

Universiteit Gent
Faculteit Psychologie en Pedagogische Wetenschappen
Academiejaar 2011-2012
Eerste examenperiode

**SOCIAAL-COMMUNICATIEVE ONTWIKKELING BIJ ZUSJES
EN BROERTJES VAN KINDEREN MET AUTISME**

Masterproef neergelegd tot het behalen van de graad van master in de
pedagogische wetenschappen, afstudeerrichting Orthopedagogiek

door

Hannelore Verhamme

Promotor Dr. P. Warreyn

Ondergetekende, Hannelore Verhamme geeft toelating tot het raadplegen van de scriptie door derden.

Handtekening,

ABSTRACT

Uit literatuur blijkt dat broers en zussen (=siblings) van kinderen met autisme een hoger risico hebben om zelf een autismespectrumstoornis (ASS) te ontwikkelen of om een mildere expressie van ASS te vertonen, namelijk het 'breder fenotype van autisme'. Dit onderzoek richt zich op de sociaal-communicatieve ontwikkeling bij de groep van siblings van kinderen met autisme die zelf geen autisme ontwikkelen. Er wordt nagegaan of deze groep tekorten vertoont in joint attention vaardigheden (IJA en RJA) en ontwikkelingsniveau op de MSEL op de leeftijd van 12 maanden in vergelijking met typisch ontwikkelende kinderen. Aangezien joint attention vaardigheden de taalontwikkeling en de uitkomst op de ADOS op latere leeftijd blijken te voorspellen bij siblings van kinderen met autisme die zelf autisme ontwikkelen, wordt er nagegaan of dit verband ook bij siblings van kinderen met autisme die zelf geen autisme ontwikkelen bestaat. Uit de resultaten blijkt dat op 12 maanden geen verschillen werden gevonden met de controlegroep op het gebied van joint attention en ontwikkelingsniveau. Wel behaalden de siblings een hogere score op het domein van visuele perceptie. Het volgen van joint attention (RJA) bleek voorspellend te zijn voor de taalontwikkeling op 18 maanden en de uitkomst van het sociaal domein van de ADOS. Daarnaast bleek het ontwikkelingsniveau en de ontwikkelingsdomeinen receptieve en expressieve taal op 12 maanden voorspellend te zijn voor het taalniveau en de uitkomst op de ADOS op 18 maanden. RJA en de ontwikkelingsleeftijd op 12 maanden blijken dus belangrijke voorspellers te zijn van de latere taalontwikkeling en uitkomst op de ADOS bij siblings van kinderen met autisme die zelf geen autisme ontwikkelen. In de discussie worden enkele kritische bedenkingen geformuleerd naar onderzoek en praktijk toe.

Kernwoorden: Autismespectrumstoornissen, siblings, joint attention.

VOORWOORD

Om deze thesis tot een goed einde te kunnen brengen, heb ik heel wat ondersteuning gehad van verschillende mensen. Via deze weg wil ik hen bedanken voor de vele steun, begeleiding en aanmoedigende gesprekken!

Mijn begeleidster en promotor, Dr. Petra Warreyn, wil ik van harte bedanken voor de feedback en goede ondersteuning, de interessante en leerrijke gesprekken en de vele tips. Na ieder gesprek kon ik weer vol goeie moed en zin verder op weg.

Ook Lieselot Ruyschaert en Mieke Dereu wil ik bedanken voor de ondersteuning bij de afname van onderzoeken en het verzamelen van de data.

Mijn dank gaat uit naar Luc die mijn thesis doornam, goeie doordachte feedback gaf en mij hielp bij het verder opbouwen van mijn thesis. Ook Mieke en Kobe wil ik enorm bedanken voor het nalezen van mijn werk en de hulp bij statistische moeilijkheden.

Daarnaast wil ik mijn vriend Matthias, mijn ouders en vrienden bedanken voor de vele steun, het luisterend oor op de momenten dat het even lastig werd.

Dank je wel allemaal!

Inhoudsopgave

| | | |
|-------|---|----|
| 1 | Inleiding..... | 1 |
| 1.1 | Autismespectrumstoornissen | 1 |
| 1.1.1 | Prevalentie | 2 |
| 1.1.2 | Etiologie..... | 2 |
| 1.2 | Vroege diagnostiek..... | 4 |
| 1.3 | Vroege kenmerken..... | 6 |
| 1.3.1 | Onderzoeksmethoden om vroege kenmerken in beeld te brengen..... | 8 |
| 1.4 | Siblings..... | 9 |
| 1.4.1 | Erfelijkheid..... | 9 |
| 1.4.2 | Omgevingsfactoren | 9 |
| 1.4.3 | Breder fenotype van autisme..... | 10 |
| 1.5 | Onderzoek bij siblings | 12 |
| 1.5.1 | Conclusies in verband met siblingonderzoek..... | 12 |
| 1.6 | Joint attention | 17 |
| 1.6.1 | Algemeen | 17 |
| 1.6.2 | Joint attention bij kinderen met autisme en siblings..... | 19 |
| 1.7 | Probleemstelling | 21 |
| 2 | Methode..... | 24 |
| 2.1 | Deelnemers | 24 |
| 2.2 | Procedure en verloop..... | 25 |
| 2.3 | Metingen | 26 |
| 2.3.1 | Joint attention | 26 |
| 2.3.2 | Ontwikkelings- en taalniveau | 29 |
| 2.3.3 | Kenmerken van autisme..... | 30 |
| 3 | Resultaten | 32 |
| 3.1 | Onderzoeksvraag 1..... | 32 |
| 3.1.1 | Joint attention | 32 |
| 3.1.2 | Ontwikkelingsniveau - MSEL | 36 |
| 3.2 | Onderzoeksvraag 2..... | 38 |
| 3.2.1 | Joint attention | 40 |
| 3.2.2 | Ontwikkelingsniveau | 42 |
| 4 | Discussie | 43 |
| 4.1 | Onderzoeksvraag 1..... | 43 |

| | | |
|-------|---|----|
| 4.1.1 | Joint attention | 43 |
| 4.1.2 | Ontwikkelingsniveau | 46 |
| 4.2 | Onderzoeksvraag 2..... | 47 |
| 4.2.1 | Joint attention | 47 |
| 4.2.2 | Ontwikkelingsniveau | 48 |
| 4.3 | Individuele verschillen..... | 49 |
| 4.4 | Sterktes en beperkingen | 51 |
| 4.5 | Richtlijnen toekomstig onderzoek | 52 |
| 4.6 | Klinische implicaties en kritische bedenkingen..... | 53 |
| 4.7 | Algemene conclusie | 56 |
| 5 | Referenties | 58 |
| 6 | Appendix | 65 |

1 Inleiding

1.1 Autismespectrumstoornissen

Autismespectrumstoornissen (ASS) is een overkoepelende term voor samenhangende ontwikkelingsstoornissen die vanaf jonge leeftijd aanwezig zijn (Landa & Garrett-Mayer, 2006). In de DSM- IV-TR (APA, 2000) wordt de term ‘pervasieve ontwikkelingsstoornis’ vermeld waaronder zowel ‘autisme’, ‘Aspergersyndroom’, ‘desintegratiestoornis’, ‘het syndroom van Rett’ als het ‘atypisch autisme’ of ‘pervasieve ontwikkelingsstoornis niet anderszins omschreven’ behoren. Recent gebruikt men in Vlaanderen eerder het begrip ‘autismespectrumstoornissen’ (ASS) dan het specifieke begrip dat in de DSM-IV-TR vermeld wordt. Dit is een overkoepelende term voor ‘autisme’, ‘het syndroom van Asperger’ en ‘atypisch autisme’. Gezien deze verschillende stoornissen niet duidelijk onderscheiden kunnen worden op het vlak van oorzaak en specifieke kenmerken, is het zinvol om in de praktijk gebruik te maken van een overkoepelend begrip (Roeyers, 2008). In de masterproef zullen, zoals in veel onderzoeken, de begrippen ‘autismespectrumstoornis’ en ‘autisme’ verder gebruikt worden als synoniemen. Mensen met een autismespectrumstoornis vertonen op drie gebieden problemen: tekorten in het sociaal functioneren; beperkingen in communicatie; repetitieve interesses en of beperkte interesse (DSM-IV-TR, APA, 2000; Volkmar, Lord, Bailey, Schultz, Klin, 2004). Dit is gebaseerd op de triade van Wing (1997) waarmee ze de drie bovenstaande elementen omschrijft. Voordat een diagnose via de DSM-IV-TR (APA, 2000) gesteld kan worden, is het noodzakelijk dat op alle drie de domeinen symptomen aanwezig zijn (Yoder, Stone, Walden, Malesa, 2009). Deze triade onderscheidt autismespectrumstoornissen van andere gerelateerde stoornissen zoals taalontwikkelingsstoornissen, obsessief-compulsieve stoornissen of pragmatische communicatiestoornissen. Wel is er vaak overlapping met andere stoornissen, voornamelijk op het vlak van de sociale en communicatieve moeilijkheden, en is er sprake van comorbiditeit (Yoder et al., 2009). Er zijn geen biologische testen of procedures om de diagnose te stellen. Dit gebeurt op basis van een klinisch onderzoek door deze drie domeinen na te gaan. De kern van de problematieken moet steeds aanwezig zijn, maar er is heel wat heterogeniteit te vinden tussen mensen met autisme. Zowel in de ontwikkeling, in de ernst als in de frequentie is er heel wat variabiliteit tussen individuen met autisme

(Filipek et al., 1999, Nadig et al., 2007). Autisme kan voorkomen zowel bij mensen met een lager IQ, als bij mensen met een gemiddeld of hoog IQ (Baron-Cohen & Belmonte, 2005).

