Dawson en collega's (2002) suggereren dat 'executieve functies' een van de zes kenmerken zijn van het breder cognitief fenotype waar genetische onderzoeken de nadruk op zouden moeten leggen. De anderen zijn gezichtsverwerking, sociale toetreding, motorische imitatie, geheugen en taalcapaciteiten (Dawson et al., 2002).

Executief functioneren is het vermogen gedachten en handelingen zodanig te reguleren dat ze doelgericht en efficiënt kunnen zijn (Huizinga, 2007) en worden geassocieerd met functies van de prefrontale cortex (Happé, Booth, Charlton & Hughes, 2006). Het is een brede term voor verschillende componenten van kennis zoals impulscontrole, inhibitie, cognitieve flexibiliteit, werkgeheugen en planning (Hill, 2004; Russo, Flanagan, Iarocci, Berringer, Zelazo & Burack, 2007), maar ook voor het beginnen van en het toezicht houden op acties (Hill, 2004). Executief functioneren is dus nodig wanneer men een moeilijke of nieuwe taak uitvoert die voortdurende bewuste aandacht en inzet vereist. Tevens is het nodig voor een flexibele aanpassing aan de omgeving (Huizinga, 2007; Sanders et al., 2008). Executieve functies controleren, reguleren en leiden cognitieve processen van de lagere orde zoals taal, perceptie, expliciet geheugen, leren en actie ondernemen. Wanneer er defecten aanwezig zijn in het executief functioneren kunnen deze een impact hebben op bovengenoemde lagere orde processen (Sanders et al., 2008).

De ontwikkeling van de effectieve functies wordt gekenmerkt door een omgekeerde U-vorm bij normaal ontwikkelende personen, waarbij er sprake is van een regelmatige ontwikkeling tijdens de kinderjaren en in de adolescentie. In de jonge volwassenheid piekt de ontwikkeling van de effectieve functies (Russo et al., 2007).

Executieve functiestoornissen kunnen zich manifesteren in impulsiviteit, verminderd concentratievermogen, leerstoornissen, het onvermogen dagelijkse activiteiten te plannen en/of in sociaal ongewenst gedrag (Smidts, 2003). Deze problemen kunnen het gevolg zijn van onder andere een verworven schade aan de frontale kwabben. Ook bij een aantal ontwikkelingsstoornissen zijn defecten van executieve functies waar te nemen, zoals bij een autisme spectrum stoornis (Happé et al., 2006; Hill, 2004; Kaland, Smith & Mortensen, 2008; Sanders et al., 2008; Smidts, 2003). Bepaalde componenten van executief functioneren blijken niet altijd beschadigd bij personen met een autisme spectrum stoornis. Zo zijn er een aantal onderzoeken die geen defect konden vinden in zowel de cognitieve als motorische aspecten van inhibitie (Brian, Tipper, Weaver & Bryson, 2003; Ozonoff, Strayer, McMahon & Filloux, 1994). Semantische fluency blijkt juist een vaardigheid waar personen met autisme spectrum stoornissen goed in zijn. Kinderen met autisme genereren net zoveel woorden van een bepaalde categorie als normaal ontwikkelende kinderen (Dunn, Gomes & Sebastian, 1996; Manjiviona & Prior, 1999). Toch suggereert Hill (2004) dat het herhalingsgedrag en de beperkte interesses die vaak aanwezig zijn in personen met een autisme spectrum stoornis het best verklaard kunnen worden door executieve disfuncties. Verschillende onderzoeken beschrijven een executieve functietheorie om de relatie tussen cognitieve processen en de beperkte, herhalende symptomen bij een autisme spectrum stoornis te verhelderen (Lopez, Lincoln, Ozonoff & Lai, 2005; Sanders et al., 2008).

Een van de eerste onderzoekers naar defecten in executieve functies bij autisme was Rumsey (1985). Rumsey (1985) maakte gebruik van de Wisconsin Card Sorting Task (WCST). Bij deze test is het de bedoeling dat een patiënt zelf de regels moet ontdekken. Rumsey (1985) vond dat personen met een autisme spectrum stoornis, net zoals personen met frontale letsels, een verhoogd aantal persevererende reacties lieten zien op de WCST vergeleken met een gelijkwaardige groep personen qua IQ, geslacht, opleiding en leeftijd. Persevereren is in dit geval het zinloos herhalen van handelingen die eerder ineffectief bleken te zijn en niet flexibel kunnen zijn in het uitproberen van andere handelingen. Russo et al. (2007) omschrijven ook de persevererende reacties op de WCST. Zij zien deze persevererende reacties als een stoornis in de cognitieve flexibiliteit, een van de hogere orde executieve functies, waarvoor aandacht en inhibitie in eerste instantie ook nodig zijn.

Individen met autisme vertonen volgens meerdere onderzoeken een significant verhoogd aantal persevererende reacties op de WCST in vergelijking met normaal ontwikkelende proefpersonen met een gelijkwaardig IQ en leeftijd (Russo et al., 2007; Sanders et al., 2008). In tegenstelling tot Kaland et al. (2008), zij vonden wel aanwijzingen

voor een verhoogde persevererende reactie, maar de resultaten werden niet significant bevonden. Al eerder werden deze defecten in cognitieve flexibiliteit niet gevonden bij individuen met een autisme spectrum stoornis (Minshew, Goldstein, Muenz & Payton, 1992; Minshew, Goldstein & Siegel, 1997).

Slechtere prestaties op de WCST worden over het algemeen toegeschreven aan problemen met de cognitieve flexibiliteit. Alleen kunnen perservererende reacties ook andere defecten in vaardigheden representeren, niet alleen defecten van de cognitieve flexibiliteit. Het goed doorlopen van de WCST vereist dat een individu huidig gedrag kan stoppen; regels en doelstellingen van de taak actief kan houden en herinneren; en kan veranderen van strategie om de kaartjes op een nieuwe manier te sorteren. Deze componenten corresponderen met de executieve functies van inhibitie, werkgeheugen en cognitieve flexibiliteit (Hill, 2004; Kleinmans, Akshoomoff & Delis, 2005; Russo et al., 2007). Dit maakt de WCST niet specifiek genoeg om de onderliggende cognitieve processen te onderscheiden. Het zou kunnen zijn dat individuen met een autisme spectrum stoornis slechter scoren op een test zoals de WCST door andere defecte executieve functies en niet door een disfunctionele cognitieve flexibiliteit (Kleinmans et al., 2005).

### *Cognitieve flexibiliteit*

Cognitieve flexibiliteit heeft nog geen vaststaande definitie. Sanders et al. (2008) omschrijven cognitieve flexibiliteit als de capaciteit om te wisselen tussen verschillende gedachten of acties wanneer de omstandigheden dat nodig maken. Volgens Huizinga (2007) is cognitieve flexibiliteit het vermogen snel en accuraat te wisselen tussen het uitvoeren van twee (of meer) verschillende taken. In het huidige onderzoek wordt de definitie van Huizinga (2007) gehanteerd vanwege het brede karakter van de omschrijving.

