

De executieve functies van kinderen met het syndroom van Down
Masterthesis Pedagogische Wetenschappen
(201600201)



Universiteit Utrecht

Universiteit Utrecht
Master Clinical Child, Family and Education Studies

Naam, initialen: Majda Bazzi, M.
Studentnummer: 6606199
Thesisbegeleider: Helene Vos
Tweede beoordelaar: Lex Wijnroks
Datum: 03-08-2020

Voorwoord

Voor u ligt mijn afstudeeronderzoek die ik heb verricht in het kader van de Master Orthopedagogiek aan de Universiteit van Utrecht. Het onderzoek richt zich op de executieve functies van kinderen met Downsyndroom die ZMLK-onderwijs volgen. Graag neem ik de gelegenheid om alle kinderen die mee hebben gedaan aan het onderzoek te bedanken voor hun deelname. Daarnaast wil ik Helene Vos en Lex Wijnroks bedanken dat ze mij de kans hebben geboden om dit onderzoek te mogen doen en wil ik hen bedanken voor hun geboden begeleiding en feedback gedurende de totstandkoming van dit onderzoek. Ook wil ik hen bedanken voor hun flexibiliteit die ze hebben geboden in hun begeleiding in tijde van de huidige crisis. Tenslotte wil ik mijn familie danken voor de steun die ze mij te allen tijde hebben geboden gedurende de totstandkoming van mijn thesis.

Weert, augustus 2020

Majda Bazzi

Abstract

Background. Little is known about the executive functions (EF) of children with Down syndrome (DS) as only a few studies have examined EF in children with DS.

EF can be described as a set of skills that are necessary to execute higher order cognitive processes. EF are important in everyday life, because they enable a person to organize their behaviour. Furthermore, EF are related to academic performance like reading skills and math skills. The aim of this study was to investigate the EF of children with DS. **Method.** A sample of 135 children participated in this study. The sample consisted of 11 children with DS and 124 toddlers with a comparable mental age. A neuropsychological test battery was administered to examine the EF. Inhibition, selective attention, visuospatial working memory and cognitive flexibility were investigated in this study. **Results.** The results showed that the DS children scored significantly lower on all tasks that measure EF than the toddlers.

Discussion. Children with DS show deficits in their EF. It is important that the EF of children with DS is further investigated in future research using direct measuring instruments. The results of this study ultimately contribute to the current literature regarding the EF of children with DS.

Keywords: executive functions, Down syndrome, inhibition, selective attention, visuospatial working memory, cognitive flexibility

Samenvatting

Achtergrond. Er is weinig bekend over de werking van de executieve functies (EF) van kinderen met Downsyndroom (DS), doordat hier weinig studies naar zijn verricht. EF kunnen worden gedefinieerd als vaardigheden die noodzakelijk zijn voor de uitvoering van hogere cognitieve processen. EF zijn belangrijke vaardigheden in het dagelijks leven, doordat deze een persoon in staat stellen om het gedrag te organiseren. Daarnaast zijn de EF gerelateerd aan schoolprestaties, zoals lees- en rekenvaardigheden. Het doel van dit onderzoek was om de EF van kinderen met DS in kaart te brengen. **Methode.** Aan het onderzoek hebben 135 kinderen meegedaan waarvan 11 participanten met DS en 124 peuters met een vergelijkbare mentale leeftijd. Dataverzameling heeft plaatsgevonden middels de afname van een neuropsychologisch testbatterij, waarbij er taken zijn afgenomen die verschillende EF hebben gemeten. Hiermee zijn de inhibitie, selectieve aandacht, het visuospatieel werkgeheugen en de cognitieve flexibiliteit in kaart gebracht. **Resultaten.** Er werd gevonden dat de kinderen met DS significant lager scoorden op alle taken die de EF meten dan de peuters. **Discussie.**

Concluderend laten kinderen met DS beperkingen zien in hun EF. Vervolgonderzoek middels de afname van directe meetinstrumenten blijft belangrijk om de EF van DS kinderen nauwkeurig in kaart te brengen. Dit onderzoek heeft tenslotte een bijdrage geleverd aan de huidige literatuur omtrent de EF van kinderen met DS.

Kernwoorden: executieve functies, Downsyndroom, inhibitie, selectieve aandacht, visuospatieel werkgeheugen, cognitieve flexibiliteit

De executieve functies van kinderen met het syndroom van Down

Downsyndroom is het meest voorkomend genetisch syndroom dat gepaard gaat met een verstandelijke beperking (Sherman, Allen, Bean & Freeman, 2007). Personen met DS hebben zowel motorisch als cognitief een vertraagde ontwikkeling, specifieke uiterlijke kenmerken en diverse lichamelijke aandoeningen (Trigit, 2015). Uit onderzoek blijkt dat personen met DS beperkingen hebben in hun executieve functies (Daunhauer & Fidler, 2013; Kogan et al., 2009; Lanfranchi et al., 2010; Lee et al., 2011). EF worden gedefinieerd als vaardigheden die noodzakelijk zijn voor de uitvoering van hogere cognitieve processen (Best & Miller, 2010). EF zijn belangrijke vaardigheden in het dagelijks leven. Dit komt doordat deze een persoon in staat stellen om in onbekende en nieuwe situaties het gedrag te organiseren, waardoor gedachten en handelingen doelgericht en efficiënt gereguleerd worden (Huizinga, 2007). Een afwijkende ontwikkeling van de prefrontale cortex heeft mogelijk een link met beperkingen in EF (Ball et al., 2010; Brunamonti et al., 2011; Rigoldi et al., 2009). Hedendaags is er weinig bekend over EF bij DS kinderen, doordat er weinig studies zijn verricht bij deze doelgroep. Zo zijn er nog geen experimentele studies uitgevoerd, maar zijn de EF middels vragenlijsten zoals de BRIEF onderzocht (Daunhauer et al., 2014; Lee et al., 2011; Love et al., 2017). Om meer inzicht te verkrijgen in de EF van DS kinderen, is het belangrijk dat deze worden onderzocht middels de afname van een testbatterij (Daunhauer et al., 2014). Door de EF te onderzoeken middels een testbatterij, kan er worden gekeken naar de directe prestaties op de taken. Dit levert een bijdrage aan de huidige kennis omtrent EF van DS kinderen.