1.1.1 Prevalentie

Uit eerste onderzoeken tussen 1966 en 1991 bleek er een prevalentie te zijn van 4 à 5 personen met autisme op 10.000 mensen (Folstein, Bisson, Santangelo & Piven, 1998). Opvallend is dat deze prevalentiecijfers toenemen en een stijgend aantal kinderen gediagnosticeerd wordt met autismespectrumstoornis of gerelateerde problemen (Rutter, 2005). Tussen 1992 en 2001 sprak men van 12 personen op 10.000 (Volkmar et al., 2004). Recente studies wijzen er op dat op de 10.000 geboorten, 60 à 70 kinderen autismespectrumsstoornissen ontwikkelen waardoor ASS één van de meest frequente ontwikkelingsstoornissen bij kinderen is (Fombonne, 2009). Spreken van een ‘epidemie van autisme’ kan niet zomaar zonder het in de bredere context en recente ontwikkelingen te plaatsen. Verschillende oorzaken liggen aan de grond van deze toename: uitbreidende kennis en bewustzijn over de stoornis; steeds bredere conceptualisering waardoor meer problemen onder het begrip vallen; betere onderzoeks- en diagnostische methoden die gestandaardiseerd zijn en waarmee men steeds op vroegere leeftijd kan onderzoeken (Volkmar et al., 2004; Wing, 1997). Er is een frequenter voorkomen van autisme bij jongens dan bij meisjes. Het komt 3 tot 4 keer meer voor bij jongens (Pickles et al., 2000). Deze verhouding is echter sterk gerelateerd aan het intelligentieniveau: bij kinderen met een verstandelijke beperking is de verhouding 2 jongens ten aanzien van 1 meisje, terwijl dit bij kinderen met een gemiddelde begaafdheid 4 jongens ten aanzien van 1 meisje is (Filipek et al., 1999).

1.1.2 Etiologie

Aanvankelijk werd autisme gezien als een psychogene stoornis en sprak men van ‘infantiele psychoses’ (Rutter, 2005). Volgens Leo Kanner, de eerste onderzoeker die in 1943 de stoornis beschreef (Rogers, 2009), lagen ouderlijke persoonlijkheidskarakteristieken, zoals koud reageren, emotioneel niet responsief zijn en aandacht voor obsessieve objecten, aan de oorsprong van het gedrag van het kind (Kanner, 1943). Men trachtte te onderzoeken of dit tekort aan ‘moederlijke warmte’ de oorzaak was, maar vond geen bewijzen voor deze stelling. De biologische basis van autisme kon niet ontkend worden, zeker niet nadat er associatie werd gevonden met andere beperkingen en

de stoornis met een hogere frequentie bij familieleden opgemerkt werd (Bailey, Palferman, Heavey, LeCouteur, 1998). Vanaf 1970 startte de zoektocht naar medische en genetische oorzaken. Tweelingenstudies en familiestudies duiden op het genetische aspect (Rutter, 2005). Het is nog niet duidelijk welke genen een invloed hebben op of verantwoordelijk zijn voor de stoornis (Folstein et al., 1998; Rutter, 2005).

Ook vanuit neurobiologisch oogpunt is onderzoek zich gaan richten op de oorzaken van het autismespectrumstoornis. Er is sprake van een abnormale hersenontwikkeling waarbij enkele belangrijke regio's in de hersenen aangetast kunnen zijn (Dawson et al., 2002). Abnormaliteiten bij de hoofdomtrek en abnormale patronen van groei werden in de hersenen opgemerkt. Neuro-imaging onderzoek bracht ook bepaalde inzichten rond de witte stof en andere delen van de hersenen die een invloed blijken te hebben op de problemen (Volkmar et al., 2004).

Door gebrek aan duidelijkheid over de biologische basis van autisme, is onderzoek zich meer gaan richten op psychologische gedragsproblemen waardoor het mogelijk werd om de diagnose te stellen en de stoornis beter in beeld te brengen (Baron-Cohen & Belmonte, 2005; Rutter, 2005). Sinds de jaren '90 proberen verschillende psychologische modellen de kernproblemen van autisme te verklaren (Volkmar et al., 2004). Enerzijds zijn er de modellen die uitgaan van een primaire stoornis in de sociale cognitie zoals de 'Theory of Mind' (ToM) die ontwikkeld werd door Baron-Cohen, Tager-Flusberg & Cohen (1985). Deze theorie houdt in dat sociale problemen veroorzaakt worden door een storing in de mogelijkheid om het perspectief van de andere persoon in te nemen. Dit maakt het voor mensen met autisme moeilijk om de mentale toestand van anderen in te schatten, wat op zijn beurt moeilijkheden veroorzaakt om het gedrag van anderen te voorspellen. Anderzijds zijn er modellen die uitgaan van een primaire stoornis in mentale processen, zoals de theorie van de executieve dysfunctie of de hypothese van het gebrek aan centrale coherentie (Happé, Ronald & Plomin, 2006). Executieve functies zijn mentale processen die het mogelijk maken om te plannen, activiteiten te controleren ('monitoren'), impulsen onder controle te houden, onze aandacht te richten en cognitief flexibel te zijn. De theorie geeft aan dat mensen met autisme een tekort hebben aan deze vaardigheden waardoor ze moeilijkheden ervaren met veranderingen, plannen en generaliseren (Ozonoff et al., 1991). De theorie van centrale coherentie door Happé & Frith (1994) gaat er vanuit dat mensen met autisme bij het verwerken van informatie moeilijk de samenhang zien tussen feiten, wat het voor hen moeilijk maakt om de sociale context te definiëren en er betekenis aan te geven. Hierdoor focussen ze zich op details en brengen ze de context niet in rekening.

Geen enkel model, theorie of hypothese kan de volledige triade van autisme verklaren. Zowel genetische, cognitieve als neuropsychologische kennis moet worden geïntegreerd om de etiologie van autisme te bepalen. Kennis over de hersenen en genen draagt bij aan onze theorieën over het gedrag en omgekeerd. Kennis over gedragskenmerken biedt ons nieuwe ingangen voor neuropsychologisch en genetisch onderzoek (Dawson et al., 2002). Opmerkelijk is dat neuropsychologisch, neuro-imaging, psychologisch en genetisch onderzoek zich richt naar de vroege gedragskenmerken van autisme. Men gaat op zoek naar kernprocessen en -stoornissen die zich op jonge leeftijd ontwikkelen en kunnen leiden tot tekorten in ‘Theory of Mind’-vaardigheden, executieve functievaardigheden of centrale coherentie (Volkmar et al., 2004).

1.2 Vroege diagnostiek

Grotendeels worden autismespectrumstoornissen gediagnosticeerd in de late peutertijd of op kleuterleeftijd rond drie jaar (Cassel et al., 2007). Volgens de DSM-IV-TR (APA, 2000) moeten de eerste kenmerken van een autismespectrumstoornis aanwezig zijn voor 36 maanden, maar men specificeert verder geen beginleeftijd (Barbaro & Dissanayake, 2009). Uit onderzoek blijkt dat het grootste deel van deze kinderen tussen 12 en 24 maanden ontwikkelingsproblemen vertonen (Osterling & Dawson, 1994). Die periode wordt dan ook gezien als een kritieke fase voor het ontwikkelen van tekorten (Barbaro & Dissanayake, 2009; Gamliel, Yirmiya & Sigman, 2007; Landa & Garrett-Mayer, 2006; Zwaigenbaum et al., 2005). Veel ouders hebben daarenboven vaak zelf al heel wat bezorgdheden tijdens het eerste levensjaar van hun kind en merken op dat de ontwikkeling anders of vertraagd verloopt (Nadig et al., 2007; Zwaigenbaum et al., 2005). 30 tot 50% van de ouders, van een kind met autisme, rapporteren initiële bezorgdheden voor de eerste verjaardag; voornamelijk rond een vertraagde taalontwikkeling (De Giacomo & Fombonne, 1998; Mandell, Novak & Zubritsky, 2005). Toch zit er gemiddeld 34 maand tussen de leeftijd waarop ouders hun bezorgdheden melden en het stellen van de diagnose (Young, Brewer & Pattinson, 2003). Redenen hiervoor kunnen zijn: vertraging in het herkennen van autisme doordat ouders niet goed weten hoe een normale ontwikkeling verloopt; ouderlijke ontkenning over de vertraagde ontwikkeling en het missen van vaardigheden en kennis om de eerste symptomen op te merken bij hulpverleners en professionelen (De Giacomo & Fombonne, 1998).

Het stellen van een diagnose voor de leeftijd van 3 jaar is niet evident doordat veel criteria waarop de diagnose gebaseerd is niet toepasbaar zijn op kinderen jonger dan 36 maanden. Veel van deze gedragingen zijn secundaire vaardigheden, zoals het ontwikkelen van taal en de sociale interactie met andere kinderen. Barbaro & Dissanayake (2009) geven aan dat dit problematisch is wanneer men bij erg jonge kinderen op 12 of 18 maanden een diagnose tracht te stellen. Om op een jongere leeftijd een diagnose te kunnen stellen, is er nood aan kennis rond de vroege sociaal-communicatieve ontwikkeling bij kinderen en aan aangepaste criteria om de diagnose te stellen.