Over cognitieve flexibiliteit bij volwassenen is veel bekend, maar bij kinderen is dit niet het geval (Huizinga, 2007). Smidts (2003) toont in een onderzoek aan dat de ontwikkeling van mentale flexibiliteit voornamelijk na het zesde levensjaar plaats vindt. Kinderen vertonen met name leeftijdsgerelateerde taakverbeteringen tussen het zesde en tiende levensjaar (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 tussen het zesde en tiende levensjaar van een kind, waarna deze ontwikkeling over het algemeen gelijk zal blijven.

Bij zowel kinderen als volwassenen met een autisme spectrum stoornis is door meerdere onderzoeken aangetoond dat er beperkingen aanwezig zijn in de cognitieve



flexibiliteit (Hill, 2004; Pennington & Ozonoff, 1996; Russo et al., 2007). Een defect in de cognitieve flexibiliteit kan bij kinderen en jongeren met autisme worden gezien in de dagelijkse weerstand tegen veranderingen en de moeilijkheid om te wisselen tussen activiteiten. Kinderen met autisme ervaren vaak emotionele stress wanneer vaste routines worden veranderd, zoals de persoon die ze ophaalt van school of hun schoolrooster (Russo et al., 2007).

Er zijn echter ook studies waarin tegenstrijdige bevindingen naar voren komen rondom een disfunctie in cognitieve flexibiliteit. Zo vergeleken Goldberg en collega's (2005) kinderen met ADHD en ASS met een gezonde controlegroep. Er werden geen significante afwijkingen gevonden bij kinderen met autisme op de cognitieve flexibiliteitstaken. Geurts, Corbett en Solomon (2009) concluderen dat er geen consistent bewijs wordt gevonden voor beperkingen in cognitieve flexibiliteit bij personen met verschillende subtypen van autisme.

De al eerder beschreven WCST blijkt niet specifiek genoeg te zijn om enkel cognitieve flexibiliteit te meten (Kleinhans et al., 2005). Er bestaan voor dit instrument alternatieve testen waaronder een subtest van de Delis-Kaplan Executive Function Systems (D-KEFS; Delis, Kaplan & Kramer, 2001) en de Amsterdamse Neuropsychologische Taken (ANT), de 'Shifting Attentional Set - Visual' (SSV).

De D-KEFS taken lijken op vaakgebruikte neuropsychologische taken in de klinische praktijk die sensitief zijn voor executieve disfuncties: een Stroop taak, 'Trail Making Test', 'Verbal Fluency Test' en 'Design Fluency Test'. De D-KEFS taken bevatten nieuwe procedures die zijn ontworpen om de sensitiviteit voor executieve functies te verhogen. Er zijn bijvoorbeeld nieuwe condities toegevoegd waarbij een persoon moet switchen, bij de 'Color Word Interference Test' (een Stroop taak), 'Verbal Fluency Test' en de 'Design Fluency Test' (Kleinhans et al., 2005). Een specifieke subtest uit de D-KEFS batterij, de 'Color Word Interference Test', is een aanpassing van een veel gebruikte neuropsychologische test die wereldwijd gezien wordt als sensitief voor het vaststellen van executieve functies, de Stroop taak. De Color Word Interference Test is een complexe visuele taak waarbij een persoon verbaal moet antwoorden. Hij/zij moet hiervoor beschikken over een intacte cognitieve flexibiliteit (Delis et al., 2001). Kleinhans et al. (2005) deden al eerder onderzoek met onder andere de Color Word Interference Test. In deze studie werd gebruikt gemaakt van een relatief kleine steekproef, bestaande uit 12 mannen waarvan zes aan de criteria van een autistische stoornis voldeden en de andere zes hadden de diagnose stoornis van Asperger. Kleinhans en collega's (2005) maakten geen gebruik van een controlegroep, wat een vergelijking met normaal ontwikkelende personen onmogelijk maakt.

De SSV van de ANT is een visuele computertaak waarbij een persoon non-verbaal moet antwoorden doormiddel van het indrukken van de muisknoppen. Om deze taak goed te kunnen doorlopen is cognitieve flexibiliteit vereist. De SSV werd onder andere gebruikt in een onderzoek naar inhibitie en cognitieve flexibiliteit bij kinderen met en zonder ADHD (Rommelse et al., 2007).

### ***Huidig onderzoek***

Uit verschillende onderzoeken komt naar voren dat personen met ASS tekorten laten zien in executief functioneren (Happé et al., 2006; Hill, 2004; Kaland et al., 2008; Lopez et al., 2005; Sanders et al., 2008; Smidts, 2003). Wanneer gekeken wordt naar defecten in cognitieve flexibiliteit blijken er tegenstrijdige bevindingen te bestaan. Bij meerdere studies werd er een verminderde cognitieve flexibiliteit gevonden bij personen met autisme (Hill, 2004; Pennington & Ozonoff, 1996; Russo et al., 2007), maar bij andere onderzoeken bleken deze er niet te zijn (Geurts et al., 2009; Goldberg et al., 2005).

In de huidige studie wordt onderzocht of kinderen en jong volwassenen inderdaad lager scoren op cognitieve flexibiliteitstaken vergeleken met een controlegroep in dezelfde leeftijdscategorie. Tevens worden de ouders van de kinderen en jong volwassenen met ASS vergeleken met een normgroep vanuit de handleidingen. Op basis van voorgaande resultaten zijn er drie vraagstellingen opgesteld.

De eerste vraagstelling die centraal staat binnen dit onderzoek is ‘Bestaan er verschillen tussen kinderen/ jong volwassenen met en zonder een autisme spectrum stoornis met betrekking tot cognitieve flexibiliteit?’. De bijbehorende onderzoeksvraag luidt: ‘Bestaan er verschillen met betrekking tot mate van cognitieve flexibiliteit tussen kinderen/jong volwassenen met een autisme spectrum stoornis, in vergelijking met de controlegroep, gemeten met de D-KEFS Color Word Interference Test en de ANT – SSV?’. Op basis van verschillende onderzoeken wordt verwacht dat kinderen en jong volwassenen met een autisme spectrum stoornis significant lagere scores behalen met betrekking tot cognitieve flexibiliteit dan de controlegroep. Ook wordt verwacht dat de kinderen en jong volwassenen met ASS meer fouten zullen maken op beide taken (Hughes et al., 1997; Hughes et al., 1999; Kleinhans et al., 2005; Wong et al., 2006). De D-KEFS Color Word Interference Test en de SSV taak van de ANT worden beide gebruikt om cognitieve flexibiliteit te meten, maar apart van elkaar beoordeeld.