EF spelen een belangrijke rol vanaf de eerste levensjaren en blijven zich ontwikkelen tot aan volwassenheid (Diamond, 1990; Hughes, Ensor, Wilson & Graham, 2010). De kerncomponenten die de basis van de EF vormen zijn; inhibitie, werkgeheugen en cognitieve flexibiliteit (Fiske & Holmboe, 2019; Friedman & Miyake, 2017; Miyake et al., 2000; Miyake & Friedman, 2012). De inhibitie is het vermogen om responsen te onderdrukken. Het werkgeheugen is een capaciteit voor het tijdelijk opslaan en verwerken van informatie. Cognitieve flexibiliteit omvat het vermogen om gedachten en acties aan te passen aan veranderende situaties (Huizinga, 2007). De selectieve aandacht speelt een rol in deze componenten. Zo blijken aandachtsproblemen een voorspeller te zijn voor inhibitie, werkgeheugen en cognitieve flexibiliteit (Friedman et al., 2007). Selectieve aandacht is het vermogen om de aandacht te richten op een doel zonder afgeleid te worden door irrelevante prikkels (Garon et al., 2008).

Verschillende studies hebben aangetoond dat personen met DS beperkingen hebben in inhibitie, cognitieve flexibiliteit (Kogan et al., 2009; Lanfranchi et al., 2010) en werkgeheugen (Daunhauer, et al. 2014; Jarrold, Baddeley & Phillips, 2002).

In een studie van Lanfranchi et al. (2010) werden adolescenten met DS vergeleken op EF met normaalbegaafde kinderen met een vergelijkbare mentale leeftijd. De adolescenten lieten beperkingen zien in hun (verbale) werkgeheugen, planning, inhibitie en cognitieve flexibiliteit. Op alle taken scoorde de DS groep lager met uitzondering van de ‘verbal fluency test’. Bij deze taak moesten personen zoveel mogelijk woorden produceren behorend bij eenzelfde categorie binnen een bepaalde tijd, in tegenstelling tot de verbale werkgeheugentaak die een beroep deed op het onthouden van verbale woorden (Whiteside et al., 2015). De bevinding is opvallend, aangezien de verbale vaardigheden van personen met DS doorgaans zwak ontwikkeld zijn (Lanfranchi et al., 2010).

In een studie waar adolescenten met DS in de kalenderleeftijd van 11 tot 19 jaar werden vergeleken met normaalbegaafde kinderen met een vergelijkbare mentale leeftijd, werden beperkingen gevonden in taken die het verbaal en visueel langetermijngeheugen meten (Pennington et al., 2003). Er werden geen beperkingen gevonden in taken die de inhibitie en het visuospatieel en verbale werkgeheugen meten. Ook in andere diverse studies zijn er geen beperkingen gevonden in het visuospatieel werkgeheugen en de visuospatieële functies van personen met DS (Fidler, 2005; Fidler & Nadel, 2007; Lanfranchi et al., 2004; Purser & Jarrold, 2005). De tegenstrijdige resultaten met betrekking tot de inhibitie en verbale werkgeheugen tussen de studie van Pennington en collega's (2003) en Lanfranchi en collega's (2010) zou verklaard kunnen worden, doordat de groepen adolescenten met DS in beide studies verschilden van mentale leeftijden. Zo hadden de adolescenten in het onderzoek van Pennington et al. (2003) een mentale leeftijd van 4.92 jaar terwijl de adolescenten uit de studie van Lanfranchi et al. (2010) een mentale leeftijd hadden van 5 jaar en 9 maanden. Het is bekend dat de basisvaardigheden die nodig zijn voor het ontstaan van de kerncomponenten van de EF (werkgeheugen, inhibitie, cognitieve flexibiliteit) vroeg aanwezig zijn, waarbij de meeste verbeteringen optreden tussen het derde en zesde levensjaar door de integratie van diverse componenten van de EF. Hierbij worden nieuwe vaardigheden geïntegreerd in bestaande vaardigheden en cognitieve systemen, waardoor een verschil in mentale leeftijd een direct effect kan hebben op de prestaties en de resultaten kan beïnvloeden (Garon et al., 2008).

Verschillende studies concluderen ook beperkingen te hebben geconstateerd op taken die de selectieve aandacht meten. Zo zijn personen met DS in prestaties op taken vergeleken

met personen met het Fragiele X-syndroom, waarbij er is gekeken in hoeverre prestaties op taken correleerden met de mentale en kalenderleeftijd. De DS groep presteerde slechter op de taak die de selectieve aandacht meet, waarbij er mogelijk sprake is van een ontwikkelingstraject die specifiek geldt voor DS (Breckenridge et al., 2013; Cornish et al., 2007; Cornish, Munir, & Cross, 2001).

In een studie van Loveall et al. (2017) werd gevonden dat de cognitieve flexibiliteit als sterke vaardigheid ten opzichte van andere vaardigheden werd geconstateerd binnen het profiel van de EF van de groep twee tot vijfjarige kinderen met DS, terwijl dit binnen het profiel van de groep zes tot achttien jaar als een zwakke vaardigheid werd geconstateerd. In de studie zijn ouders en leerkrachten middels de BRIEF-vragenlijst ondervraagd. Een mogelijke verklaring voor de discrepantie, is dat moeilijkheden in cognitieve flexibiliteit pas duidelijk naar voren komen zodra het kind naar school gaat. Hier worden andere eisen van het kind gesteld dan in de gezinssituatie (Loveall et al, 2017).

Concluderend blijkt dat personen met DS beperkingen hebben in hun EF (Daunhauer & Fidler, 2013; Kogan et al., 2009; Lanfranchi et al., 2010; Lee et al., 2011; Lott & Dierssen, 2010). De doelstelling van dit onderzoek is om de EF van DS kinderen te onderzoeken door middel van taken die de inhibitie, selectieve aandacht, visuospatieel werkgeheugen en cognitieve flexibiliteit meten. De hoofdvraag luidt als volgt: ‘Is er bij kinderen met DS sprake van significante beperkingen in bepaalde vaardigheden van het executief functioneren ten opzichte van peuters met een vergelijkbare mentale leeftijd?’. De verwachting bestaat dat de DS kinderen lager presteren op alle taken die de EF meten, doordat in voorgaande studies beperkingen in de EF zijn geconstateerd (Breckenridge et al., 2013; Daunhauer & Fidler, 2013; Lanfranchi et al., 2010; Lee et al., 2011; Lott & Dierssen, 2010; Rowe, Lavender & Turk, 2006). In vergelijking met de andere taken wordt verwacht dat de DS kinderen beter zullen presteren op de taak die het visuospatieel werkgeheugen meet. Deze verwachting bestaat, doordat er in voorgaande studies geen beperkingen zijn gevonden in het visuospatieel werkgeheugen van personen met DS (Fidler, 2005; Fidler & Nadel, 2007; Lanfranchi et al., 2004; Purser & Jarrold, 2005).

