

Samenvatting dissertatie Dr. Nienke Peters (N.C. Peters-Scheffer)

Fostering Development in Young Children with Autism Spectrum Disorder and Intellectual Disability: A Center-based Discrete Trial Approach

Dit proefschrift bevat 10 studies met betrekking tot (1) de gedragskenmerken van kinderen met een autisme spectrum stoornis en een verstandelijke beperking (ASS-VB), (2) de effectiviteit van vroegtijdige gedragstherapie, en (3) de voorwaarden voor het aanbieden van vroegtijdige gedragstherapie aan kinderen met ASS-VB. In dit proefschrift wordt beschreven dat kinderen met ASS-VB gedragskenmerken laten zien die hun ontwikkeling negatief kunnen beïnvloeden en dat zonder adequate behandeling hun prognose slecht is. Echter, (laag) intensieve gedragstherapie kan leiden tot een versnelling van hun ontwikkeling en een afname van autistische kenmerken en gedragsproblemen. Daarnaast leidt de toepassing van vroegtijdige gedragstherapie mogelijk tot besparingen op de lange termijn. Voorwaarde hiervoor is dat er behandeling van hoge kwaliteit wordt aangeboden, hetgeen onder andere samen lijkt te hangen met kenmerken van de trainers.

Deel I: Gedragskenmerken van kinderen met ASS-VB

In deel I worden vijf studies beschreven waarin enkele gedragskenmerken van kinderen met ASS-VB onderzocht worden. De eerste twee studies onderzochten bij 100 kinderen met ASS-VB tussen de 2 en 10 jaar oud in hoeverre zij in staat zijn om de intenties van anderen te interpreteren. Tijdens studie 1 dienden de kinderen een tastbaar voorwerp (een stukje koek, snoep of speelgoed) te vinden dat de onderzoeker in één van de twee boxen op tafel verstopte. Tijdens vier trials in de oefenconditie verstopte de onderzoeker het voorwerp binnen het gezichtsveld van de kinderen. Na de oefenconditie volgden acht experimentele trials, waarin de onderzoeker het voorwerp buiten het zicht van het kind verstopte en het kind het voorwerp diende te vinden aan de hand van de non-verbale hulp geboden door de onderzoeker (wijzen in de eerste conditie; blikrichting in tweede conditie). Slechts 56% van de kinderen presteerde boven kansniveau in de oefenconditie (drie of vier van de vier trials correct) en werden in de analyses geïnccludeerd. Ondanks grote individuele verschillen, presteerden de kinderen gemiddeld boven kans in de eerste conditie (wijzen), terwijl zij onder kans presteerden in de tweede conditie (blikrichting). Gebruikmakend van een binomiale test (7 van de 8 trials correct, $p = .03$), presteerde slechts 14% van de kinderen boven kans in beide condities.

In de tweede studie is een aangepaste versie van Meltzoff's *behavioral re-enactment* taak (1995) gebruikt, waarbij de onderzoeker in de experimentele conditie gedrag laat zien dat niet overeenstemt met het doel van de taak. In deze conditie doet de onderzoeker binnen 20 seconden drie mislukte pogingen om het kind het doelgedrag te laten zien. Het kind krijgt hierdoor het uiteindelijke doel van de taak niet te zien. In de controle conditie laat de onderzoeker in ongeveer 20 seconden drie maal het doelgedrag behorend bij de taak zien. In tegenstelling tot kinderen zonder ASS-VB, die in beide condities evenveel doelgedrag laten zien, laten kinderen met ASS-VB meer doelgedrag zien in de controle conditie dan in de experimentele conditie. Aan beide studies namen geen controlegroepen deel, waardoor het prematuur is om conclusies te trekken over het begrip van intenties door kinderen met ASS-VB. Toch lijken studie 1 en 2 te suggereren dat kinderen met ASS-VB moeilijkheden ervaren op deze taken. Daarnaast laten beide studies zien dat een beter begrip van intenties gerelateerd is aan een hogere ontwikkelingsleeftijd en betere prestaties op testen die vroege sociale communicatieve vaardigheden en taal meten.