De tweede vraagstelling is: ‘Is cognitieve flexibiliteit erfelijk en vinden we dat ook terug (in mildere vorm) bij ouders van kinderen met een autisme spectrum stoornis?’. De

bijbehorende onderzoeksvraag luidt: ‘Bestaan er verschillen met betrekking tot mate van cognitieve flexibiliteit tussen ouders van kinderen met een autisme spectrum stoornis, in vergelijking met de normgroep (ouders van kinderen zonder ASS), gemeten met de D-KEFS Color Word Interference Test en de ANT-SSV?’. Op basis van meerdere studies wordt verwacht dat de ASS oudergroep significant lager zal scoren op beide taken (Hughes et al., 1997; Hughes et al., 1999; Wong et al., 2006).

Tot slot is er een derde vraagstelling: ‘Correleren de prestaties op de D-KEFS Color Word Interference Test en de ANT-SSV?’. De bijbehorende onderzoeksvraag is: ‘Wat is de correlatie tussen de prestaties van de D-KEFS Color Word Interference Test en de ANT-SSV?’. Het is belangrijk om te weten of deze visuele taken hetzelfde aspect van cognitieve flexibiliteit lijken te meten. De Color Word Interference Test is een verbale taak, waarbij een proefpersoon alle antwoorden hardop moet zeggen. De SSV daarentegen is een non-verbale taak waarbij antwoord door een klik op de muis wordt gegeven. Om te bekijken of een verbale dan wel non-verbale respons verschil maakt om cognitieve flexibiliteit te meten wordt de correlatie tussen deze taken bepaald. Er wordt een hoge correlatie (.50 of hoger) verwacht tussen de metingen van cognitieve flexibiliteit van de taken.

## ***Method***

### ***Design***

In deze studie werd allereerst een vergelijking gemaakt tussen een experimentele groep en een controlegroep. De experimentele groep bestond uit kinderen en jong volwassenen met een ASS, in de leeftijd van negen tot en met vijftwintig jaar. De controlegroep bestond uit ‘gezonde’ kinderen en jong volwassenen, gematched op leeftijd, IQ en geslacht, zonder ASS of andere psychiatrische of gedragsproblemen. Daarnaast werd een vergelijking gemaakt tussen een oudergroep (de ouders van de kinderen en jong volwassenen met ASS met ten minste één kind met een autisme spectrum stoornis) en de normgroep vanuit de handleidingen van de D-KEFS Color Word Interference Test en de ANT-SSV. Tot slot werd op basis van alle resultaten een correlatie berekend tussen de verschillende cognitieve flexibiliteitstaken.

### ***Werving***

Ouders van kinderen en/of jong volwassenen met een stoornis binnen het autistisch spectrum zijn via het UMCU per brief verzocht mee te doen aan het onderzoek. Om deze participanten te kunnen benaderen voor de experimentele groep, is er een selectie gemaakt uit

een groot databestand van het UMCU van kinderen en jong volwassenen met ASS staan. Deze personen doen reeds mee aan een studie naar erfelijkheid en autisme. Daarna is gekeken of deze kinderen en jong volwassenen aan de inclusiecriteria voldeden. In dit onderzoek zijn de kinderen en jong volwassenen, in de leeftijd van 9 t/m 25 jaar, die op jongere leeftijd in het UMCU op de afdeling Kinder- & Jeugdpsychiatrie zijn gediagnosticeerd met ASS, gesteld volgens de criteria van het de DSM-IV-TR (American Psychiatric Association, 2007), benaderd. Deze diagnose diende vervolgens bevestigd te worden aan de hand van het Autisme Diagnostisch Interview-Revised (ADI-R; Lord, Rutter & LeCouteur, 1994, Nederlandse bewerking: De Jonge & De Bildt, 2007) en het Autisme Diagnostisch Observatie Schema (ADOS; Lord et al., 2000, Nederlandse bewerking: De Bildt & De Jonge, 2008). Onderzoek van Verté, Geurts, Roeyers, Oosterlaan en Sergeant (2006) laat zien dat een onderscheid tussen de verschillende autisme spectrum stoornissen niet nodig is wanneer men kijkt naar het executief functioneren bij ASS. Om deze reden zijn de prestaties van de kinderen en jong volwassenen met verschillende ASS-subtypes als één experimentele groep geïnterpreteerd. Participanten werden uitgesloten van deelname wanneer er sprake was van een belangrijke ziekte van het cardiovasculaire, endocriene, long- of maag/darmstelsel of wanneer er sprake is (geweest) van een neurologische stoornis. Een laatste inclusie criterium was een IQ van ten minste 70.

Door retournering van een antwoordformulier aan het UMCU of middels telefonisch contact met de onderzoekster konden ouders aangeven of zij en hun kinderen en/of jong volwassen kinderen wilden participeren. Indien een gezin mee wilde werken werd telefonisch contact met hen opgenomen en werd er een afspraak gemaakt. De controlegroep werd geworven via een basisschool en een MBO school. Via de scholen werden informatiepakketten en antwoordformulieren uitgedeeld aan de kinderen en studenten. Door retournering van een antwoordformulier aan het UMCU konden de kinderen (via hun ouders) en jongeren aangeven of zij wilden deelnemen aan het onderzoek. Voor de controlegroep waren dezelfde inclusiecriteria van toepassing. Daarnaast werden kinderen en jong volwassenen in de controlegroep niet geïnccludeerd in het onderzoek, wanneer er sprake was van een psychiatrische stoornis of gedragsprobleem, vastgesteld aan de hand van de Child Behavior Checklist (CBCL; Verhulst, Van der Ende & Koot, 1996). Tevens mocht er geen sprake zijn van ASS bij eerstelijns familieleden.

## ***Participanten***

De groep kinderen/jong volwassenen met ASS bestond uit 20 participanten in de leeftijd van 9 t/m 25 jaar ( $M = 15,90$  jaar,  $SD = 5,68$ ) waarbij er 15 jongens en 5 meisjes deelnamen.

Het gemiddelde intelligentieniveau was 104,68 (totaal IQ) met een SD van 18,86. De controlegroep kinderen/jong volwassenen zonder ASS bestond uit 15 respondenten in de leeftijd van 10 t/m 26 jaar ( $M = 14,73$  jaar,  $SD = 5,09$ ) waarbij er 10 jongens en 5 meisjes deelnamen. Het gemiddelde intelligentieniveau van de controlegroep was 108,20 (totaal IQ) met een SD van 12,30. De oudergroep bestond uit 27 respondenten in de leeftijd van 35 t/m 64 jaar ( $M = 45,00$  jaar,  $SD = 7,41$ ) waarbij er 13 vaders en 14 moeders deelnamen. Het gemiddelde intelligentieniveau was 117,40 (totaal IQ) met een SD van 18,03. In tabel 1 zijn deze kenmerken weergegeven.