Methode

Participanten

Aan het onderzoek hebben 135 kinderen meegedaan. Het groepje kinderen met DS bestond uit een kleine groep, namelijk 11 kinderen waaronder 8 jongens (72.7%) en 3 meisjes (37.3%). De data van de vergelijkingsgroep is afkomstig van peuters die op voorscholen en

peuterspeelzalen binnen de gemeente Utrecht zitten. Bij de peuters zijn moeilijkheden geconstateerd in de ontwikkeling, taal en/of het gedrag. In de vergelijkingsgroep zaten 124 peuters, waaronder 63 jongens (50.8%) en 61 meisjes (49.2%). In tabel 1 zijn de beschrijvende statistieken van de twee onderzoeksgroepen weergegeven.

Tabel 1.

Beschrijvende statistieken van de DS groep en vergelijkingsgroep

	Downsyndroom (<i>n</i> = 11)	Vergelijkingsgroep (<i>n</i> = 124)
Mentale leeftijden in maanden	22-52*	28-48
Kalenderleeftijden in maanden	85-143	28-48
Geslacht (<i>n</i> [%])		
Jongen	8 (72.7%)	63 (50.8%)
Meisje	3 (37.3%)	61 (49.2%)

*Binnen de DS groep was van één participant de mentale leeftijd onbekend.

Procedure

Voor de werving van DS kinderen hebben studenten van de Universiteit Utrecht cluster drie scholen verspreid over Nederland benaderd. Scholen werden geselecteerd op basis van bestaande contacten van onderzoekers en op willekeur door te zoeken naar scholen in de regio van de onderzoekers. De scholen hebben de ouders van de kinderen geïnformeerd over het doel van het onderzoek door brieven uit te delen. Hierbij hebben zij een informed consent ontvangen, waarin er toestemming werd gevraagd voor deelname van het kind aan het onderzoek. Daarnaast werd vermeld dat deelname aan het onderzoek vrijwillig is en er altijd gestopt kon worden. Iedere student heeft de taken een-op-een afgenomen bij een aantal kinderen. De afnames vonden plaats in een aparte, prikkelarme ruimte op school.

Voor de vergelijkingsgroep heeft er een soortgelijke procedure plaatsgevonden. Zij zijn door de zorgconsulent van de voorschool of peuterspeelzaal aangemeld voor het volgen van een PeuterPlus! traject, waarbij de EF van deze peuters zijn onderzocht. Ouders werden vooraf geïnformeerd over het doel van het onderzoek en hebben toestemming gegeven voor deelname. Persoonsgegevens zijn anoniem verwerkt om de vertrouwelijkheid van gegevens te waarborgen (Neuman, 2014).

Meetinstrumenten

Voor dit onderzoek is een testbatterij afgenomen om de EF van kinderen met DS in kaart te brengen. Dit testbatterij heet 'PeuterPlus!' en is ontworpen door Wijnroks en Idenburg (2011). In het huidige onderzoek zijn er middels de afname van vier taken aspecten van het executief functioneren gemeten. Er is voor deze taken gekozen, omdat uit onderzoek blijkt dat personen met DS beperkingen tonen in hun inhibitie, selectieve aandacht en cognitieve flexibiliteit en geen beperkingen laten zien in hun visuospatieel werkgeheugen.

Inhibitie. Om de inhibitie te meten, is de 'Wachttaak' afgenomen. Deze meet zelfcontrole en bestond uit twee items: 'Wachttaak Rozijn' en de 'Wachttaak Cadeau' (Verhagen & Mulder, 2010). Bij het eerste item kreeg het kind een open doosje rozijnen voor zich op tafel gelegd, waarbij hij/zij moest proberen om het voorwerp gedurende één minuut niet aan te raken. Gedurende deze tijd zat de testleider op twee meter afstand schuinrechts achter het kind. De testleider observeerde of het kind in staat was om de impuls te beheersen om het doosje en/of de rozijnen niet aan te raken. Bij het tweede item de 'Wachttaak Cadeau' kreeg het kind een ingepakt cadeau voor zich. Hierbij werd dezelfde procedure doorgelopen, waarbij hij/zij de instructie kreeg om het cadeau gedurende één minuut niet aan te raken. De gedragingen van het kind werden in tijdsintervallen gescoord, waarbij werd gemeten of het kind in staat was om zijn/haar impulsen te beheersen om voorwerpen niet aan te raken. Bij een score van nul was er sprake van een sterke inhibitie, een score van vier gaf een zwakke inhibitie aan.

Selectieve aandacht. Voor het meten van selectieve aandacht is de 'Aandachtstaak' afgenomen (Verhagen & Mulder, 2010). Bij deze taak kreeg het kind op een computerscherm allerlei kleine plaatjes te zien van dieren. Er werden drie soorten dieren getoond, namelijk olifanten, beren en paarden. De bedoeling was dat het kind zo snel mogelijk alle olifanten moest zoeken en aanwijzen. Hierbij spoorde de testleider het kind aan om de olifanten zo snel mogelijk te vinden. In totaal kreeg het kind drie keer een scherm vol met dieren te zien. Er is gemeten in hoeverre het kind de aandacht richt op een specifiek doel zonder afgeleid te worden door irrelevante prikkels. Prestatie op de taak werd gescoord door het aantal gevonden olifanten bij elkaar te tellen. Zo werd de selectieve aandacht bij een score van 17 als 'goed' benoemd en bij een score van 10 als 'zwak'. Uit onderzoek blijkt dat de 'Aandachtstaak' betrouwbaar is ($\alpha = .86$) en positief samenhangt met de 'Six Boxes Task' ($r = .18$; Mulder, Hoofs, Verhagen, Veen, & Leseman, 2014).

Visuospatieel werkgeheugen. Voor het meten van het visuospatieel werkgeheugen is er een taak afgenomen die gebaseerd is op de 'Six Boxes Task' van Diamond, Prevor,

Callender en Druin (1997). Er werd gebruik gemaakt van zes verschillende dierenfiguren. Deze werden door de testleider in zes verschillende bakjes verstopt, waarna er op ieder bakje een deksel werd geplaatst. Er werd hierna aan het kind gevraagd om de dierenfiguren te zoeken, waarna hij/zij telkens één bakje mocht openen. Alvorens iedere zoekpoging werd het kind gedurende zes seconden afgeleid. Hiermee werd gemeten in hoeverre het kind visuele informatie kon vasthouden in het werkgeheugen om vervolgens een taak te volbrengen. De totaalscore werd bepaald door het aantal gevonden dierenfiguren op te tellen (minimale score 0, maximaal 6). De uitdaging lag in het onthouden in welke bakjes dierenfiguren verstopt waren en welke leeg waren, waardoor deze taak een beroep doet op de visuospatieële functies (Mulder et al., 2014). Uit onderzoek blijkt dat de 'Six Boxes' taak valide is, $r = .18$ (Mulder et al., 2014). Ook de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid is goed gebleken ($\alpha > .90$; Diamond et al., 1997).