Naast beperkingen in de sociale interactie en communicatie, ervaren kinderen met ASS problemen met betrekking tot de gedragsflexibiliteit. Om situaties vast te stellen waarin personen met een ontwikkelingsstoornis gedragsinflexibiliteit laten zien, ontwikkelde Green en collega's de Behavioral Flexibility Rating Scale (BFRS). Deze is gereviseerd en in het Nederlands vertaald als de Behavioral Flexibility Rating Scale – revised (BFRS-r). In studie 3 zijn de psychometrische kenmerken van de BFRS-r onderzocht. Zesenzeventig groepsleiders en 56 ouders vulden de BFRS-r in voor 70 kinderen met een ontwikkelingsstoornis. Factoranalyse onthulde drie factoren (flexibiliteit ten aanzien van objecten, flexibiliteit ten aanzien van de omgeving en flexibiliteit ten aanzien van personen). Resultaten

van diverse analyses laten een excellente interne consistentie, een goede intra- en interbeoordelaarsbetrouwbaarheid van de totale schaal en convergente validiteit met de Sameness Questionnaire zien. Deze data suggereren dat de BFRS-r een betrouwbare indicatie van gedragsflexibiliteit geeft wanneer deze wordt ingevuld door groepsleiders en ouders van kinderen met ontwikkelingsstoornissen. In de vierde studie wordt de BFRS-r gebruikt om gedragsflexibiliteit bij 111 kinderen met ASS-VB (84 jongens; 87 autisme; 24 PDD-NOS; IQ range 10.59-72.67) te vergelijken met de resultaten van 65 kinderen met een VB (42 jongens). Ook zijn variabelen gerelateerd aan gedragsflexibiliteit nader geëxploreerd. Resultaten laten zien dat gedragsflexibiliteit bij kinderen met ASS-VB voorspeld wordt door de ernst van ASS, ontwikkelingsleeftijd en het initiëren van sociale interactie. Gedragsflexibiliteit lijkt van invloed te zijn op gedragsproblemen en opvoedingsstress, maar niet op adaptief gedrag.

De opvoedingsbelasting van moeders met een kind met ASS-VB is hoger dan de opvoedingsbelasting van moeders met kinderen met alleen een VB. Aangezien een hoge opvoedingsbelasting van ouders een negatieve invloed heeft op behandeluitkomsten van hun kinderen, is in de vijfde studie onderzocht welke kindvariabelen van invloed zijn op de opvoedingsstress van moeders. Honderdvier moeders met een kind met ASS-VB vulden over een periode van twee jaar halfjaarlijks de verkorte Nijmeegse Opvoedingsstress Index in. Gedurende deze periode bleef de opvoedingsstress stabiel. Er werd geen relatie gevonden tussen opvoedingsstress ervaren door de moeders en de ontwikkelingsleeftijd en het IQ, de receptieve en expressieve taal, adaptief gedrag, ernst en subtype van ASS, gedragsflexibiliteit en vroege sociale communicatieve vaardigheden (joint attention, gedragsverzoeken en sociale initiaties) van het kind. Echter, de gedragsproblemen van het kind voorspelden de opvoedingsstress van de moeders. Emotioneel-reactief gedrag, teruggetrokken gedrag en aandachtsproblemen voorspelden ongeveer een derde van de variantie in opvoedingsstress.

Deel 2: Effectiviteit van vroegtijdige gedragstherapie

In deel II zijn drie studies uitgevoerd om de effectiviteit van vroegtijdige gedragstherapie te onderzoeken. In een meta-analyse (studie 6) zijn elf studies geïnccludeerd waaraan 344 kinderen met ASS deelnamen. Bij de start van de behandeling waren de kinderen gemiddeld tussen 34 en 66 maanden oud en hadden zij een IQ tussen 28 en 77. De behandelgroepen ontvingen gemiddeld 13 uur tot 39 uur vroegtijdige gedragstherapie gedurende tien maanden tot meer dan twee jaar. Controlegroepen ontvingen minder intensieve gedragstherapie (minder dan 10 uur per week), 13-29 uur per week eclectische behandeling, oudergestuurde gedragstherapie of reguliere behandeling. Kwaliteit van de studies werd gemeten met de Downs and Black Checklist. Kinderen uit de behandelgroep lieten meer vooruitgang op IQ, non-verbaal IQ, adaptief gedrag en expressieve en receptieve taal zien dan de controlegroepen. Verschillen tussen de behandel- en controlegroepen lagen tussen de 5-15 punten op gestandaardiseerde testen. Deze resultaten onderbouwen de effectiviteit van vroegtijdige intensieve gedragstherapie.

Aangezien er nauwelijks onderzoek is uitgevoerd naar de effectiviteit van laag intensieve gedragstherapie, hebben we twee longitudinale studies met een pre-test-post-test controlegroep design uitgevoerd om de effectiviteit van laag intensieve gedragstherapie (4-10 uur per week) als aanvulling op het reguliere programma op het kinderdagcentrum of de school te bepalen. Behandeling werd uitgevoerd op kinderdagcentra en scholen, waarbij het accent lag op discrete trial teaching. In studie 7 zijn 12 kinderen uit de behandelgroep vergeleken met 22 kinderen die de reguliere behandeling op een kinderdagcentrum ontvingen. In de voormeting verschilden beide groepen niet met betrekking tot kalenderleeftijd, ontwikkelingsleeftijd, diagnose en niveau van adaptief gedrag. Na acht maanden behandeling, hadden de kinderen in de behandelgroep gemiddeld een significant hogere ontwikkelingsleeftijd en lieten zij een grotere vooruitgang zien op adaptief gedrag dan de kinderen uit de controle groep. Er werden geen significante verschillen gevonden met betrekking tot gedragsproblemen en ernst van autisme.