In het huidige onderzoek behoorden de kinderen en jong volwassenen tot één experimentele groep. Oorspronkelijk was het de bedoeling dat dit twee experimentele groepen zouden worden. Door de kleine steekproef is de keuze gemaakt om deze groepen samen te voegen. In tabel 2 is te zien wat de onderlinge verdeling was tussen kinderen en jong volwassenen in de ASS groep en de controlegroep.

Tabel 1: Leeftijd en totaal IQ (TIQ) van de experimentele groepen en de controlegroep

Variabele		ASS groep			Controlegroep			Oudergroep		
		N	M	SD	N	M	SD	N	M	SD
Leeftijd	M	15	15,00	4,77	10	14,30	4,55	13	46,38	8,07
	V	5	18,60	7,86	5	15,60	6,54	14	43,71	6,78
	Totaal	20	15,90	5,68	15	14,73	5,09	27	45,00	7,41
TIQ	M	15	109,20	18,33	10	110,20	11,22	12	121,58	20,26
	V	4	87,75	9,00	5	104,20	14,69	13	113,54	15,50
	Totaal	19	104,68	18,86	15	108,20	12,30	25	117,40	18,03

Tabel 2: Aantal kinderen en jongvolwassenen in de ASS groep en controlegroep

ASS groep			Controlegroep		
Kinderen <sup>1</sup>	Jong volw. <sup>2</sup>	Totaal	Kinderen <sup>1</sup>	Jong volw. <sup>2</sup>	Totaal
12	8	20	9	6	15

<sup>1</sup>Jonger dan 18 jaar

<sup>2</sup>18 jaar en ouder

## ***Meetinstrumenten***

*Intelligentie.* Intelligentie werd gemeten met behulp van een verkorte versie van de Wechsler Intelligence Scale for Children-III (WISC-III-NL; Kort et al., 2005) bij kinderen en door middel van een verkorte versie van de Wechsler Adult Intelligence Scale (WAIS-III-NL; Wechsler, 2005) bij deelnemers ouder dan 16 jaar. De volgende subtests werden afgenomen: Woordkennis, Overeenkomsten, Blokpatronen en Figuur leggen. De taak duurt ongeveer 45 minuten.

*Cognitieve flexibiliteit.* Om de mate van cognitieve flexibiliteit te kunnen bepalen is er gebruik gemaakt van een visuele, verbale taak van de D-KEFS (Color Word Interference Test) en een visuele, non-verbale taak van de ANT (SSV).

De D-KEFS is een instrument dat wordt gebruikt om de capaciteit van een individu te beoordelen op de gebieden flexibiliteit, abstract redeneren, creativiteit en plannen (Delis et al., 2001). Bij de Color-Word Interference Test werd een vierde conditie ontwikkeld die vergelijkbaar is met de Stroop-test, die zowel verbale inhibitie als cognitief switchen beoogt te meten. De taak is samengesteld uit vier verschillende condities: kleuren benoemen (conditie 1), woorden lezen (conditie 2), inhibitie (conditie 3) en inhibitie/switching (conditie 4), waarbij bij iedere conditie een nieuwe stimuluspagina wordt gepresenteerd. De gestandaardiseerde steekproef voor de D-KEFS omvatte 1750 Amerikaanse kinderen en volwassenen, waarvan 1050 personen in de leeftijd van 16 tot en met 89 jaar oud.

Tijdens de eerste twee condities moet een participant zo snel mogelijk kleuren benoemen (conditie 1) en woorden lezen (conditie 2). Bij conditie 3 wordt een pagina met woorden afgebeeld die kleuren aanduiden, maar gedrukt zijn in een incongruente kleur. Een participant moet hierbij de inktkleur zo snel mogelijk benoemen. In de laatste conditie moet een proefpersoon heen en weer switchen tussen het benoemen van afwijkende inktkleuren en het lezen van de daarmee conflicterende woorden.

In deze studie werd gebruik gemaakt van de voltooiingstijden (reactietijd) voor elke conditie en metingen voor niet-gecorrigeerde en zelfgecorrigeerde fouten. Wanneer een participant meer fouten maakt (en zichzelf hierbij corrigeert) gaat dit ten koste van de reactietijd. Het verschil in reactietijd tussen de condities wordt dan ook gezien als indicator van cognitieve flexibiliteit. Binnen deze test wordt een normscore van 10 als gemiddeld beschouwd met een standaarddeviatie van drie. Volgens de normen van Delis et al. (2001) duidde de test-hertestcorrelatie op een gemiddeld tot hoge betrouwbaarheid. De taak duurt ongeveer 15 minuten.

De Amsterdamse Neuropsychologische Taken (ANT; De Sonneville, 1989) zijn ontwikkeld voor een gestandaardiseerde en systematische evaluatie van de basale processen die ten grondslag liggen aan de uitvoering van complexe cognitieve processen, dat wil zeggen, aandacht, geheugen en executieve functies. Domeinen van onderzoek zijn gerichte, verdeelde en volgehouden aandacht, werkgeheugenprocessen, executieve en psychomotorische functies, gezichts- en emotieherkenning en hoofdrekenen. De taak is geschikt voor kinderen vanaf vijf jaar en is genormeerd voor de leeftijd van vijf tot 64 jaar. De 'Shifting Attentional Set Visual' (SSV) is een visuele taak met drie condities en is gericht op de inhibitie van eerder uitgevoerde responsen en set shifting (flexibiliteit).

De participanten krijgen een balk te zien op een laptop met hierin een gekleurd blokje. Dit blokje springt willekeurig naar links of naar rechts. In de eerste conditie krijgt een participant een groen blokje te zien en dient hij/zij aan te geven of het blokje naar links of naar rechts springt door te drukken op de linker- of rechtermuisknop. In de tweede conditie is er een rood blokje te zien waarbij de participant het tegenovergestelde moet doen: wanneer het blokje naar links springt, dient de persoon op de rechter muisknop te drukken; wanneer het blokje naar rechts springt, drukt men op de linker muisknop. In de derde conditie worden de taken uit de twee eerste condities gecombineerd.

De prestatie van een proefpersoon wordt uitgedrukt in z-scores waarbij negatieve z-scores een betere prestatie impliceren. De taak duurt ongeveer 10 tot 15 minuten.

## **Analyse**

### *1. Verschil in cognitieve flexibiliteit: ASS groep en controlegroep*

Voor zowel de Color Word Interference Test als de SSV werd een 'general linear model' met een herhaalde meting gebruikt om de cognitieve flexibiliteit van de ASS groep te vergelijken met de controlegroep. De groepen werden onderling vergeleken door de variabele 'groep' mee te nemen als 'between-subjects factor'. Cognitieve flexibiliteit werd met de Color Word Interference Test gemeten door de ruwe score van conditie 4 (zowel reactietijd als fouten) te vergelijken, waarbij werd gecontroleerd voor de score van de eerste en tweede conditie (conditie 1 + conditie 2 / 2). Bij de SSV werden ruwe scores van reactietijd en fouten van conditie 3 vergeleken, waarbij werd gecontroleerd voor de gemiddelde scores van de eerste en tweede conditie (conditie 1 + conditie 2 / 2). De variabele 'leeftijd' werd meegenomen als covariabele. Er werd geanalyseerd met een alfa van 5%.