Cognitieve flexibiliteit. Om de cognitieve flexibiliteit te meten, is de 'Reverse Categorisation Taak' afgenomen (Carlson et al., 2004). Bij deze taak legde de testleider verschillende vormen houten blokjes op tafel voor het kind. Het kind moest deze blokjes volgens de instructie sorteren in een groot of klein bakje. Deze taak meet in hoeverre het kind meegaat in veranderingen van de regels. Een voorbeeld van een veranderende regel is dat het kind de grote blokjes in plaats van de kleine blokjes in het kleine bakje moest doen. In het tweede deel van de taak lag de moeilijkheidsgraad hoger, doordat het kind nieuwe blokjes kreeg aangeboden die verschilden qua vorm en kleur. Hierbij moest het kind blijven sorteren op grootte van de blokjes, waarbij hij/zij andere dimensies moest negeren. De totaalscore werd berekend door het aantal correct gesorteerde blokjes bij elkaar op te tellen (minimale score 0, maximaal 18). Uit onderzoek blijkt dat de 'Reverse Categorisation Task' betrouwbaar en valide is (Beck, Schaefer, Pang, & Carlson, 2011; Carlson, 2005; Carlson et al., 2004).

Analyseplan

In dit onderzoek waren de onafhankelijke variabelen kinderen met DS (nominaal) en peuters met een vergelijkbare mentale leeftijd (nominaal). De afhankelijke variabelen waren de executieve functies (inhibitie, selectieve aandacht, visuospatieel werkgeheugen en cognitieve flexibiliteit). De executieve functies werden uitgedrukt in (totaal)scores (interval/ratio). Voor de analyse zou er gebruik worden gemaakt van de onafhankelijke t-toets. Vooraf werd gecontroleerd of er aan de assumpties werd voldaan voor het uitvoeren van de toets (onafhankelijke waarnemingen, normaalverdeling, homogene variantie). Er werd voldaan aan de aanname van onafhankelijkheid, doordat observaties van participanten onafhankelijk van elkaar gebeurd zijn. Voor de normaalverdeling is er gecontroleerd op

scheefheid van de variabelen middels Skewness en Kurtosis. De waardes van Skewness lagen allen boven de -1 en 1. Bij Kurtosis lagen alle waardes boven de 1. Hieruit bleken afwijkingen in de normaalverdeling van alle EF taken. Uit de Levene's test bleek dat de homogeniteit van varianties voor drie van de vier EF taken geschonden was, namelijk voor inhibitie ($p = .019$), selectieve aandacht ($p < .001$) en cognitieve flexibiliteit ($p < .001$). Doordat deze assumpties geschonden waren, werd er geen t-toets afgenomen. In plaats hiervan werd de non-parametrische Mann-Whitney U toets afgenomen. Deze is geschikt wanneer de assumpties voor het uitvoeren van een t-toets geschonden zijn (Field, 2018). Verder is er gecontroleerd op de aanwezigheid van uitbijters. In de vergelijkingsgroep werden scores die drie of vier standaarddeviaties boven het gemiddelde lagen eruit gefilterd. In totaal werden zeven scores eruit gefilterd. Doordat de DS groep relatief laag heeft gescoord, bemoeilijkte dit het proces van het identificeren van uitbijters. Hierdoor werd gekozen om scores manueel te verwijderen op taken waar de kinderen niet betrokken waren en/of de instructie van de taak niet begrepen. Hier werden in totaal twaalf scores uit de data gefilterd.

Resultaten

Prestaties op EF taken

De Mann-Whitney U toets is afgenomen om te kijken naar het verschil tussen kinderen met DS en peuters in prestatie op taken die de EF meten. In tabel 2 zijn voor beide groepen de behaalde scores van iedere taak weergegeven.

Tabel 2.

Behaalde scores op de EF taken van kinderen met DS en peuters

EF taken	DS				Peuters			
	Kinderen							
	<i>Mean</i>	<i>n</i>	<i>M</i>	<i>SD</i>	<i>Mean</i>	<i>n</i>	<i>M</i>	<i>SD</i>
	<i>Rank</i>			<i>Rank</i>				
Inhibitie	86.78	9	0.89	0.93	62.82	119	0.29	0.61
Selectieve Aandacht	36.65	10	12.10	6.54	68.95	122	17.16	3.24
Werkgeheugen	32.56	9	4.00	1.00	68.98	123	5.03	.87
Cognitieve flexibiliteit	26.69	8	8.63	7.15	66.00	118	15.20	3.16

Tabel 3.

Resultaten Mann Whitney U analyse van EF taken

	Inhibitie	Selectieve Aandacht	Werkgeheugen	Cognitieve flexibiliteit
U-waarde	335.00	311.50	248.00	177.50
z-waarde	-2.56	-2.58	-2.90	-2.99
p-waarde	.014	.004	.002	.001

Noot. P is eenzijdig.

Uit de analyses bleek dat kinderen met DS een significant hogere score behaalden op de ‘Wachtaak’ dan de vergelijkingsgroep. Dit betekent echter dat de kinderen met DS minder goed presteerden op deze taak, doordat zij vaker een rozijntje, lintje en/of cadeautje hebben aangeraakt dan de vergelijkingsgroep. Dit toont aan dat de DS groep een significant minder mate van zelfcontrole hebben getoond dan de peuters.

Tevens was er een significant verschil op de ‘Aandachtstaak’ tussen de kinderen met DS en de peuters, waarbij de DS kinderen een significant lagere score behaalden dan de vergelijkingsgroep. Dit toont aan dat de kinderen met DS minder selectieve aandacht toonden tijdens de uitvoering van de taak dan de vergelijkingsgroep.

Verder behaalden de kinderen met DS op de ‘Werkgeheugentaak’ ook een lagere score dan de vergelijkingsgroep. Uit de analyse van de Mann Whitney *U* toets bleek dat de behaalde prestaties significant van elkaar verschilden. Dit toont aan dat de kinderen met DS slechter presteerden op de taak die het visuospatieel werkgeheugen meet ten opzichte van de peuters.