Recent onderzoek focust zich op het identificeren van de vroege gedragskenmerken van autisme om meer inzicht te krijgen in het gedragsfenotype van autisme voor de leeftijd van 3 jaar. Deze kennis maakt het mogelijk om op een vroegere leeftijd de diagnose te gaan stellen (Gamliel et al., 2007). In heel wat onderzoek wordt het belang van vroege detectie omschreven (Barbaro & Dissanayake, 2009; Dawson, 2008; Filipek et al., 1999; Goldberg et al. 2005; Harris & Handleman, 2000; Osterling, Dawson & Munson, 2002; Zwaigenbaum et al., 2005). Een vroege diagnose betekent voor de ouders en voor het gezin vaak een vermindering van druk en stress doordat er meer duidelijkheid komt rond hun bezorgdheden (Filipek et al., 1999; Harris & Handleman, 2000). Ouders geven bovendien aan dat ze zo vroeg mogelijk geïnformeerd willen worden over wat er met hun kind aan de hand is (Barbaro & Dissanayake, 2009). Een diagnose kan door hen gezien worden als een 'baken' (De Belie & Van Hove, 2005). Het geeft hen de mogelijkheid zich meer af te stemmen op hun kind en het biedt hen steun om zich beter te oriënteren binnen de hulpverleningswereld (Guralnick, 2001). De diagnosestelling is dus vaak een kritische stap, maar hier stopt het niet bij. Zowel voor het kind als voor het gezin is het vooral belangrijk dat de diagnosestelling gecombineerd wordt met praktische ondersteuning en hulp (Filipek et al., 1999). Vroege interventie wordt dan ook mogelijk gemaakt door de vroege diagnose bij het kind. Er kan vroeg gestart worden met gerichte hulp en onderwijs en er kan eventueel een geschikte medische behandeling gezocht worden voor het kind. De vroege interventie en ondersteuning biedt bovendien de beste prognose voor de verdere ontwikkeling van het kind. Hoe vroeger men start met de interventie in de ontwikkeling van een kind, hoe beter de kansen zijn om de ontwikkeling te verschuiven in de richting van een meer typisch ontwikkelingstraject, vanwege de plasticiteit van de jonge hersenen (Dawson, 2008). Door op een jonge leeftijd te starten met een gepaste interventie en ondersteuning kan de ontwikkeling van secundaire tekorten of stoornissen voorkomen of geminimaliseerd worden (Barbaro & Dissanayake, 2009). Wanneer er dus een vermoeden is van autisme, is het

belangrijk dat professionele hulpverleners geen afwachtende houding aannemen, maar snel in actie treden (Ozonoff, Heung, Byrd, Hansen, Hertz-Picciotto, 2008). Om die reden is screening heel belangrijk (Filipek et al., 1999).

Daarnaast mogen we niet uit het oog verliezen dat er door de vroege testing, eventuele diagnose en interventies heel wat spanning ontstaat bij de ouders. We moeten bewust blijven van de grote impact die een diagnose op een kind kan hebben in zijn verdere levensloop en de stress die dit kan teweegbrengen bij gezinnen en families (Gamliel et al., 2007). Vanuit pedagogisch opzicht is het belangrijk dat er op een kritische manier gekeken wordt naar het vroegtijdig detecteren en de eventuele gevolgen die dit met zich mee kan brengen. Een diagnose kan voor ouders een ‘baken’ zijn, maar het kan een ‘dwaallicht’ zijn (De Belie & Van Hove, 2005). Een diagnose kan een bepaalde afstand scheppen met het kind; de eigenheid van het kind kan in zekere mate ‘verduisteren’ wanneer elke gedraging van het kind gezien zou worden als een onderdeel van zijn/haar beperking (Isarin, 2001). Zoals Filipek et al. (1999) aangeven moeten labels als autisme vermeden worden als men niet met zekerheid een specifieke diagnose kan stellen. We moeten voorzichtig zijn dat we geen vals alarm geven aan de ouders en hen duidelijk informeren (Gamliel et al., 2007). Het is bovendien niet altijd mogelijk om de vroege kernsymptomen bij kinderen die later autisme ontwikkelen te zien. Bepaalde kinderen met autisme vertonen een patroon van regressie waarbij ze de eerste twee levensjaren normaal lijken te ontwikkelen, maar na het tweede levensjaar vaardigheden beginnen te verliezen, gecombineerd met de beginnende symptomen van autisme (Osterling, Dawson & Munson, 2002; Ozonoff et al., 2008).

1.3 Vroege kenmerken

Het bestuderen van de vroege ontwikkeling van autisme is belangrijk om de primaire of de kernproblemen van autisme te definiëren, die voor de leeftijd van twee jaar aanwezig zijn en onderliggend zijn voor de secundaire gedragsproblemen (Clifford & Dissanayake, 2008). Op vier gebieden ziet men primaire stoornissen: kwalitatieve tekorten in sociale interacties; kwalitatieve tekorten in verbale en non-verbale communicatie; beperkt repertoire van activiteiten of interesses en storingen in het reageren op sensorische stimuli (Young, et al. 2003). Abnormaliteiten in de eerste twee gebieden (sociaal en communicatief gedrag) zijn volgens verschillende onderzoeken de meest voorspellende,

vroege signalen van autismespectrumstoornissen (Barbaro & Dissanayake, 2009; Werner & Dawson, 2005).

Ten eerste, op het gebied van sociaal gedrag en aandacht ziet men voornamelijk beperkingen in oogcontact, sociaal glimlachen, imitatie, gepaste gelaatsuitdrukkingen en interesse in en plezier maken met anderen (Goldberg et al., 2005; Rogers, 2009; Sullivan et al., 2007). Kinderen die autisme ontwikkelen reageren daarnaast minder op hun naam (Nadig et al., 2007).

Ten tweede, op het gebied van communicatie ziet men belangrijke vertragingen en tekorten in: verbale communicatie, het volgen van iemand die wijst, het volgen van iemands blik, het aanwijzen van objecten en verzoekend gedrag. De laatste vier zijn joint attention vaardigheden. Een tekort in joint attention vaardigheden is een belangrijke predictor voor het ontwikkelen van autismespectrumstoornis. Joint attention wordt ook gezien als de voorloper van de taalontwikkeling (Presmanes, Walden, Stone & Yoder, 2009; Sigman & Ruskin, 1999) en wordt vaak gerelateerd aan latere sociale competenties (Yoder et al., 2006). Problemen met diadisch gedrag van het kind zoals oogcontact en reageren op naam zouden de primaire stoornissen zijn voor de latere tekorten in triadische vaardigheden als joint attention. Voor deze tekorten in sociale gedragingen is er een hogere specificiteit gevonden bij eenjarige kinderen die later autisme ontwikkelen waardoor ze beter onderscheiden kunnen worden van kinderen met een mentale beperking (Clifford & Dissanayake, 2008). In het deel rond joint attention wordt dit meer in detail uitgewerkt (zie 1.6.).

Ten derde worden repetitieve gedragingen en preoccupaties opgemerkt bij jonge kinderen die later autisme ontwikkelen. Sommige repetitieve en stereotiepe gedragingen zoals maniërismen –bijvoorbeeld fladderen- zijn niet specifiek voor kinderen met autisme. Deze kenmerken zijn geassocieerd met intellectuele beperkingen (Osterling, Dawson & Munson, 2002; Saint-Georges, et al., 2010). Ongewone routines en bezigheden worden door ouders pas op latere leeftijd opgemerkt, dit in het derde levensjaar van het kind (Young et al., 2003). Hierdoor is het minder interessant om op jonge leeftijd naar deze gedragingen te kijken.

Ten vierde worden atypische sensorische en motorische gedragingen vaak opgemerkt in onderzoek (Young et al., 2003; Bryson et al., 2007). Tekorten in visuele aandacht ontstaan volgens Zwaigenbaum et al. (2005) tussen 6 en 12 maanden. Bovendien worden er op grove en fijne motoriek verschillen gevonden in vergelijking met kinderen die

normaal ontwikkelen (Landa & Garrett-Mayer, 2006). Het is boeiend om in onderzoek reeds op jonge leeftijd naar deze vaardigheden en ontwikkeling te kijken.

1.3.1 Onderzoeksmethoden om vroege kenmerken in beeld te brengen

Aan de hand van verschillende methoden is men deze vroege kenmerken van autisme in beeld gaan brengen. Een van de eerst gebruikte methoden is het analyseren van homevideo's. Adrien et al. (1993) en Osterling & Dawson (1994) gebruikten deze retrospectieve onderzoeksmethoden om het gedrag van kinderen met en zonder autisme voor de leeftijd van één jaar te bekijken. Er werd voornamelijk gekeken naar sociaal en communicatief gedrag. Het nadeel aan deze methode is dat het kind gefilmd werd in selectieve omstandigheden zoals familiefeesten of verjaardagen en het gedrag bovendien niet uitgelokt kon worden. Op deze manier is men gelimiteerd tot de gedragingen die het kind spontaan toont in niet dagdagelijkse situaties. Anderen maakten gebruik van retrospectieve ouderverslagen (Barbaro & Dissanayake, 2009). Young et al. (2003) maakten gebruik van een vragenlijst om na te gaan welke bezorgdheden ouders ervaren hadden en op welke leeftijd ze bij hun kind een achterstand of problemen opmerkten. Een nadeel aan deze manier van onderzoeken is de kans dat de ouders verkeerde of vervormde herinneringen hebben. Ze moeten zich zaken proberen te herinneren die vaak reeds jaren geleden zijn. Daarenboven kan de kennis die ouders hebben rond autisme, invloed hebben op de resultaten (Rogers, 2009).