## *2. Verschil in cognitieve flexibiliteit: oudergroep en normgroep*

Voor de oudergroep was er geen controlegroep en de groep is om deze reden vergeleken met normgegevens vanuit de handleidingen van beide taken. Het verschil tussen de normscores van conditie 4 van de Color Word Interference Test werd vergeleken, waarbij werd gecontroleerd voor conditie 1 en 2 (conditie 1 + conditie 2 / 2). Cognitieve flexibiliteit werd met de SSV gemeten door de z-scores (nauwkeurigheid) van conditie 3 te vergelijken, waarbij werd gecontroleerd voor de scores van de eerste en tweede conditie (conditie 1 + conditie 2 / 2). Er werd geanalyseerd met een alfa van 5%.

## *3. Correlatie tussen de D-KEFS Color Word Interference Test en ANT – SSV*

Voordat deze correlatie kon worden uitgevoerd moesten de reactietijdscores van de Color Word Interference Test worden omgezet naar z-scores. Om cognitieve flexibiliteit te meten zonder de invloed van kleuren benoemen en woorden lezen, is er een contrastscore berekend om de cognitieve flexibiliteit te bepalen (conditie 4 – [conditie 1 + conditie 2 / 2]). Om cognitieve flexibiliteit met de SSV te meten zonder invloed van de eerste twee condities, is er een contrastscore berekend om de cognitieve flexibiliteit te bepalen (met z-scores; conditie 3 – [conditie 1 + conditie 2/2]) van de fouten. Er is gekozen om juist naar de correlatie tussen de reactietijden van de Color Word Interference Test en de fouten van de SSV te kijken omdat dit de beste indicatoren voor cognitieve flexibiliteit zijn. Wanneer een participant meer fouten maakt op de Color Word Interference Test (en zichzelf hierbij corrigeert) gaat dit ten koste van de reactietijd. Wanneer een participant meer fouten maakt op de SSV gaat dit niet ten koste van de reactietijd. De reactietijd is in die zin minder interessant, omdat de snelheid niet wordt beïnvloed door het maken van fouten.

## ***Procedure***

Aan beide ouders en het kind (kinderen) en/of jong volwassene met ASS is gevraagd om naar het UMCU te komen. Een paar keer is dit niet mogelijk geweest voor het gezin en hebben er huisbezoeken plaatsgevonden. Er is aan zowel de kinderen/jong volwassene, als aan de ouders, gevraagd om een aantal neuropsychologische taken uit te voeren. Iedere deelnemer is individueel getest in een rustige ruimte. De neuropsychologische taken duurden gezamenlijk ongeveer twee uur. Er werd tussendoor gepauzeerd.



## **Resultaten**

### **Beschrijvende statistiek**

Om inzicht te krijgen in de participanten per taak per groep, zijn in tabel 3 de aantallen per taak af te lezen. Tevens is de verdeling van geslacht van de groepen weergegeven. Bij de SSV was er sprake van één missing in de ASS groep en één missing in de controlegroep. Verder kon een moeder de SSV niet voltooien door een handicap aan haar hand. Bovendien was er sprake van één outlier ( $SD = 4,7$ ) in de oudergroep. Deze persoon is om die reden uit de onderzoekspopulatie gehaald.

Tabel 3: Aantal deelgenomen participanten per taak per groep

<b>Instrument</b>		<b>ASS groep</b>	<b>Controlegroep</b>	<b>Oudergroep</b>
		<b>N</b>	<b>N</b>	<b>N</b>
Color Word <sup>1</sup>	M	15	10	13
	V	5	5	14
	Totaal	20	15	27
SSV	M	14	10	12
	V	5	4	13
	Totaal	19	14	25

<sup>1</sup>Color Word Interference Test

### **Controlevariabelen**

Uit de analyse van geslacht bleek geen significante relatie te bestaan tussen geslacht in de ASS groep en de controlegroep ( $\chi^2 = (1, N = 35) = 0.292, p = .589$ ). De variabele geslacht is toch meegenomen als between subjects factor zodat er ook naar verschillen tussen mannen en vrouwen kon worden gekeken. Wat betreft leeftijd bleek er geen significant verschil te bestaan in gemiddelde leeftijd in de ASS groep en de controlegroep ( $t = .63, df = 33, p = .27$ ). De variabele leeftijd is toch meegenomen als controlevariabele vanwege de spreiding in leeftijd in zowel de ASS groep als de controlegroep. Tot slot is er gekeken of er een verschil bestond tussen het totale IQ (TIQ) van de ASS groep en de controlegroep. Er bleek geen significant verschil te bestaan ( $t = -.62, df = 32, p = .27$ ) en is om deze reden niet meegenomen als controlevariabele.

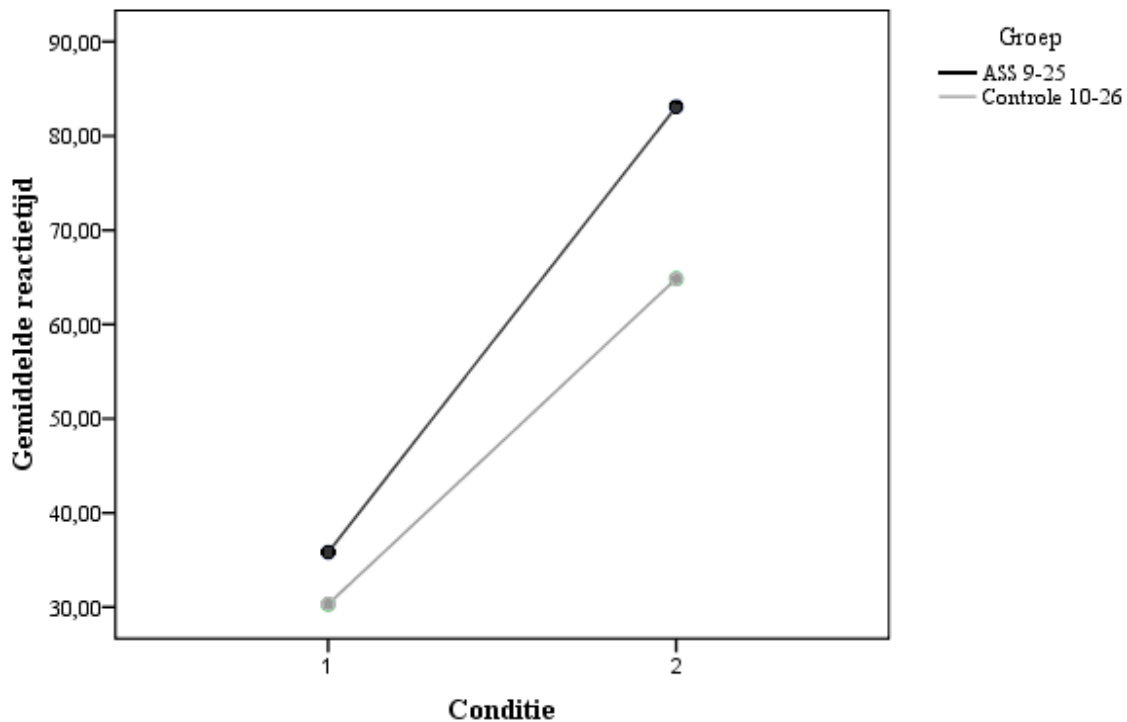
Voor de oudergroep konden de controlevariabelen niet gecontroleerd worden in verband met de afwezigheid van een controlegroep ouders.