Tenslotte is er ook op de ‘Reverse Categorisation Taak’ een significant verschil geconstateerd tussen de twee onderzoeksgroepen, waarbij de DS kinderen lager scoorden dan de vergelijkingsgroep. Dit betekent dat de DS groep tijdens de uitvoering van deze taak een lagere mate van cognitieve flexibiliteit lieten zien dan de peuters.

Naar aanleiding van de resultaten kan er worden geconcludeerd dat er significante verschillen zijn gevonden in behaalde scores op alle taken die de EF meten tussen de twee onderzoeksgroepen. Hierbij scoorden de DS kinderen significant lager op alle taken die de EF meten dan de peuters.

Discussie

In dit onderzoek is getracht de volgende onderzoeksvraag te beantwoorden: Is er bij kinderen met DS sprake van significante beperkingen in bepaalde vaardigheden van het executief

functioneren ten opzichte van peuters met een vergelijkbare mentale leeftijd?'. De EF van kinderen met DS zijn vergeleken met peuters die moeilijkheden vertoonden in hun ontwikkeling, gedrag en/of taal.

Uit de resultaten bleek dat de DS kinderen meer moeite hadden met het remmen van responsen dan de peuters. De resultaten liggen in lijn met voorgaand onderzoek dat aantoonde dat personen met DS beperkingen in hun inhibitie hebben (Daunhauer et al., 2014; Kogan et al., 2009; Lanfranchi et al., 2010). Mogelijk ligt een neurobiologische basis ten grondslag aan deze beperkingen. De prefrontale cortex speelt een belangrijke rol in responsinhibitie, doordat de interacties tussen de prefrontale cortex en subcorticale zenuwcellen de basis vormen voor de controle en remming van het gedrag (Nadel, 2003; Rae et al., 2015). Uit onderzoek blijkt dat personen met DS een abnormale ontwikkeling van de prefrontale cortex laten zien. Dit kan een mogelijke verklaring zijn waarom de DS kinderen moeite hadden met het onderdrukken van hun responsen (Zelazo & Müller, 2011).

Daarnaast behaalde de DS groep significant lagere scores dan de peuters op de 'Aandachtstaak'. Dit sluit aan bij de bevindingen uit de literatuur waaruit eveneens bleek dat kinderen met DS beperkingen hebben in hun selectieve aandacht (Breckenridge et al., 2013; Cornish et al., 2007; Cornish, Munir, & Cross, 2001). Beperkingen in selectieve aandacht van DS kinderen blijken syndroomspecifiek te zijn, waarbij moeite met selectieve aandacht groeit naarmate het kind ouder wordt (Breckenridge et al., 2013; Cornish et al., 2007). Syndroomspecifiek betekent karakteristiek voor een bepaald syndroom, in dit geval DS. Het blijkt dat peuters met DS geen moeilijkheden laten zien in hun selectieve aandacht, doordat zij presteren naar wat er wordt verwacht gezien hun ontwikkeling. Cornish et al. (2007) vonden dat oudere kinderen met DS slechter presteren op selectieve aandacht vergeleken met kinderen met Fragiele X-syndroom en kinderen met een normaal cognitief functioneren. Deze afwijking kon volgens hen niet worden toegewezen aan de verstandelijke beperking, omdat de afwijkingen die gevonden werden verschilden tussen de groepen. Hierbij werden differentiële effecten gevonden van kalenderleeftijd en mentale leeftijd op de prestaties van de DS en Fragiele X groep. Verschillen in prestaties liepen uiteen over de syndromen, wat indiceerde dat er sprake was van syndroomspecifieke afwijkingen (Cornish et al., 2007).

Op de 'Werkgeheugentaak' behaalden de DS kinderen ook significant lagere scores dan de peuters. De resultaten sluiten niet aan bij diverse studies waar personen met DS geen beperkingen laten zien op visuospatiële (werkgeheugen)taken (Fidler & Nadel, 2007; Fidler et al., 2005; Lanfranchi et al., 2004; Purser & Jarrold, 2005). Dit kan verklaard worden doordat DS regelmatig vergeleken wordt met syndromale vergelijkingsgroepen zoals het Williams

Syndroom, die relatief zwakke visuospatieële functies hebben. Zo vergeleken Yang, Connors en Merrill (2014) het visuospatieel vermogen van personen met DS met hun algemeen cognitief vermogen. Zij vonden dat personen met DS niet beter presteerden dan wat er op basis van hun niveau werd verwacht. Verder blijkt uit studies waarbij personen met DS vergeleken werden met personen met een vergelijkbare mentale leeftijd en een normale cognitieve ontwikkeling dat zij toch slechter presteerden op visuospatieel gebied dan de controlegroep (Duarte et al., 2011; Vicari, Bellucci, & Carlesimo, 2006; Vicari et al., 2004; Yang, Connors, & Merrill, 2014). Als verklaring hiervoor wordt benoemd dat personen met DS mogelijk moeite hebben met het actief onderhouden van spatieële relaties van een afbeelding/figuur. Daarnaast blijken zij moeite te hebben met het terughalen van deze informatie, wat mogelijk het gevolg is van afwijkingen in de mediotemporale cortex en de prefrontale cortex welke diverse geheugenprocessen ondersteunen (Beacher et al., 2010; Carducci et al., 2013; Jacola et al., 2011).

Tenslotte bleek dat de DS groep significant laag scoorde op de ‘Reverse Categorisation Taak’. Dit komt overeen met de bevindingen uit het onderzoek van Loveall et al. (2017) waaruit bleek dat de cognitieve flexibiliteit zich zwak ontwikkelt ten opzichte van de kalenderleeftijd bij kinderen met DS van zes tot achttien jaar. Een mogelijke verklaring hiervoor, is dat er bij de uitvoering van cognitieve flexibiliteit gebruik wordt gemaakt van het verbaal vermogen. Zo werd in de studie van Campbell et al. (2013) een soortgelijke taak als de RCT gebruikt. Hierbij vonden de auteurs dat de verbale ontwikkeling mogelijk een rol in de ontwikkeling van cognitieve flexibiliteit (Campbell et al., 2013). De verbale vaardigheden van kinderen met DS zijn echter zwak ontwikkeld, wat mogelijk verklaart waarom de kinderen laag scoorden op de taak (Baddeley & Jarrold, 2007; Carney, Brown, & Henry, 2013).