De bovenstaande methodes om de vroege gedragskenmerken van autisme te onderzoeken zijn retrospectief - terugblikkend. Recent is men zich meer en meer gaan richten op prospectief longitudinaal onderzoek (Rogers, 2009). Hierbij volgt men kinderen gedurende een bepaalde periode op vanaf een vroege leeftijd en focust men zich op de vroege interactiepatronen, objectexploratie en vocalisatie. Tijdens de herhaalde onderzoeken gebruikt men vaak screeningsmeetinstrumenten (Stone, Coonrod & Ousley, 2000). Een voordeel aan deze onderzoeksvorm is dat de evolutie van kinderen in beeld kan worden gebracht en subtiele veranderingen die bij kinderen met autisme voorkomen opgemerkt kunnen worden. Het geeft bovendien de mogelijkheid om specifieke hypothesen te testen via experimentele methoden (Ozonoff et al., 2008). Om de vroege kenmerken van autisme in beeld te brengen, wordt bij twee groepen prospectief onderzoek afgenomen: jonge kinderen van 18 maanden die net de diagnose van autisme kregen en bij hoge risico

groepen zoals zusjes en broertjes van kinderen met autisme (Stone et al., 2000). Een nadeel is dat er nood is aan een groot aantal proefpersonen om enkele kinderen te vinden die autisme ontwikkelen (Yirmiya & Ozonoff, 2007).

1.4 Siblings

1.4.1 Erfelijkheid

Genetische en familiestudies toonden aan dat autisme grotendeels een erfelijke stoornis is (Szatmari, Jones, Zwaigenbaum & MacLean, 1998). Wanneer iemand een hogere kans op autisme heeft, betekent dit niet dat er met 100% zekerheid gezegd kan worden dat deze persoon zelf autisme zal ontwikkelen, maar dat deze persoon een hogere (genetische) kwetsbaarheid heeft om autisme te ontwikkelen of om symptomen te vertonen die met autisme geassocieerd zijn (Yoder et al., 2009). Door Bailey et al. (1998) werd aangegeven dat broers en zussen van kinderen met autisme tussen de 3% en 6% kans lopen om zelf een autismspectrumstoornis te ontwikkelen, in vergelijking met 0.6% kans in de algemene populatie. In recent onderzoek concludeert men echter dat broers en zussen van kinderen met autisme 18,7% kans hebben op het ontwikkelen van een autismspectrumstoornis. Ozonoff et al. (2011) geven aan dat dit percentage onderschat wordt. De twee belangrijkste voorspellers voor een diagnose zijn het geslacht van het kind en het aantal kinderen in het gezin die de diagnose autisme kregen. Jongens hebben een hoger risico op autisme en er is ook een hoger risico wanneer er meer dan één oudere broer of zus is die autismspectrumstoornis heeft (Ozonoff et al., 2011). In deze masterproef zullen we verder gebruikmaken van de beknopte term ‘siblings’ in plaats van broers en zussen van kinderen met autisme. Er bestaat nog geen goede Nederlandse vertaling voor deze term. In kwalitatief onderzoek wordt de term ‘brussen’ vaak gehanteerd.

1.4.2 Omgevingsfactoren

In onderzoek wordt steeds vaker de verbinding gelegd tussen genetische factoren en omgevingsfactoren. Gezien de complexiteit van autismspectrumstoornis kan de genetische kwetsbaarheid verbonden worden met omgevingsfactoren (Goldberg et al., 2005). Verschillende factoren kunnen invloed hebben op de ontwikkeling van de sibling zoals

ouderlijke stress, wijzigingen in ouder-kind interactie, modeling van atypisch gedrag door de sibling met autisme en atypische patronen in de familiale interacties (Barbaro & Dissanayake, 2009; Toth, Dawson, Meltzoff, Greenson & Fein, 2007). Biologische omgevingsfactoren tijdens de zwangerschap, tijdens de bevalling of in de vroege postnatale periode kunnen een grote rol spelen in de ontwikkeling van de sibling (Roeyers, 2008). Deze omgevingsfactoren veroorzaken niet de stoornissen en tekorten die bij siblings gevonden worden, maar ze kunnen wel bijdragen tot een hoger risico tijdens bepaalde periodes in de ontwikkeling (Toth et al., 2007). Vroege ervaringen of biologische factoren kunnen bepaalde aspecten van postnatale hersenontwikkeling sturen en een rol spelen in de etiologie van de stoornis (Goldberg et al., 2005). Bi-directionaliteit moet dus in rekening worden gebracht wanneer we kijken naar familiale en andere omgevingsfactoren bij kinderen met autisme (Goldberg et al., 2005).

1.4.3 Breder fenotype van autisme

Familieleden lopen niet enkel een genetisch risico op het hebben van een autismespectrumstoornis, maar hebben bovendien een hoger risico op een mildere expressie van de stoornis (Bailey et al., 1998; Szatmari et al., 1998). Ze vertonen vaak gelijkaardige gedragsymptomen, zoals sociale tekorten, taalachterstand of repetitief gedrag; die tekorten blijven op latere leeftijd (Cassel et al., 2007; Folstein, et al. 1998). Ongeveer 18% van siblings krijgt op 3-jarige leeftijd de diagnose van autisme, maar daarnaast zijn er heel wat siblings die subklinische problemen blijven vertonen (Yoder et al., 2009). Er kan sprake zijn van een milde expressie van de triade waarop de diagnose van ASS is gebaseerd ofwel voldoet een sibling aan twee van de vernoemde criteria (zie pg 1) (Folstein et al., 1998; Rutter, 2005). De milde gedragsmanifestaties verschillen in ernst tussen siblings. De drie kernelementen van autismespectrumstoornis kunnen gezien worden als scheidbare en onafhankelijke elementen. De onafhankelijkheid van de individuele symptomen uit de triade kan een verklaring bieden voor de reden waarom een minderheid van de familieleden van kinderen met autisme de volledige triade van klinische symptomen vertoont (Baron-Cohen & Belmonte, 2005; Happé, et al., 2006; Pickels et al., 2000). Siblings van kinderen met autisme hebben dus een grotere kans om tekorten te vertonen in de sociale en communicatieve vaardigheden, wat implicaties inhoudt voor de sociale, cognitieve en communicatieve ontwikkeling, ongeacht de uiteindelijke klinische diagnostische status

(Presmanes et al., 2007). Toch kunnen de tekorten die zij vertonen zich verder ontwikkelen, waardoor er ook bij hen nood kan zijn aan vroege interventie (Barbaro & Dissanayake, 2009).

De term die aan deze mildere expressie gekoppeld wordt, is het 'breder fenotype van autisme' (Constantino et al., 2006; Dawson et al., 2002; Dawson, 2008; Folstein et al., 1998; Goldberg et al., 2005; Yirmiya & Ozonoff, 2007). Rond dit begrip is er nog geen algemeen aanvaarde definitie, zoals dat er is voor autismespectrumstoornissen. Een definitie die door Rogers (2009) gegeven wordt aan dit begrip is: "De aanwezigheid van subklinische moeilijkheden bij familieleden van kinderen met autisme die gerelateerd zijn aan sociale verbondenheid, pragmatische kenmerken van communicatie en speciale interesses. Dit zijn de primaire kenmerken van autismespectrumstoornissen die in een hogere graad bij familieleden van kinderen met autisme voorkomen dan in de algemene populatie." Yoder et al. (2009) geven aan dat we een duidelijk beeld moeten krijgen van de sociale en communicatieve tekorten die bij siblings worden opgemerkt, met andere woorden wil men een beter beeld krijgen van 'het breder fenotype van autisme' dat bij siblings aanwezig is. Daarom stellen Yoder et al. (2009) voor om niet enkel te focussen op gemiddelde verschillen tussen siblings van kinderen met autisme en siblings van kinderen met een typische ontwikkeling, maar toekomstig onderzoek ook te richten op het voorspellen van en het in kaart brengen van het continuüm van sociale tekorten binnen de groep van siblings.

Als conclusie kan gesteld worden dat er onderzoek dient te gebeuren bij siblings, omwille van drie specifieke redenen. De eerste reden is van klinische aard en houdt het opvolgen van de ontwikkeling van de siblings in. Ozonoff et al. (2011) benoemen het belang van screenen en opvolgen van siblings van kinderen met autisme omwille van de hogere kwetsbaarheid. Een afwachtende houding is volgens Ozonoff et al. (2011) niet gewenst omdat een vroegere diagnosestelling ervoor zorgt dat siblings vlugger doorverwezen kunnen worden voor interventie en gepaste ondersteuning wat leidt tot een betere prognose. Hierbij is het belangrijk dat er wordt aangesloten bij de ongerustheid van ouders in verband met het hoger risico en mogelijke nakomelingen. De tweede reden is van wetenschappelijke aard om via longitudinaal onderzoek de vroege kenmerken van autisme in beeld te brengen. Met deze studies kan men het ontstaan en het verloop van de stoornis aantonen en kunnen betere methodes voor vroege diagnose en interventie ontworpen worden (Volkmar et al., 2004). Onderzoek bij siblings kan ons een coherent beeld geven

van de vroege gedragsprofielen en ontwikkelingstrajecten die jonge kinderen met autisme kunnen onderscheiden van normaal ontwikkelende kinderen (Bryson et al., 2007). Een derde en laatste reden is zowel van klinische als wetenschappelijke aard. Met de studies rond siblings kunnen we het breder fenotype van autisme exploreren en in beeld brengen (Rutter, 2005). Er is nood is aan een algemene definitie en langere follow-up om een duidelijk beeld te kunnen schetsen van het breder fenotype (Rogers, 2009).