### **Resultaten met betrekking tot de onderzoeksvragen**

#### ***Verskil cognitieve flexibiliteit ASS-groep en controlegroep (CWIT, reactietijd)***

Wanneer de groepen met elkaar werden vergeleken bleek er een significant interactie-effect tussen groep en conditie te bestaan,  $F(1,30) = 7.468, p = .010$ , partial  $\eta^2 = .199$ . Het

verschil in reactietijd tussen de inhibitie/switching conditie (conditie 4) en de baseline condities (conditie 1 en 2) is groter voor de ASS groep dan voor de controlegroep. Hieruit blijkt dat de kinderen/jong volwassenen met een autisme spectrum stoornis significant trager zijn dan de controlegroep op de cognitieve flexibiliteitstaak (zie figuur 1).



Figuur 1. Cognitieve flexibiliteit gemeten met de Color Word Interference Test

#### *Vershil cognitieve flexibiliteit ASS-groep en controlegroep (CWIT, fouten)*

Er bleek geen significant interactie-effect te bestaan tussen groep en conditie wanneer de groepen met elkaar werden vergeleken,  $F(1,30) = 0.289$ ,  $p = .595$ , partial  $\eta^2 = .010$ . Het verschil in aantal fouten tussen de inhibitie/switching conditie en de baseline condities is niet verschillend voor de ASS groep en voor de controlegroep. Hieruit blijkt dat er geen verschil is wat betreft het aantal fouten op de cognitieve flexibiliteitstaak tussen de kinderen/jong volwassenen met een autisme spectrum stoornis en de controlegroep.

#### *Vershil cognitieve flexibiliteit ASS-groep en controlegroep (SSV, reactietijd)*

Wanneer de groepen met elkaar werden vergeleken bleek er geen significant interactie-effect tussen groep en conditie te bestaan,  $F(1,30) = 0.466$ ,  $p = .500$ , partial  $\eta^2 = .015$ . Het verschil in reactietijd tussen de inhibitie/switching conditie (conditie 3) en de

baseline condities (conditie 1 en 2) is niet groter of kleiner voor de ASS groep dan voor de controlegroep. Hieruit blijkt dat de kinderen/jong volwassenen met een autisme spectrum stoornis even snel zijn als de controlegroep op de cognitieve flexibiliteitstaak.

*Vershil cognitieve flexibiliteit ASS-groep en controlegroep (SSV, fouten)*

Er bleek geen significant interactie-effect te bestaan tussen groep en conditie wanneer de groepen met elkaar werden vergeleken,  $F(1,30) = 0.349$ ,  $p = .559$ , partial  $\eta^2 = .011$ . Het verschil in aantal fouten tussen de inhibitie/switching conditie en de baseline condities is niet verschillend voor de ASS groep en voor de controlegroep. Hieruit blijkt dat er geen verschil is wat betreft het aantal fouten op de cognitieve flexibiliteitstaak tussen de kinderen/jong volwassenen met een autisme spectrum stoornis en de controlegroep.

*Vershil cognitieve flexibiliteit oudergroep en normgroep (CWIT)*

Om verschillen te kunnen berekenen tussen de ouders van kinderen met ASS en de normgroep (ouders van kinderen zonder ASS) zijn de gemiddelde normscores (van reactietijd) per conditie bepaald (tabel 4). Het verschil in reactietijd tussen de inhibitie/switching conditie (conditie 4) en de baseline condities (conditie 1 en 2) is groter voor de oudergroep dan voor de normgroep,  $11.56 - (9.44 + 10.22 / 2) = 1.73$  SD verschil. De standaardafwijking van het gemiddelde ( $\sigma_{\bar{x}}$ ) bedraagt  $.58 (= 3 / \sqrt{27})$ . Vergeleken met een gangbaar betrouwbaarheidsinterval van  $- 1.96$  en  $+ 1.96$  blijkt dat de ASS ouders significant trager zijn dan de normgroep op de cognitieve flexibiliteitstaak ( $.58 * 1.96 = 1.14$ ,  $1.73 > 1.14$ ).

Tabel 4: Gemiddelde normscores en standaarddeviaties per conditie van de oudergroep en de normgroep

Conditie	Oudergroep			Normgroep		
	N	M	SD	N	M	SD
1: Kleuren benoemen	27	9.44	2.14	700	10.00	3.00
2: Woorden lezen	27	10.22	2.12	700	10.00	3.00
3: Inhibitie	27	11.44	2.04	700	10.00	3.00
4: Inhibitie/switching	27	11.56	1.95	700	10.00	3.00

*Vershil cognitieve flexibiliteit oudergroep en normgroep (SSV)*

Om verschillen te kunnen berekenen tussen de ouders van kinderen met ASS en de normgroep (ouders van kinderen zonder ASS) is de nauwkeurigheid per conditie bepaald met de z-scores. Conditie 1 en 2 zijn samengenomen omdat deze condities geen cognitieve

flexibiliteit beogen te meten. Conditie 3 beoogt wel cognitieve flexibiliteit te meten (tabel 5). Het verschil in nauwkeurigheid tussen de inhibitie/switching conditie (conditie 3) en de baseline condities (conditie 1 en 2) is niet groter voor de oudergroep dan voor de normgroep,  $-0,16 - 0,19 = 0,35$  SD verschil. De standaardafwijking van het gemiddelde ( $\sigma_{\bar{x}}$ ) bedraagt  $.19$  ( $= 1 / \sqrt{27}$ ). Vergeleken met een gangbaar betrouwbaarheidsinterval van  $- 1.96$  en  $+ 1.96$  blijkt dat de ASS ouders niet meer fouten maken dan de normgroep op de cognitieve flexibiliteitstaak ( $.19 * 1.96 = .38$ ,  $.35 < .38$ ).