Er kan geconcludeerd worden dat er sprake is van significante beperkingen in vaardigheden van het executief functioneren van DS kinderen. Uit eerdere studies bleek eveneens dat kinderen met een verstandelijke beperking een ontwikkelingsachterstand laten zien op alle EF (Alloway & Alloway, 2010; Memisevic & Sinanovic, 2013).

Sterktes en beperkingen onderzoek

Een sterkte van dit onderzoek is dat de EF zijn onderzocht middels de afname van een direct meetinstrument. Tot op heden is er in voorgaande studies bij DS kinderen vooral gebruik gemaakt van indirecte meetinstrumenten, zoals de BRIEF-vragenlijst (Daunhauer et al., 2014; Lee et al., 2011; Loveall et al., 2017). De meerwaarde van het gebruiken van een direct meetinstrument, is dat directe prestaties op taken gemeten worden in tegenstelling tot

indirecte meetinstrumenten. Hierdoor levert dit onderzoek een belangrijke bijdrage aan de literatuur. In dit onderzoek is er ook gebruik gemaakt van een andere vergelijkingsgroep dan in voorgaande studies, namelijk peuters met een ontwikkelingsachterstand zonder bijkomende problematiek. In voorgaande studies werden personen met DS veelal vergeleken met normaal ontwikkelende doelgroepen of doelgroepen met andere syndromale afwijkingen.

Een beperking van het onderzoek is dat het onduidelijk is gebleven in hoeverre de beperkingen die geconstateerd zijn in de EF van DS kinderen volledig aan hun genetische aandoening kunnen worden toegewezen. Zo blijkt dat de inhibitie en cognitieve flexibiliteit niet significant samenhangen met de mate van intelligentie, waardoor het mogelijk is dat lage prestaties op bepaalde taken het gevolg kunnen zijn van genetische aandoeningen zoals DS (Friedman et al., 2006). Doordat de invloed van de verstandelijke beperking niet is uitgesloten, ontstaat de vraag in hoeverre de genetische aandoening van invloed is geweest op de verkregen resultaten. Een tweede beperking was dat de DS groep uit een kleine steekproef bestond. Ook heeft er bij de werving van respondenten geen aselechte steekproef plaatsgevonden. Het trekken van een aselechte steekproef is moeilijk realiseerbaar, gezien de doelgroep moeilijk te bereiken is. Hierdoor dient er rekening te worden gehouden met een beperkte generaliseerbaarheid van het onderzoek, waardoor de resultaten met voorzichtigheid dienen te worden geïnterpreteerd.

Aanbevelingen vervolgonderzoek

Voor vervolgonderzoek wordt aangeraden om DS kinderen te matchen met kinderen met syndromale afwijkingen. Door deze vergelijkingsgroep te gebruiken, kan de invloed van de verstandelijke beperking worden uitgesloten. Hierdoor wordt er in beeld gebracht in hoeverre beperkingen in prestaties het gevolg zijn van DS. Ook wordt er aangeraden om een meetinstrument af te nemen bij een grotere steekproef, zodat dit ten goede komt aan de betrouwbaarheid en generaliseerbaarheid van de onderzoeksresultaten.

Middels de afname van de testbatterij PeuterPlus! zijn meerdere EF van DS kinderen in kaart gebracht. Het blijft echter belangrijk dat er meer onderzoek wordt verricht naar de EF middels de afname van directe meetinstrumenten. Hierbij wordt aangeraden om ook taken af te nemen die andere EF meten, om een completer beeld te vergaren van het executief functioneren. Zo blijkt uit onderzoek dat DS kinderen relatief goed presteren op taken die de volgehouden aandacht meten, dit in tegenstelling tot de taken die de selectieve aandacht meten (Breckenridge et al., 2013). In dit onderzoek werd alleen de selectieve aandacht gemeten, het is hierom waardevol om voor vervolgonderzoek bijvoorbeeld ook de volgehouden aandacht te meten.

Conclusie

Uit onderzoek blijkt dat de ontwikkeling van EF gerelateerd is aan schoolprestaties, zoals lees- en rekenvaardigheden, waarbij latere problemen geminimaliseerd kunnen worden door de inzet van vroegtijdige interventies bij kinderen met zwakke EF (Alloway & Alloway, 2010; St Clair-Thompson & Gathercole, 2006). Het is hierdoor raadzaam om in het onderwijsaanbod van DS kinderen rekening te houden met een laag functioneren op het gebied van EF. Een voorbeeld om kinderen te ondersteunen die moeite hebben met de uitvoering van cognitieve flexibiliteit, kan door een taak in te korten (Dawson & Guare, 2009). Ook kan het behulpzaam zijn wanneer er consistent dezelfde regels worden aangehouden in de uitvoering van (school)opdrachten. Daarnaast kunnen oefeningen worden ingezet om de EF te versterken. Zo kan een kind die moeite heeft met inhibitie, oefenen met het uitstellen van een beloning in een rollenspel met de leerkracht. Er dient per individu te worden afgestemd waar de behoeften qua ondersteuning liggen (Dawson & Guare, 2009).

Geconcludeerd wordt dat er sprake is van significante beperkingen in de EF van kinderen met DS. Vervolgonderzoek middels de afname van directe meetinstrumenten blijft belangrijk om de EF van DS kinderen nauwkeurig in kaart te brengen.