1.5 Onderzoek bij siblings

Zowel vanuit psychologische als neurobiologische hoek doet men onderzoek bij siblings van kinderen met autisme. Bepaald onderzoek richt zich op de gedragskenmerken (Cassel et al., 2007; Landa & Garret-Mayer, 2006; Yoder et al., 2009; Zwaigenbaum et al., 2005). Ander fundamenteel onderzoek focust op de hersenontwikkeling en abnormaliteiten in hersengebieden door middel van EEG-onderzoek en neuro-imaging of op de genen (Dawson et al., 2002; Baron-Cohen & Belmonte, 2005). In deze masterproef ligt de focus op longitudinaal onderzoek dat zich richt op vroege gedragskenmerken bij siblings in de eerste twee levensjaren. In de Appendix bevindt zich een beschrijving van de belangrijkste onderzoeken die tussen 2005 en 2010 bij siblings van kinderen met autisme werden afgenomen. Na 2010 werden nog een aantal onderzoeken gepubliceerd, maar deze waren niet longitudinaal of hadden een andere focus waardoor ze niet werden opgenomen in de tabel. Enkele voorbeelden: Bhat, Galloway & Landa (2010) onderzochten de sociale en niet-sociale visuele aandachtspatronen bij siblings op 6 maanden. Hutman, Chela, Gillespie-Lynch & Sigman (2012) keken naar de selectieve visuele aandacht op 12 maanden bij siblings van kinderen met autisme. Anderen focusten op de taal en/of cognitieve vaardigheden van siblings met een hoger risico op oudere schoolleeftijd (Levy & Bar-Yuda, 2011; Ben-Yizhak et al., 2011). Nog anderen richtten hun onderzoek op prospectieve ouder rapportage rond de ontwikkeling van de siblings (Feldman, et al., 2012).

1.5.1 Conclusies in verband met siblingonderzoek

Veel onderzoekers maken gebruik van verschillende methoden of een eigen focus om de subgroep van siblings en de karakteristieken van het begrip 'breder fenotype' te onderzoeken. Hierdoor is het niet eenvoudig om de verschillende onderzoeken en resultaten met elkaar te vergelijken en te verbinden (Rogers, 2009). Sommigen clusteren kinderen in

verschillende categorieën afhankelijk van het type tekort (Sullivan et al., 2007). Anderen maken categorieën afhankelijk van de periode waarin de tekorten ontstaan (Gamliel et al., 2007), en sommigen maken algemene subgroepen van siblings die autisme ontwikkelen en siblings die geen autisme ontwikkelen (Goldberg et al., 2005; Toth et al., 2007). In deze masterproef zullen de resultaten van de siblings die later autisme ontwikkelen en de resultaten van de siblings die later geen autisme ontwikkelen - maar eventueel wel bepaalde kenmerken van het breder fenotype vertonen - apart besproken worden. Enkele algemene conclusies op een rij.

Beginleeftijd

Op 6 maanden kunnen zich al subtiele abnormaliteiten vertonen in het gedrag van siblings, maar deze zijn beperkt en ongedifferentieerd aanwezig waardoor het moeilijk is onderscheid te maken met andere ontwikkelingsstoornissen (Bryson et al., 2007). Opvallend is dat geen enkele sibling voldoet aan de invulling die Kanner in 1943 aan autisme gaf als een diep sociaal-affectieve stoornis die zich ontwikkelt in het begin van de eerste levensmaanden (Ozonoff et al., 2010). Veel siblings die later tekorten ontwikkelen zijn sociaal geëngageerd op 6 maanden (Bryson et al., 2007; Landa & Garret-Mayer, 2006). Rogers (2009) bespreekt dat vertragingen en tekorten in verschillende aspecten van de ontwikkeling ontstaan rond 7 à 12 maanden en er dus sprake is van een discontinuïteit in de ontwikkeling van de sibling.

De leeftijd tussen 12 en 24 maanden wordt gezien als een kritische periode waarin zich belangrijke sociaal en (non-) verbale communicatieve vaardigheden ontwikkelen (Barbaro & Dissanayake, 2009; Landa & Garret-Mayer, 2006; Yirmiya et al., 2006; Yoder et al., 2009). Het is dan ook in deze periode dat belangrijke tekorten in sociale en communicatieve vaardigheden ontstaan (Bryson et al., 2007; Cassel et al., 2007; Zwaigenbaum et al., 2005). Dit is zowel het geval bij siblings die wel autisme ontwikkelen en siblings die geen autisme ontwikkelen. De verschillen die op 12 maanden worden opgemerkt, blijven of nemen toe naarmate men ouder wordt (Brian et al. 2008; Stone, McMahon, Yoder & Walden, 2007).

Gedragskenmerken bij siblings

(Non-) verbale communicatieve vaardigheden. De patronen van communicatieve ontwikkeling bij siblings van kinderen met autisme die later zelf autisme ontwikkelen

vertonen verschillen in vergelijking met de patronen bij siblings van kinderen die zich normaal ontwikkelen en geen autisme ontwikkelen (Cassel et al. 2007; Yoder et al., 2009). Op 12 maanden zien we bij de siblings die later autisme ontwikkelen een vertraging in de (non)verbale communicatie, doch niet voor de leeftijd van 6 maanden (Landa & Garrett-Mayer, 2006; Yirmiya et al., 2006; Zwaigenbaum et al., 2005; Ozonoff et al., 2010). Op verschillende vlakken worden significante verschillen gevonden: verminderde communicatievaardigheden zoals het volgen van gedeelde aandacht, initiëren van gedeelde aandacht, aanzet geven tot een verzoek en gebruik maken van gebaren (Cassel et al., 2007, Goldberg et al., 2005, Presmanes et al., 2007, Yirmiya et al., 2006).

In verband met de communicatieve en de taalontwikkeling bij hoge risicokinderen die geen autisme ontwikkelen is er geen consistentie (Rogers, 2009). Bepaalde onderzoekers vinden in de verschillende gebieden geen verschillen met de controlegroep (Zwaigenbaum et al., 2005). Toth et al. (2007) stellen geen significante verschillen vast bij metingen rond joint attention, sociale interactie of het gebruik van conventionele gebaren, wat allemaal kernsymptomen zijn van vroege autisme. Anderen als Goldberg et al. (2005) vinden wel significante verschillen op 17 maanden bij het reageren op sociale interactie en verzoekgedrag, maar niet bij het initiëren van gedeelde aandacht. Yirmiya et al. (2006) en Gamliel et al. (2007) vinden dat op 24 maanden het grootste deel van de siblings significante receptieve taalkorten en/of expressieve taalkorten vertonen en dit blijft aanwezig op de leeftijd van 36 maanden. Een groot deel van deze siblings blijven dus atypische ontwikkelingskenmerken vertonen die kunnen leiden tot belangrijke tekorten of andere diagnoses zoals taal- en of angststoornissen (Zwaigenbaum et al., 2005; Gamliel et al., 2009). Siblings die al op vroege leeftijd problemen hebben op het vlak van communicatieve vaardigheden, ervaren tijdens de verdere kindertijd en adolescentie meer moeilijkheden op het vlak van taalvaardigheid en -ontwikkeling (Gamliel et al., 2007).

Sociale interactie en emotionele ontwikkeling. De meerderheid van siblings van kinderen met autisme die zelf autisme ontwikkelen vertonen verminderde sociale interesse en dit blijft aanwezig op latere leeftijd. Tussen 6 en 12 maanden zijn deze tekorten nog niet aanwezig (Young et al., 2009), maar op 12 maanden vertoont de meerderheid van deze siblings wel minder sociale reacties zoals oogcontact, sociaal glimlachen, sociale interesse en expressie van affectieve reacties (Zwaigenbaum et al., 2005; Ozonoff et al., 2010). Bij siblings van kinderen met autisme die later geen autisme ontwikkelen ziet men vanaf 12 maanden minder sociaal gedrag onder andere in het gebruik van gelaatsuitdrukkingen,

woorden en sociale glimlach. Op het vlak van spel en imitatie worden geen significante verschillen gevonden (Toth et al., 2007).

In verschillende onderzoeken wordt in verband met de sociale ontwikkeling gekeken naar het temperament en karakter van het kind. Op 6 maanden ziet men meer passiviteit bij siblings die later autisme ontwikkelen en minder reactie op mensen die hun aandacht proberen te trekken (Zwaigenbaum et al., 2005). Daarenboven gaan ze op 12 maanden en latere leeftijd minder reageren wanneer iemand negatieve emoties vertoont of pijn heeft (Hutman et al., 2010). Verhoogde irritatie en emotionele stress wordt duidelijker naarmate men ouder wordt. Yirmiya et al. (2006) en Young et al. (2009) vinden op dit vlak geen significante verschillen met de controlegroep. Wel vertonen een groot deel van de siblings van kinderen met autisme meer neutrale emoties. Toth et al. (2007) bespreken dat siblings die later geen autisme ontwikkelen verminderd emotioneel reageren dan siblings van kinderen met een normale ontwikkeling.

Reageren op naam. Kinderen uit de hoge risicogroep gaan op 12 maanden – nog niet op 6 maanden - minder frequent reageren op hun naam (Zwaigenbaum et al., 2005). Nadig et al. (2007) geven aan dat gebrekkige reacties op de naam een voorspeller kunnen zijn voor het breder autisme fenotype. Het gebrekkig reageren op zijn/haar naam is niet universeel bij kinderen die later gediagnosticeerd worden met een autismespectrumstoornis waardoor het geen goede indicator is voor lage risicogroepen. Wel kan het een bruikbare indicator zijn voor het screenen van kinderen die een hoger risico lopen voor het ontwikkelen van autisme. Op dit vlak zijn er nog geen conclusies rond siblings van kinderen met autisme.