Gezien de relatief kleine behandelgroep, de beperkte testbatterij, de relatief korte interventieperiode en het gebrek aan data met betrekking tot de integriteit van behandeling, hebben we een tweede studie uitgevoerd waaraan 40 kinderen met ASS-VB deelnamen. Er werden data verzameld met betrekking tot ontwikkelingsleeftijd, adaptief gedrag, interpersoonlijke relaties, spel,

taalontwikkeling, ernst van autisme, vroege sociaal communicatieve vaardigheden, opvoedingsstress, gedragsflexibiliteit en gedragsproblemen. Ook werden gegevens met betrekking tot het behandelprogramma en de procedurele betrouwbaarheid verzameld. De resultaten van deze studie repliceren de resultaten gevonden in studie 7. Na twee jaar behandeling, laten de kinderen uit de behandelgroep meer vooruitgang zien dan de kinderen in de controlegroep op IQ, ontwikkelingsleeftijd, adaptief gedrag, interpersoonlijke relaties, spel en receptieve taal. Ook werd in de behandelgroep een afname in gedragsproblematiek zichtbaar. Er werden echter geen verschillen gevonden tussen de groepen op expressieve taal, gedragsflexibiliteit en opvoedingsstress. De vooruitgang op ontwikkelingsleeftijd, adaptief gedrag, interpersoonlijke relaties, spel, receptieve taal en expressieve taal was voor het merendeel van de kinderen in de behandelgroep klinisch en statistisch significant.

Deel 3: Noodzakelijke voorwaarden voor vroegtijdige gedragstherapie

Door de intensiteit (20-40 uur per week gedurende 3 jaar met een laag kind-staf ratio) zijn de kosten van vroegtijdige gedragstherapie hoog. De behandeling kan echter leiden tot een verbeterd cognitief, adaptief en sociaal functioneren en een afname in autistische kenmerken en gedragsproblemen bij kinderen met ASS. Dit kan er in resulteren dat zij op de lange termijn minder behandeling en professionele zorg nodig hebben, hetgeen de levenslange kosten geassocieerd met ASS kan verminderen. In studie 9 zijn de geschatte kosten voor onderwijs, (begeleid) werken en (begeleid) wonen voor personen met ASS in Nederland toegepast in een kosten-batenmodel. Hieruit blijkt dat het aanbieden van vroegtijdige gedragstherapie (gemiddeld 33 uren per week gedurende twee jaar) kan resulteren in een lange termijnbesparing van ongeveer € 1.103.067 per persoon met ASS. Wanneer deze kosten vertaald worden naar de Nederlandse ASS populatie kunnen kostenbesparingen oplopen van € 109.2 tot € 182 miljard, exclusief de kosten geassocieerd met inflatie. Kortom, de lange termijn besparingen lijken de kosten gerelateerd aan vroegtijdige gedragstherapie (geschat op € 100.000) te overstijgen.

Hoewel vroegtijdige gedragstherapie over het algemeen effectief is, verschillen de behandeluitkomsten binnen en tussen studies. Omdat kwaliteit van behandeling hieraan mogelijk bijdraagt, onderzoekt studie 10 de relatie tussen kenmerken van de trainer en de kwaliteit van de behandeling. De behandeling werd aangeboden op een kinderdagcentrum voor kinderen met een VB en 70 sessies uitgevoerd door 22 trainers bij 35 kinderen werden gefilmd en geanalyseerd. Er werden eveneens data verzameld met betrekking tot de persoonlijkheid van de trainer, de attitude ten opzichte van personen met een beperking en de relatie tussen de trainer en het kind. De procedurele betrouwbaarheid was hoog en significant gerelateerd aan de attitude van de trainer ten opzichte van personen met een beperking, de openheid voor ervaringen en de relatie tussen de trainer en het kind. Trainers met een hoge procedurele betrouwbaarheid hebben op de cognitieve component een positievere attitude ten opzichte van personen met een beperking, op de affectieve component een negatievere attitude ten opzichte van personen met een beperking, staan minder open voor ervaringen en ervaren de relatie tussen de trainer en het kind als minder positief.