Referenties

- Alloway, T.P., & Alloway, R.G. (2010). Investigating the predictive roles of working memory and IQ in academic attainment. *Journal of Experimental Child Psychology, 106*(1), 20-29. doi: 10.1016/j.jecp.2009.11.003
- Baddeley, A., & Jarrold, C. (2007). Working memory and Down syndrome. *Journal of Intellectual Disability Research 51*(12), 925-931. doi: 10.1111/j.1365-2788.2007.00979.x
- Ball, S.L., Holland, A.J., Watson, P.C., & Huppert, F.A. (2010). Theoretical exploration of the neural bases of behavioural disinhibition, apathy, and executive dysfunction in preclinical Alzheimer's disease in people with Down's syndrome: potential involvement of multiple frontal-subcortical neuronal circuits. *Journal of Intellectual Disability Research, 54*, 320–336.
- Beacher, F.F., Daly, E.E., Simmon, A.A., Prasher, V.V., Morris, R.R., Robinson, C.C., & Murphy, D.M. (2010). Brain anatomy and ageing in non-demented adults with Down's syndrome: An in vivo MRI study. *Psychological Medicine, 40*(4), 611–619. doi:10.1017/S0033291709990985.
- Beck, D.M., Schaefer, C., Pang, K., & Carlson, S.M. (2011). Executive Function in Preschool Children: Test-Retest Reliability. *Journal Cogn Dev., 12*(2), 169–193. doi: 10.1080/15248372.2011.563485
- Best, J.R., & Miller, P.H. (2010). A Developmental Perspective on Executive Function. *Child Dev, 81*(6), 1641-1660. doi: 10.1111/j.1467-8624.2010.01499.x
- Breckenridge, K., Braddick, O., Anker, S., Woodhouse, M., & Atkinson, J. (2013). Attention in Williams syndrome and Down's syndrome: Performance on the new early childhood attention battery. *British Journal of Developmental Psychology, 31*, 257–269. doi: 10.1111/bjdp.12003
- Brunamonti, E., Pani, P., Papazachariadis, O., Onorati, P., Albertini, G., & Ferraina, S. (2011). Cognitive control of movement in Down syndrome. *Research in Developmental Disabilities, 32*, 1792–1977.
- Campbell, C.A., Landry, O., Russo, N., Flores, H., Jacques, S., & Burack, J.A. (2013). Cognitive flexibility among individuals with Down Syndrome: Assessing the influence of verbal and nonverbal abilities. *American Journal on Intellectual and Developmental Disabilities, 118*(3), 193-200. doi:10.1352/1944-7558-118.3.193
- Carducci, F., Onorati, P., Condoluci, C., Di Gennaro, G., Quarato, P., Pierallini, A., &

- Albertini, G. (2013). Whole-brain voxel-based morphometry study of children and adolescents with Down syndrome. *Functional Neurology*, *28*(1), 19–28.
- Carlson, S.M., Mandell, D.J., & Williams, L. (2004). Executive function and theory of mind: Stability and prediction from age 2 to 3. *Developmental Psychology*, *40*, 1105–1122. doi:10.1037/0012-1649.40.6.1105
- Carlson, S. (2005). Developmentally Sensitive Measures of Executive Function in Preschool Children. *Developmental Neuropsychology*, *28*(2), 595–616. doi: 10.1207/s15326942dn2802_3
- Carney, D.P.J., Brown, J.H., & Henry, L.A. (2013). Executive function in Williams and Down syndromes. *Research in Developmental Disabilities*, *34*, 46–55.
- Cornish, K., Munir, F., & Cross, G. (2001). Differential impact of the FMR-1 full mutation on memory and attention functioning: A neuropsychological perspective. *Journal of Cognitive Neuroscience*, *13*, 144–150. doi:10.1162/089892901564126
- Cornish, K., Scerif, G., & Karmiloff-Smith, A. (2007). Tracing syndrome-specific trajectories of attention across the lifespan. *Cortex*, *43*, 672–685. doi:10.1016/S0010-9452(08)70497-0
- Daunhauer, L.A., & Fidler, D.J. (2013). Executive functioning in individuals with Down syndrome. In: *Handbook of Self-Regulatory Processes in Development* (pp 453–472). Psychology Press: New York.
- Daunhauer, L.A., Fidler, D.J., Hahn, L., Will, E., Lee, N.R., & Hepburn, S. (2014). Profiles of everyday executive functioning in young children with Down syndrome. *American Journal on Intellectual and Developmental Disabilities*, *119*, 303–318. doi: 10.1352/1944-7558-119.4.303
- Dawson, P., & Guare, R. (2009). *Slim maar...Help kinderen hun talenten benutten door hun executieve functies te versterken*. Amsterdam: Hogrefe.
- Diamond, A. (1990). The development and neural bases of memory functions as indexed by AB and delayed response tasks in human infants and infant monkeys. *Annals of the New York Academy of Sciences*, *608*, 267–317.
- Diamond, A., Prevor, M.B., Callender, G., & Druin, D.P. (1997). Prefrontal cortex cognitive deficits in children treated early and continuously for PKU. *Monographs of the Society for Research in Child Development*, *62*, 22–66. doi:10.1111/j.15405834.1997.tb02557.x
- Duarte, C.P., Covre, P., Braga, A.C., & Macedo, E.C. de (2011). Visuospatial support for verbal short-term memory in individuals with Down syndrome. *Research in*

- Developmental Disabilities*, 32, 1918–1923. doi:10.1016/j.ridd.2011.03.024
- Fidler, D.J., & Nadel, L. (2007). Education and children with Down syndrome: Neuroscience, development, and intervention. *Mental Retardation and Developmental Disabilities Research Reviews*, 13, 262–271.
- Fidler, D.J., Hepburn, S.L., Mankin, G., & Rogers, S.J. (2005). Praxis skills in young children with Down syndrome, other developmental disabilities, and typically developing children. *The American Journal of Occupational Therapy*, 59, 129–138.
doi: 10.5014/ajot.59.2.129
- Field, A. (2018). *Discovering Statistics Using IBM SPSS Statistics* (5th ed.). London: SAGE Publications.
- Fiske, A., & Holmboe, K. (2019). Neural substrates of early executive function development. *Developmental Review*, 52, 42–62. doi:10.1016/j.dr.2019.100866
- Friedman, N.P., Haberstick, B.C., Wilcutt, E., Miyake, A., Young, S.E., Corley, R.P., & Hewitt, J.K. (2007). Greater attention problems during childhood predict poorer executive functioning in late adolescence. *Psychological Science*, 18, 893–900.
doi:10.1111/j.1467-9280.2007.01997.x
- Friedman, N.P., Miyake, A., Corley, R.P., Young, S.E., DeFries, J.C., & Hewitt, J.K. (2006). Not all executive functions are related to intelligence. *Psychological Science*, 17(2), 172–179.
- Friedman, N.P., & Miyake, A. (2017). Unity and diversity of executive functions: Individual differences as a window on cognitive structure. *Cortex*, 86, 186–204.
doi:10.1016/j.cortex.2016.04.023.
- Garon, N., Bryson, S.E., & Smith, I.M. (2008). Executive function in preschoolers: a review using an integrative framework. *Psychological Bulletin*, 134, 31–60.
- Hughes, C., Ensor, R., Wilson, A., & Graham, A. (2010). Tracking executive function across the transition to school: A latent variable approach. *Developmental Neuropsychology*, 35, 20–36.
- Huizinga, M. (2007). De ontwikkeling van executieve functies tussen de kindertijd en jongvolwassenheid. *Neuropraxis*, 3, 74–82.
- Jacola, L.M., Byars, A.W., Chalfonte-Evans, M., Schmithorst, V.J., Hickey, F., Patterson, B., & Schapiro, M.B. (2011). Functional magnetic resonance imaging of cognitive processing in young adults with Down syndrome. *American Journal on Intellectual and Developmental Disabilities*, 116(5), 344–359. doi:10.1352/1944-7558-116.5.344
- Jarrold, C., Baddeley, A., & Phillips, C.E. (2002). Verbal short-term memory in Down