Tabel 5: Gemiddelde z-scores en standaarddeviaties van de oudergroep en de normgroep

Conditie	Oudergroep			Normgroep		
	N	M	SD	N	M	SD
Nauwkeurigheid con. 1 en 2	25	0,19	0,88	2988	0,00	1,00
Nauwkeurigheid con. 3	25	-0,16	0,49	2988	0,00	1,00

#### *Correlatie D-KEFS Color Word Interference Test en ANT – SSV*

Om na te gaan of er een samenhang is tussen de prestaties op de Color Word Interference Test en de SSV is er een correlatie berekend. Hiermee kon ook de richting van de samenhang bepaald worden. Er is geen significante correlatie gebleken tussen de Color Word Interference Test en de SSV ( $r = -.034$ ,  $N = 55$ ,  $p = .404$ ).

### **Discussie**

In dit onderzoek is gekeken naar cognitieve flexibiliteit van kinderen en jong volwassenen met een autisme spectrum stoornis en hun ouders in vergelijking met een gematchede controlegroep van kinderen en jong volwassenen en een normgroep van ouders. Er werden twee taken gebruikt die cognitieve flexibiliteit beogen te meten. Er werd een visuele, verbale taak gebruikt, de Color Word Interference Test, waarbij een participant vier condities kreeg aangeboden middels stimuluspagina's. Daarnaast werd een visuele, non-verbale taak gebruikt, de Shifting Attentional Set – Visual. Een participant kreeg op een laptop drie verschillende condities aangeboden.

Kinderen en jong volwassenen met ASS waren significant trager dan de controlegroep op de Color Word Interference Test. Ze bleken echter niet meer fouten te maken. De resultaten van de SSV taak tonen aan dat er geen significant verschil in reactietijd of in nauwkeurigheid (aantal gemaakte fouten) is tussen de ASS groep en de controlegroep.

Om te constateren of cognitieve flexibiliteit erfelijk is en of het wordt teruggevonden (in mildere vorm) bij de ouders van kinderen en jong volwassenen met ASS, zijn deze ouders

vergeleken met de normgroep. De ouders van kinderen en jong volwassenen met ASS waren significant langzamer op de Color Word Interference Test dan de normgroep. Ze waren echter net zo nauwkeurig als de normgroep op de SSV taak.

Ten slotte is bekeken of er sprake is van een correlatie tussen de twee cognitieve flexibiliteitstaken, de Color Word Interference Test en de SSV. Er is geen correlatie gevonden tussen de twee visuele taken, wat betekent dat de resultaten van de taken niet met elkaar samenhangen.

Overeenkomstig de verwachting waren de kinderen en jong volwassenen met ASS significant trager dan de controlegroep op de Color Word Interference Test (Hughes et al., 1997; Hughes et al., 1999; Kleinhans et al., 2005; Wong et al., 2006). Tegen de verwachting in bleken zij niet meer fouten te maken dan de controlegroep. Het verschil in reactietijd tussen de groepen is dan ook niet te verklaren door het aantal fouten, maar kan worden toegeschreven aan cognitieve rigiditeit. Deze bevinding pleit voor een verminderde cognitieve flexibiliteit van kinderen en jong volwassenen met een autisme spectrum stoornis.

Tegenstrijdig aan de verwachting toonden de resultaten van de SSV taak geen significant verschil in reactietijd of in nauwkeurigheid (aantal gemaakte fouten) tussen de kinderen en jong volwassenen met ASS en de controlegroep (Geurts et al., 2009; Goldberg et al., 2005). De antwoorden op deze visuele, non-verbale computertaak moest middels een druk op de muisknop worden gegeven. Het zou kunnen dat er mogelijke invloed van motorische controle in het geding is geweest. Het controleren voor motorische controle kan dit al dan niet bevestigen.

Zoals verwacht waren de ouders van kinderen en jong volwassenen met ASS significant langzamer op de Color Word Interference Test dan de normgroep (Hughes et al., 1997; Hughes et al., 1999; Kleinhans et al., 2005; Wong et al., 2006). Cognitieve flexibiliteit lijkt door deze bevinding een erfelijk component te bevatten. Echter, op de SSV taak waren de ouders van kinderen en jong volwassenen met ASS net zo nauwkeurig als de normgroep. Dit trekt de erfelijke component van cognitieve flexibiliteit in twijfel. Het is echter mogelijk dat de verwachting niet is uitgekomen door een te klein aantal participanten. Daarnaast is er onvoldoende bekend over de betrouwbaarheid van deze taak.

Er werd een hoge correlatie verwacht tussen de twee cognitieve flexibiliteitstaken, de Color Word Interference Test en de SSV. Tegen de verwachting in bleek er geen correlatie te bestaan tussen deze visuele taken. De vierde conditie van de visuele, verbale Color Word Interference Test heeft blijkbaar geen samenhang met de derde conditie van de visuele, non-verbale SSV taak. Een mogelijke oorzaak is dat er bij de Color Word Interference Test

meerdere basale opdrachten moeten worden uitgevoerd, het benoemen van kleuren en het voorlezen van woorden. Bij de SSV hoeft er enkel op de muisknop geklikt te worden. De taken zijn in uitvoering erg verschillend van elkaar en er kunnen met name bij de Color Word Interference Test zaken meespelen als dyslexie en kleurenblindheid. Tevens kan kleurenblindheid bij de SSV van invloed zijn geweest.

Zoals in elk onderzoek zijn ook in het huidige onderzoek enige positieve aspecten en beperkingen aan het licht gekomen waarmee rekening kan worden gehouden in vervolgonderzoek. Het onderzoek is verricht bij 62 participanten, waaronder 20 kinderen en jong volwassenen in de ASS groep, 15 kinderen en jong volwassenen in de controlegroep en 27 ouders in de oudergroep. Er zijn met deze beperkte aantallen al significante verschillen gevonden wat betreft groepsverschillen op een van de cognitieve flexibiliteitstaken (Color Word Interference Test). Een groter aantal participanten per groep zou de al gevonden verklaarde variantie kunnen verhogen. Bovendien zouden meer participanten per groep een goede matching per persoon mogelijk kunnen maken wat betreft leeftijd, sekse en IQ. Waarbij er ook groepsverschillen tussen geslacht gemaakt kunnen worden. Daarnaast zouden de kinderen en jong volwassenen als aparte groepen geanalyseerd kunnen worden. Vanuit recent onderzoek bleek dat er vooral tussen het zesde en tiende levensjaar een snelle ontwikkeling is van de cognitieve flexibiliteit (Russo et al., 2007). Het is dan ook voor vervolgonderzoek interessant om juist kinderen tussen zes en tien jaar apart te bekijken en deze te vergelijken met normaal ontwikkelende kinderen in dezelfde leeftijdscategorie. Zo kan er onderzocht worden of ook kinderen met ASS deze snelle ontwikkeling doormaken of dat de ontwikkeling bij deze kinderen een ander pad bewandeld.