Sensorische en motorische ontwikkeling. Wanneer visueel volgen gemeten wordt op 6 maanden kan niet geïdentificeerd worden wie later autisme zal ontwikkelen of vindt men geen verschillen tussen hoge en lage risico kinderen. Tussen 6 en 12 maanden is er een daling van visuele aandacht bij siblings van kinderen met autisme die zelf later autisme ontwikkelen. Opvallend is dat siblings intenser reageren op sensorische input, minder visueel volgen en meer visuele fixatie vertonen op non-sociale aspecten (Bryson et al., 2007). Problemen met het losmaken van visuele aandacht kan onderliggend zijn voor de verminderde mogelijkheid om zich te oriënteren en aandacht te besteden aan veranderende, sociaal relevante stimuli op latere leeftijd (Zwaigenbaum et al., 2005). Dit gebied is nog niet onderzocht bij siblings van kinderen met autisme die later geen autisme ontwikkelen.

Op 12 maanden ziet men bij siblings van kinderen met autisme die zelf autisme ontwikkelen stereotiep gebruik van speelgoed. (Zwaigenbaum et al., 2005). Bovenstaande onderzoeken focussen minder op dit gedragspatroon doordat dit niet specifiek is voor autismspectrumstoornissen (Rogers, 2009). Siblings die later zelf autisme ontwikkelen vertonen significante verschillen in fijne en grove motorische ontwikkeling op 14 en 24 maanden (Landa & Garret-Mayer, 2006). Siblings die later geen autisme ontwikkelen vertonen geen verschillen met de lage risicogroep op het vlak van motorische ontwikkeling (Toth et al., 2007).

Individuele verschillen

In veel onderzoek richt men zich op de sociale en communicatieve tekorten en stoornissen als een dichotome uitkomst, wat inhoudt dat het kind ofwel een diagnose van autisme krijgt of niet. Recente invullingen van autisme en autismspectrumstoornissen benadrukken de continue natuur van individuele symptomen in contrast met de categorische aanpak die gebruikt wordt door het formele diagnostische systeem. Iedere persoon met autisme vertoont wel bepaalde algemene kenmerken, maar het is bij ieder individu verschillend van aard, frequentie, etc. Men ziet niet enkel leeftijdsgerelateerde veranderingen in gedrag, maar er is ook een wijde verscheidenheid in individuele invulling van gedrag en de betekenis ervan (Mundy et al., 2007). De heterogeniteit tussen kinderen en mensen met autisme wordt veroorzaakt doordat er heel wat individuele verschillen zijn in het vertonen van de drie kernsymptomen van autisme (Happé et al., 2006). Er zijn ook heel wat kinderen die zich eerst goed ontwikkelen en in het tweede levensjaar plots een regressie meemaken en autisme ontwikkelen (Ozonoff et al., 2008; Bryson et al., 2007). De meerderheid van de siblings krijgen op 3-jarige leeftijd geen klinische diagnose (Landa & Garrett-Mayer, 2006). Heel wat onderzoek richt zich op verschillen tussen siblings en controlekinderen, toch is het belangrijk om het continuüm van tekorten en problemen te bekijken binnen de groep van siblings (Yoder et al., 2009). Het volgend hoofdstuk gaat verder in op de typische ontwikkeling van joint attention en joint attention vaardigheden bij kinderen met autisme en siblings van kinderen met autisme.

1.6 Joint attention

1.6.1 Algemeen

Tekorten in sociaal-communicatieve vaardigheden zijn de meest voorspellende symptomen voor autismespectrumstoornissen waarvan joint attention – gedeelde aandacht – een belangrijk en frequent onderzocht vroeg kenmerk is (Barbaro & Dissanayake, 2009). Algemeen wordt joint attention gedefinieerd als de triadische coördinatie tussen twee personen en een derde object, gebeurtenis of persoon (Van Hecke et al., 2007). Een gedeeld bewustzijn moet hierbij bereikt worden waarbij beide personen eenzelfde doel hebben in een intentionele actie (Tomasello, 2007). Wanneer er bijvoorbeeld een konijn voorbij springt in de tuin en zowel de moeder als het kind het konijn zien, maar beiden met iets anders bezig zijn, is er geen sprake van joint attention. Als de moeder bij het zien van het konijn naar haar kind loopt, haar kind wijst op het voorbij springend konijn en ze er samen naar kijken, dan is er sprake van joint attention. Joint attention speelt een cruciale rol bij het leren over de wereld en de anderen, hun ervaringen en de sociale omgeving (Corkum & Moore, 1998). Het is een belangrijke communicatieve functie gedurende de periode die voorafgaat aan de taalontwikkeling (Van Hecke et al., 2007) en een belangrijke voorganger van de eerder besproken ‘Theory of Mind’ (Cassel et al., 2007). Het geeft het kind de mogelijkheid om zaken uit te drukken, te delen en te volgen en het zich bewust te worden dat een gezamenlijk bewustzijn mogelijk is door een gedeelde focus van aandacht (Sullivan et al., 2007; Corkum & Moore, 1998). De ontwikkeling van joint attention leidt tot een nieuw stadium van interactie dat sociaal leren faciliteert (Mundy & Newell, 2007). Het biedt de mogelijkheid om te reageren op een persoon zijn verzoek, of om zelf aandacht te vragen (Cassel et al., 2007).

Verschillende gedragsmanifestaties van joint attention beginnen zich te ontwikkelen in de eerste 6 maanden van het leven en blijven verder evolueren gedurende de eerste 3 levensjaren (Mundy et al., 2007). De periode tussen 9 en 14 maanden is een belangrijke periode waarin veranderingen ontstaan op het vlak van sociale cognitie en het ontwikkelen van joint attention (Clifford & Dissanayake, 2008). Deze vaardigheden groeien gradueel en nemen toe gedurende de eerste 2 levensjaren door een dynamische integratie van sociale cognitie, zelfregulatie en sociaal-emotionele factoren (Morales et al., 2000).

Joint attention kan onderverdeeld worden in twee vormen: enerzijds het volgen van joint attention ('responding to joint attention' (RJA)) en anderzijds het initiëren van joint attention ('initiating joint attention' (IJA)). Beiden zijn niet hoog gecorreleerd met elkaar wat inhoudt dat ze een verschillend en uniek patroon van ontwikkeling hebben en onafhankelijk van elkaar ontwikkelen. Verschillende hersengebieden worden voor beide vormen gebruikt, maar er is wel sprake van interactie tussen de twee vormen (Mundy et al., 2007).

De eerste functie is het volgen van joint attention (RJA) en houdt de vaardigheid in om de richting van de blik of de gebaren van anderen te volgen (Presmanes et al., 2007). Het kind bezit de vaardigheid om de richting van de ogen, blik, hoofdbeweging of gebaren te lezen om af te leiden waar de aandacht van de persoon naartoe gaat (Sullivan et al., 2007). Het volgen van joint attention heeft een voorspelbaar ontwikkelingsverloop (Cassel et al., 2006). Vanaf 6 maanden kunnen kinderen naar dezelfde kant van de kamer kijken waar de volwassene naar kijkt, maar het object zelf moet in hun visuele veld staan en het bepalen van het object zelf lukt nog niet (Butterworth & Jarrett, 1991). Volgens Corkum & Moore (1998) is het volgen van een blik pas aanwezig bij kinderen rond 10 maanden. Tussen 12 en 15 maanden kunnen kinderen een doel dat verder af ligt beter lokaliseren en slagen ze er in de blik van de onderzoeker te volgen. Op 18 maanden zijn kinderen in staat om ook objecten achter zich te lokaliseren en de blik te volgen (Butterworth & Jarrett, 1991). Het volgen van joint attention (RJA) wordt gezien als een belangrijke mijlpaal in de ontwikkeling van verschillende sociale en communicatieve gedragingen die ontstaan in het tweede levensjaar, zoals taalverwerving en sociaal cognitieve ontwikkeling (Baldwin et al., 1996). Morales et al. (2000) vonden associaties tussen RJA en latere taalontwikkeling bij kinderen tussen 6 en 18 maanden. Ook Sullivan et al. (2007) geven aan dat RJA de latere receptieve en expressieve taalontwikkeling op 24 maanden voorspelt. Dit houdt bijvoorbeeld in dat kinderen, door het delen van de aandacht naar een bepaald object, een woord leren kennen en begrijpen.

De tweede functie is het initiëren van joint attention (IJA); dit staat voor het gebruik maken van gebaren en blikken om iemands aandacht te trekken of om te communiceren over een object of gebeurtenis. Op de leeftijd van 9 à 12 maanden worden kinderen bewust dat ze met hun gedrag doelgericht gedrag bij anderen kunnen teweegbrengen (Mundy & Newell, 2007). Kinderen beginnen te wijzen naar zaken om aandacht te delen rond 11 à 12 maanden (Carpenter, Nagell, Tomasello, 1998). Vanaf 12 maanden beginnen kinderen hun blik intentioneel te gebruiken door afwisselend van een persoon naar een object te kijken

(Smith & Ulvund, 2003). Cassel et al. (2007) geven aan dat IJA- gedragingen voorlopers zijn van taal en enorm belangrijke voorspellers kunnen zijn voor latere verschillen in sociale, cognitieve en gedragscompetenties. Kinderen zullen eerst gebruik maken van non-verbale communicatie zoals oogcontact. Wanneer ze taal beginnen te gebruiken zullen ze meer ontwikkelende vormen van communicatie gebruiken zoals woorden (Yoder et al., 2009).