- syndrome: A problem of memory, audition, or speech? *Journal of Speech, Language and Hearing Research*, 45, 531–544. doi:10.1044/1092-4388.
- Kogan, C.S., Boutet, I., Cornish, K., Graham, G.E., Berry-Kravis, E., & Drouin, A. (2009) A comparative neuropsychological test battery differentiates cognitive signatures of Fragile X and Down syndrome. *Journal of Intellectual Disability Research*, 53, 125–142. doi:10.1111/j.1365-2788.2008.01135.x.
- Lanfranchi, S., Cornoldi, C., & Vianello, R. (2004). Verbal and visuospatial working memory deficits in children with Down syndrome. *American Journal of Mental Retardation*, 109, 456-466.
- Lanfranchi, S., Jerman, O., Dal Pont, E., Alberti, A., & Vianello, R. (2010). Executive function in adolescents with Down Syndrome. *Journal of Intellectual Disability Research*, 54, 308-319.
- Lee, N.R., Fidler, D.J., Blakeley-Smith, A., Daunhauer, L., Robinson, C., & Hepburn, S.L. (2011). Caregiver Report of Executive Functioning in a Population-Based Sample of Young Children With Down Syndrome. *Am J Intellect Dev Disabil.* 116(4), 290–304. doi:10.1352/1944-7558-116.4.290.
- Lott, I.T., & Dierssen, M. (2010). Cognitive deficits and associated neurological complications in individuals with Down’s syndrome. *Lancet Neurology*, 9, 623–633.
- Memisevic, H., & Sinanovic, O. (2013). Executive function in children with intellectual disability – the effects of seks, level and aetiology of intellectual disability. *Journal of Intellectual Disability Research*, 58, 830-837. doi: 10.1111/jir.12098
- Miyake, A., & Friedman, N.P. (2012). The nature and organization of individual differences in executive functions: Four general conclusions. *Current Directions in Psychological Science*, 21(1), 8–14. doi: 10.1177/0963721411429458
- Miyake, A., Friedman, N.P., Emerson, M.J., Witzki, A.H., Howerter A., & Wager, T. (2000). The unity and diversity of executive functions and their contributions to complex “frontal lobe” tasks: a latent variable analysis. *Cognitive Psychology*, 41, 49-100.
- Mulder, H., Hoofs, H., Verhagen, J., Veen, I. van der, & Leseman, P.P.M. (2014). Psychometric properties and convergent and predictive validity of an executive function test battery for two-year-olds. *Frontiers in Psychology*, 5, 733-768. doi: 10.3389/fpsyg.2014.00733
- Nadel, F. (2003). Down’s syndrome: a genetic disorder in biobehavioral perspective. *Genes, Brain and Behavior*, 2, 156–166.

- Neuman, W.L. (2014). *Understanding Research*. Essex: Pearson Education.
- Pennington, B.F., Moon, J., Edgin, J., Stedron, J., & Nadel, L. (2003). The neuropsychology of Down syndrome: evidence for hippocampal dysfunction. *Child development*, 74(1),75-93. doi: 10.1111/1467-8624.00522
- Purser, H.R., & Jarrold, C. (2005). Impaired verbal short-term memory in Down syndrome reflects a capacity limitation rather than atypically rapid forgetting. *Journal of Experimental Child Psychology*, 91, 1-23.
- Rae, C.L., Hughes, L.E., Anderson, M.C., & Rowe, J.B. (2015). The Prefrontal Cortex Achieves Inhibitory Control by Facilitating Subcortical Motor Pathway Connectivity. *Journal of Neuroscience*, 35(2), 786-794. doi: 10.1523/JNEUROSCI.3093-13.2015
- Rigoldi, C., Galli, M., Condoluci, C., Carducci, F., Onorati, P., & Albertini, G. (2009). Gait analysis and cerebral volumes in Down's syndrome. *Functional Neurology*, 24, 147–152.
- Rowe, J., Lavender, A., & Turk, V. (2006). Cognitive executive function in Down's syndrome. *British Journal of Clinical Psychology*, 45, 5-17.
- Sherman, S.L., Allen, E.G., Bean, L.H., & Freeman, S.B. (2007). Epidemiology of Down syndrome. *Mental Retardation and Developmental Disabilities Research Reviews*, 13, 221–227. doi:10.1002/mrdd.20157
- St Clair-Thompson, H.L., & Gathercole, S.E. (2006). Executive functions and achievements in school: Shifting, updating, working memory. *The Quarterly Journal of Experimental Psychology*, 59, 745–759.
- Trigit, M. van (2015). *Zorg voor mensen met een verstandelijke beperking: Inleiding en ziektebeelden*. Houten: Bohn Stafleu van Loghum.
- Vicari, S., Bates, E., Caselli, M.C., Pasqualetti, P., Gagliardi, C., Tonucci, F., & Volterra, V. (2004). Neuropsychological profile of Italians with Williams syndrome: An example of a dissociation between language and cognition? *Journal of the International Neuropsychological Society*, 10, 862–876. doi: 10.1017/S1355617704106073
- Vicari, S., Bellucci, S., & Carlesimo, G.A. (2006). Evidence from two genetic syndromes for the independence of spatial and visual working memory. *Developmental Medicine and Child Neurology*, 48, 126–131. doi:10.1017/S0012162206000272
- Whiteside, D.M., Kealey, T., Semla, M., Luu, H., Rice, L., Basso, M.R., & Roper, B. (2015). Verbal Fluency: language or executive function measure?. *Applied neuropsychology: adult*, 23, 29-34. doi: 10.1080/23279095.2015.100457

Wijnroks, A., & Idenburg, K. (2011). *Neuropsychologische testbatterij Peuterplus!*. Utrecht: Universiteit Utrecht.

Yang, Y., Conners, F., & Merrill, E.C. (2014). Visuo-spatial ability in individuals with Down syndrome: is it really a strength? *Research in Developmental Disabilities, 35*(7), 1473-1500. doi:10.1016/j.ridd.2014.04.002

Zelazo, P.D., & Müller, U. (2011). *Executive function in typical and atypical development*. In U. Goswami (Ed.), *The Wiley-Blackwell handbook of childhood cognitive development* (p. 574–603). Wiley-Blackwell.