Vanwege de samenvoeging van kinderen en jongvolwassenen bestaat er een gat in leeftijd. Er zijn namelijk geen jongeren in de leeftijd 15, 16 en 17 jaar. Wanneer er jongeren in deze leeftijdscategorie worden toegevoegd zullen er betere uitspraken gedaan kunnen worden over de groep als geheel.

In dit onderzoek is om praktische redenen geen controlegroep verworven voor de oudergroep. Om groepsvergelijkingen te kunnen maken is er in dit onderzoek gebruik gemaakt van de normgegevens van de cognitieve flexibiliteitstaken. Een controlegroep gematched op leeftijd, geslacht en IQ zou een goede toevoeging zijn voor vervolgonderzoek.

Tot slot zou longitudinaal onderzoek een methode zijn om te bekijken of er een verandering in de cognitieve flexibiliteit plaatsvindt wanneer een kind met een autisme spectrum stoornis volwassen wordt. Tevens kan met tussentijdse metingen de ontwikkeling hierin bestudeerd worden.

## ***Literatuurlijst***

- American Psychiatric Association (2007). *Beknopte handleiding bij de diagnostische criteria van de DSM-IV-TR*. Harcourt.
- Bolton, P., Macdonald, H., Pickles, A., & Rios, P. (1994). A case-control family history study of autism. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, *35*, 877-900.
- Brian, J.A., Tipper, S.P., Weaver, B., & Bryson, S.E. (2003). Inhibitory mechanisms in autism spectrum disorders: Typical selective inhibition of location versus facilitated perceptual processing. *Journal of Child Psychology and Psychiatry and Allied Disciplines*, *44*, 552-560.
- 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 behavioral perspectives. *Developmental Psychopathology*, *14*, 581-611.
- Delis, D., Kaplan, E., & Kramer, J. (2001). *Delis-Kaplan executive function system technical manual*. San Antonio, TX: Psychological Corporation.
- Dunn, M., Gomes, H., & Sebastian, M. (1996). Prototypicality of responses of autistic, language disordered, and normal children in a word fluency task. *Child Neuropsychology*, *2*, 99-108.
- 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.
- 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 Sciences*, *8*, 26-32.
- Hughes, C., Leboyer, M., & Bouvard, M. (1997). Executive function in parents of children with autism. *Psychological Medicine*, *27*, 209-220.
- Hughes, C., Plumet, M., & Leboyer, M. (1999). Towards a cognitive phenotype for autism: increased prevalence of executive dysfunction and superior spatial span amongst siblings of children with autism. *Journal Child Psychology and Psychiatry*, *40*, 705-718.
- 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 measures on the computerized version of the Wiscconsin Card Sorting Test. *Journal Autism Development Disorder*, 38, 1161-1165.
- Kleinhans, N., Akshoomoff, N., & Delis, D.C. (2005). Executive functions in autism and asperger's disorder: Flexibility, fluency, and inhibition. *Developmental neuropsychology*, 27, 379-401.
- Kort, W., Schittekatte, M., Dekker, P.H., Verhaeghe, P., Compaan, E.L., Bosmans, M., & Vermeir, G. (2005). *WISC-IIIINL Wechsler Intelligence Scale for Children. David Wechsler. Derde Editie NL. Handleiding en Verantwoording*. Amsterdam: Harcourt Test Publishers. Amsterdam: NIP Dienstencentrum.
- 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.H., Leventhal, B.L., DiLavore, P.C., Pickles, A., & Rutter, M. (2000). The Autism Diagnostic Observation Schedule-Generic: a standard measure of social and communication deficits associated with the spectrum of autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 30, 205-223 (Nederlandse bewerking: De Bildt, A. & De Jonge, M., 2008, Hogrefe).
- Lord, C., Rutter, M., & LeCouteur, A. (1994). Autism Diagnostic Interview-Revised: a revised version of a diagnostic interview for caregivers of individuals with possible pervasive developmental disorders. *Journal of Autism and Dvelopmental Disorders*, 24, 659-685 (Nederlandse bewerking: De Bildt, A. & De Jonge, M., 2007).
- Manjiviona, J., & Prior, M. (1999). Neuropsychological profiles of children with Asperger syndrome and autism. *Autism*, 3, 327-356.
- Minshew, N. J., Goldstein, G., Muenz, L. R., & Payton, L. R. (1992). Neuropsychological functioning in nonmentally retarded autistic individuals. *Journal of Clinical and Experimental Neuropsychology*, 14, 749-761.
- Minshew, N. J., Goldstein, G., & Siegel, D. J. (1997). Neuropsychologic functioning in autism: Profile of a complex information processing disorder. *Journal of the International Neuropsychological Society*, 3, 303-316.
- Ozonoff, S., Strayer, D., McMahon, W.M., & Filloux, F. (1994). Executive function abilities in autism: An information processing approach. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 32, 1015-1031.
- Pennington, B. F., & Ozonoff, S. (1996). Executive functions and developmental



- psychopathologies. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 37, 51–87.
- Rommelse, N.N.J., Altink, M.E., de Sonneville, L.M.J., Buschgens, C.J.M., Buitelaar, J., Oosterlaan, J., & Sergeant, J.A. (2007). Are motor inhibition and cognitive flexibility dead ends in ADHD? *Journal of Abnormal Child Psychology*, 35, 957-967.
- Rumsey, J.M. (1985). Conceptual problem solving ability in highly verbal, nonretarded autistic men. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 15, 23-36.
- 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.
- Sadock, B.J. & Sadock, V.A. (2007). *Kaplan & Sadock's Synopsis of psychiatry*. Behavioral sciences; Clinical psychiatry (10th Edition). Baltimore: Williams & Wilkins.
- 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. *Neuropraxis*, 7, 133-140.
- Verhulst, F.C., Ende, J. van der, & Koot, H.M. (1996). *Handleiding voor de CBCL/4-18*. Rotterdam: Sophia Kinderziekenhuis, Erasmus MC.
- Verté, S., Geurts, H.M., Roeyers, H., Oosterlaan, J., & Sergeant, J.A. (2006). Executive functioning in children with an autism spectrum disorder: can we differentiate within the spectrum? *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 36, 351-372.
- Wechsler, D. (2005). *WAIS-III Nederlandstalige bewerking. Technische handleiding*. Lisse: Harcourt Test Publishers.
- Wechsler, D., Nederlandse bewerking: Kort, W., Schittekatte, M., Dekker, P.H., Verhaeghe, P., Compaan, E.L., & Bosmans, M. (2005). *Wechsler Intelligence Scale for Children Derde Editie NL: Handleiding en Verantwoording*. Londen: Harcourt Test Publishers.
- Wong, D., Maybery, M., Bishop, D.V.M., Maley, A., & Hallmayer, J. (2006). Profiles of executive function in parents and siblings of individuals with autism spectrum disorders. *Genes, Brains and Behavior*, 5, 561-576.