In onderzoek maakt men bovendien een onderscheid in de functies van het gedrag joint attention. Het gedrag kan eerder imperatief of instrumenteel zijn wat inhoudt dat de persoon met zijn gedrag iets instrumenteel wil bekomen zoals het verkrijgen van speelgoed. Mundy et al. (2007) spreken in dit geval van het initiëren van verzoekgedrag ('initiating behaviour requests' (IBR)), wat het verzoeken naar hulp of een object inhoudt. Dit is bijvoorbeeld oogcontact maken of het wijzen om een speelgoedje te verzoeken. Daarnaast spreken ze ook van het volgen van verzoekgedrag ('responding to behaviour requests' (RBR)), wat de mogelijkheid om correct te antwoorden op verzoeken als 'geef het aan mij' inhoudt. Daarnaast kan het gedrag eerder declaratief zijn. Hier staat het sociale aspect voorop, zoals het willen vragen naar aandacht om opgepakt te worden of om plezier te delen (Tomasello, Carpenter & Liszkowki, 2007; Yoder et al., 2009)

1.6.2 Joint attention bij kinderen met autisme en siblings

Kinderen met autisme vertonen kerntekorten die zich bevinden in het initiëren van en het volgen van joint attention en in het gebruik maken van verzoekgedrag (voor een samenvatting zie Bruinsma, Koegel & Koegel, 2004; Charman et al., 1998). Tekorten in joint attention die zich op vroege leeftijd ontwikkelen, kunnen volgens Presmanes et al. (2007) leiden tot een verarmde sociale input in het vroege leven van kinderen. Ze vertonen daardoor moeilijkheden in het interpreteren van communicatieve en intentionele duidingen van anderen. Joint attention heeft bijgevolg een belangrijke invloed op de sociale, communicatieve en taalontwikkeling waarin kinderen met autisme vaak tekorten en problemen vertonen. Individuele verschillen in de vaardigheden van joint attention tussen kinderen zijn gerelateerd aan individuele verschillen op het vlak van taal- en cognitieve ontwikkeling, sociale competenties en zelfregulatie (Morales et al. 2000).

Wanneer er gekeken wordt naar joint attention bij siblings van kinderen met autisme ziet men dat ook zij tekorten kunnen vertonen in de gedeelde aandacht op 12 en 24 maanden, wat bovendien implicaties inhoudt voor de sociale, cognitieve en communicatieve ontwikkeling, ongeacht de uiteindelijke klinische diagnostische status (Presmanes et al., 2007). Onderzoek rond joint attention (RJA) bij jonge siblings, van kinderen met autisme geven verschillende resultaten weer, wat voornamelijk veroorzaakt wordt door het gebruik van verschillende onderzoeksmethoden (Rogers, 2009). Wanneer gekeken wordt naar het volgen van joint attention kan er opgemerkt worden dat Goldberg et al. (2005) en Toth et al., (2007) vaststellen dat er geen verschillen zijn bij siblings op het vlak van RJA in vergelijking met de controlegroep. Er wordt wel aangegeven dat ze een lager niveau van taalontwikkeling vertonen op 14 maanden en dat ze minder gebaren gebruiken. Cassel et al. (2007), Presmanes et al. (2007) en Sullivan et al. (2007) vinden daarentegen wel significante verschillen bij de hoge risicokinderen op het vlak van het volgen van joint attention tussen 12 en 24 maanden. De groep van siblings die autisme ontwikkelt, vertoont geen moeilijkheden bij het interpreteren van aanduidingen waarbij zowel hoofdbeweging, als verbale informatie en gebaren gebruikt worden, maar wel bij het volgen van een blik gecombineerd met verbale informatie (Presmanes et al., 2007; Sullivan et al., 2007). Bovendien worden er associaties vastgesteld tussen RJA en taalontwikkeling bij hoge risicokinderen.

Cassel et al (2007) vinden significante verschillen bij kinderen die later geen autisme ontwikkelen, maar wel het breder fenotype vertonen, en de siblings die later geen autisme ontwikkelen. Siblings die moeilijkheden hebben bij het volgen van joint attention hebben een hoger risico op het breder fenotype. Bij siblings die later geen autisme ontwikkelen stellen Presmanes et al. (2007) geen significante correlaties vast tussen RJA, taal- of sociaal-communicatieve ontwikkeling terwijl dit wel significant correleert bij siblings die later autisme ontwikkelen.

Op het gebied van IJA vinden Cassel et al. (2007) bewijzen voor het feit dat siblings die later autisme ontwikkelen op 15 maanden een lagere graad van IJA vertonen. De bevindingen van Goldberg et al. (2005) sluiten hierbij aan en rapporteren dat siblings die later autisme ontwikkelen tekorten vertonen in IJA en niet significant verschillen van hun oudere zus of broer met autisme op 17 maanden. Yoder et al. (2009) concluderen dat IJA gerelateerd is aan de latere sociale ontwikkeling van de sibling. Daartegenover stelden Yirmiya et al. (2006) geen significante tekorten in IJA vast in deze groep op 14 maanden. Toth et al. (2007) concluderen dat siblings die later geen autisme ontwikkelen geen

verschillen vertonen op het vlak van frequentie van JA in vergelijking met lage risicokinderen.

Mundy et al. (2007) bespreken het feit dat de kinderen waarbij men joint attention onderzoekt niet enkel systematisch leeftijdsgerelateerde veranderingen vertonen in bepaalde types van joint attention, maar ook een wijde verscheidenheid vertonen in betekenisvolle individuele verschillen. De continuïteit in de ontwikkeling van individuele verschillen van 9 tot 18 maanden is vooral aanwezig bij het gebruik van oogcontact (IJA) en het volgen van de blik (RJA) (Mundy et al., 2007).

Als conclusie kan gesteld worden dat er heel wat inconsistentie terug te vinden is in de resultaten van siblingonderzoek in verband met joint attention en andere sociaal-communicatieve vaardigheden. Er kan gesteld worden dat siblings van kinderen met autisme een grotere kans hebben om problemen te vertonen op deze gebieden, voornamelijk in het tweede levensjaar (Rogers, 2009). Het ontwikkelen van joint attention is een belangrijke mijlpaal in de sociale ontwikkeling en in de taalverwerving (Baldwin et al., 1996). Tekorten hierin zouden een eerste aanwijzing kunnen zijn van het breder fenotype van autisme. Niet iedere sibling zal het breder fenotype van autisme vertonen, maar degenen met de meeste tekorten in joint attention en andere vaardigheden zullen een hoger risico lopen (Presmanes, 2007). De tekorten die zij vertonen kunnen zich verder ontwikkelen, waardoor er ook bij hen nood kan zijn aan vroege interventie (Barbaro & Dissanayake, 2009).

1.7 Probleemstelling

In recent onderzoek rond autismespectrumstoornissen (ASS) focust men zich voornamelijk op het in kaart brengen van de vroege kenmerken van de stoornis. Men stelt vast dat indien vroeger gestart kan worden met interventie, dit de beste prognose biedt voor de verdere ontwikkeling van kinderen met een autismespectrumstoornis (Barbaro & Dissanayake, 2009). In deze context ontstond er een onderzoeksveld bij kinderen met een hoger risico op een autismespectrumstoornis, zoals bij broers en zussen van kinderen met autisme (siblings). Uit onderzoek blijkt dat de meerderheid van de siblings niet de volledige triade van autisme vertonen, maar wel een mildere expressie, meer bepaald 'het breder fenotype van autisme' (Landa & Garrett-Mayer, 2006; Rogers, 2009). Steeds meer

onderzoek richt zich op het in kaart brengen van het continuüm van tekorten die bij deze groep van siblings kan worden opgemerkt (Yoder et al., 2009).

Sociaal-communicatieve tekorten zijn opvallende kenmerken van autismespectrumstoornissen en het breder fenotype; ze worden als een belangrijk onderdeel voor vroege detectie en interventie gezien. Een belangrijke voorloper en een primaire vaardigheid van de sociale, communicatieve en taalvaardigheden is joint attention. Een kritieke fase in de ontwikkeling van deze vaardigheid is het tweede levensjaar (Barbaro & Dissanayake, 2009). Uit verschillende onderzoeken blijkt dat kinderen met autisme en siblings van kinderen met autisme problemen vertonen op het gebied van joint attention (Cassel et al., 2007; Goldberg et al., 2005; Presmanes et al., 2007). Indien de ontwikkeling van deze vaardigheid en bijhorende processen bij siblings van kinderen met autisme beter in beeld gebracht worden, kunnen de tekorten ook vlugger worden opgemerkt en kan de kennis rond het breder fenotype van autisme toenemen. Niet enkel de verschillen tussen siblings en controlekinderen dienen onderzocht te worden, maar ook het continuüm van tekorten en problemen binnen de groep van siblings dient bekeken te worden (Yoder et al., 2009). Naast het kijken op groepsniveau lijkt het bijgevolg interessant om te kijken naar individuele verschillen tussen siblings.

Heel wat inconsistente conclusies zijn terug te vinden in onderzoek naar de sociaal-communicatieve ontwikkeling bij siblings van kinderen met autisme. Vooral over de groep siblings die later geen autisme ontwikkelt, is er nog maar weinig geweten (Rogers, 2009). Toth et al. (2007) zijn tot nu toe de enige onderzoekers die zich enkel en alleen op deze groep siblings concentreerden. Aansluitend onderzoek is nodig om na te gaan of hoge risicokinderen die geen autisme ontwikkelen ook ontwikkelingsvertragingen vertonen op 12 maanden en op latere leeftijd (Rogers, 2009).

In deze masterproef trachten we antwoord te bieden op verschillende onderzoeksvragen en een bijdrage te leveren tot het onderzoek rond vroege sociaal-communicatieve vaardigheden bij siblings van kinderen met autisme. Een eerste onderzoeksvraag is of siblings van kinderen met autisme, die zelf geen autisme ontwikkelen, verschillen vertonen in joint attention vaardigheden en de ontwikkelingsleeftijd op 12 maanden in vergelijking met typisch ontwikkelende kinderen (controlegroep). Hier zal zowel gekeken worden naar het initiëren van joint attention (IJA), als naar het volgen van joint attention (RJA) en de verschillende ontwikkelingsdomeinen bij beide groepen. Op 12 maanden wordt er bij siblings van kinderen met autisme die zelf

autisme ontwikkelen wel een vertraging in de (non)verbale communicatie verwacht. Over de siblings van kinderen met autisme die later echter geen autisme ontwikkelen is daarentegen weinig onderzoek te vinden. Enkel op basis van het onderzoek van Toth et al. (2007) verwacht men op 18 en 27 maanden wel minder sociaal-communicatief gedrag, maar geen verschillen op het gebied van RJA en IJA. Siblings blijken op het ontwikkelingsdomein van receptieve en expressieve taal tekorten te vertonen op 18 maanden in vergelijking met typisch ontwikkelende kinderen (Toth et al., 2007).

Een tweede onderzoeksvraag is of de vaardigheden op het vlak van IJA, RJA en het ontwikkelingsniveau op 12 maanden binnen de groep van de siblings voorspellend zijn voor (eventuele tekorten inzake) de taalontwikkeling en de score op de ADOS op 18 maanden. Uit de literatuur wordt bij siblings, van kinderen met autisme, die zelf autisme ontwikkelen verwacht dat IJA en RJA wel voorspellend zullen zijn op het vlak van taalontwikkeling en de uitkomst op de ADOS (Cassel et al., 2007; Sullivan et al., 2007). Bovendien wordt verwacht dat de ontwikkelingsgebieden receptieve en expressieve taal op 12 maanden voorspellend zullen zijn voor de taalontwikkeling en uitkomst op de ADOS op 18 maanden (Landa & Garrett-Mayer, 2006).

2 Methode

2.1 Deelnemers

De deelnemers aan deze studie participeerden aan een longitudinaal onderzoek waarbinnen siblings van kinderen met autisme opgevolgd werden van 7 tot 48 maanden in het kader van een onderzoek naar vroege sociaal-communicatieve vaardigheden. De huidige steekproef bevat 18 siblings van kinderen met een autismespectrumstoornis die zowel op 12 als op 18 maanden deelnamen aan het onderzoek. De siblings die op latere leeftijd de diagnose autismespectrumstoornis kregen, werden uit de steekproef verwijderd omdat de focus van dit onderzoek op het breder autisme fenotype ligt. De siblings werden gerekruteerd via een brief aan de ouders van een kind met autisme. De meesten werden opgevolgd in het COS van Gent of hadden eerder deelgenomen aan een onderzoek. De controlegroep bestond uit 32 siblings van kinderen met een normale ontwikkeling. Zij werden gezocht via Vlaamse kinderdagverblijven. Alle kinderen zijn onderzocht op een leeftijd die zo dicht mogelijk bij de leeftijd van 12 maanden lag en de siblings werden opnieuw gezien rond de leeftijd van 18 maanden. De gemiddelde leeftijd tijdens het onderzoek op 12 maanden was bij de siblings 12.26 maanden en bij de controlekinderen 12.16 maanden. De gemiddelde leeftijd tijdens het onderzoek op 18 maanden bij de siblings was 18.31 maanden. Tussen beide groepen werd geen significant verschil gevonden op het gebied van de leeftijd op 12 maanden en geslacht (zie Tabel 1).

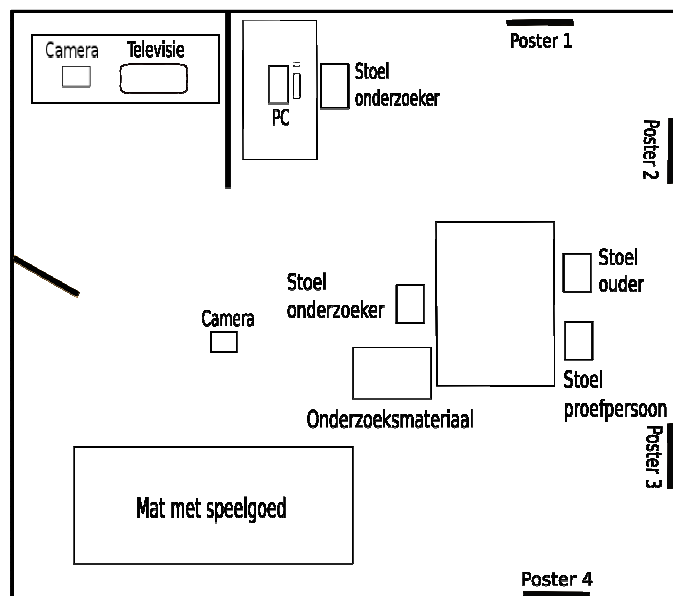
Tabel 1. *Algemene gegevens van de siblings en controlekinderen.*

| | Siblings (n=18) | Controle (n=32) | Test (df) |
|--------------------------|---------------------------|---------------------------|---------------------|
| Leeftijd 12 maand | | | |
| M (SD) | 12.29 (0.36) | 12.13 (0.17) | t(17)=1.492 |
| Bereik | 11.70 - 13.03 | 11.80 - 12.43 | |
| Leeftijd 18 maand | | | |
| M(SD) | 18.31 (0.79) | / | / |
| Bereik | 17.57 - 21.20 | | |
| Geslacht | | | |
| M:V | 8:10 | 19:13 | χ^2 (1)= 1.034 |

/ = controlegroep niet opgenomen in onderzoek op 18 maanden

2.2 Procedure en verloop

Via een gestandaardiseerd protocol werden zowel de siblings als de controlekinderen onderzocht op de verschillende leeftijden. Dit houdt in dat het observeren niet incidenteel verliep, wat het mogelijk maakt om de data systematisch met elkaar te vergelijken. De onderzoeksruijnte was een observatielaboratorium (4m x 7m) in de Faculteit Psychologie en Pedagogische Wetenschappen in de Universiteit Gent. De ramen in de kamer werden afgeschermd met een gordijn zodat het kind niet afgeleid kon worden door zaken die buiten gebeurden. De reacties, gezichtsuitdrukkingen en houding van het kind werden door 2 camera's opgenomen. Aan de ene kant van de kamer lag er een speelmat op de vloer, waar het kind kon spelen en tijd kreeg om te wennen aan de nieuwe situatie. Verderop stond er een televisiescherm en een camera, maar dit stond nog steeds in het gezichtsveld van het kind. Naast de televisie stond er een afscheiding waarachter zich een bureau met laptop bevond. Hier ging het eerste deel van het onderzoek door; dit richtte zich op het initiëren van joint attention (IJA). Aan de andere kant van de kamer stond een tafel waar, aan de ene kant, het kind en de ouder plaatsnamen en, aan de andere kant, de onderzoeker. Het kind mocht, indien het dit wilde, op de schoot van de ouder zitten tijdens het onderzoek. Er hing een poster van Winnie The Pooh® zowel rechts als links van het kind, en een poster links en rechts achter het kind. Naast de onderzoeker stond een tafel met het onderzoeksmateriaal in het zicht, maar buiten het bereik, van het kind. Hier werd het tweede deel van het onderzoek afgenomen met als focus het volgen van joint attention (RJA), een tweede taak in verband met joint attention (IJA) en de Mullen Scales of Early Learning (MSEL, Mullen, 1995).



Figuur 1. Onderzoekruimte

Tijdens de verwelkoming werd aan de ouders uitgelegd hoe het onderzoek zou verlopen en wat er getest zou worden. De ouders werden ingelicht dat er in het eerste deel van het onderzoek, waar gefocust werd op IJA tijdens een onverwachte gebeurtenis, zaken gingen verschijnen op de televisie. Er werd hen duidelijk gemaakt dat het de bedoeling was om spontane reacties van het kind te zien, waar zowel de ouders als de onderzoeker dus zelf zo weinig mogelijk gingen reageren op zaken die gebeurden tijdens het onderzoek. Wanneer het kind naar de ouder keek en het om een reactie vroeg, werd aangegeven dat de ouder kort mocht reageren op wat hun kind duidelijk wilde maken. Wanneer er overgegaan werd naar een volgende test, werd dit aan de ouder meegedeeld. Vooraleer het onderzoek van start ging, kreeg het kind de tijd om te wennen aan de ruimte en aan de onderzoeker. Voor het onderzoek werd een informed consent ingevuld en ondertekend door de ouders. Deze konden op elk moment het onderzoek stopzetten indien ze dit wensten.

2.3 Metingen

2.3.1 Joint attention

Op het vlak van joint attention werd op de leeftijd van 12 maanden gekeken naar zowel het volgen (RJA) als naar het initiëren (IJA) van joint attention. Het initiëren van joint attention werd tijdens het onderzoek op twee verschillende momenten getest. Het

initiëren van joint attention werd uitgelokt enerzijds tijdens een gestructureerd spelmoment, anderzijds op een onverwacht moment. Dit omwille van het feit dat de context waarin het kind zich bevindt een invloed kan hebben op het gedrag van joint attention (Roos, McDuffie, Weismer & Gernsbacher, 2008). In de eerste situatie werd verwacht dat kinderen meer initiërend gedrag zouden vertonen omdat de situatie duidelijk gestructureerd en uitlokkend was.

Initiëren van joint attention (IJA) – spel. Deze taak is gebaseerd op the Early Social Communication Scales (ESCS, Mundy, 2003). De ESCS is een gestructureerde observatiemethode die op video wordt opgenomen om vroege non-verbale communicatieve vaardigheden te beoordelen tussen 8 en 30 maanden. Voor dit onderzoek werd een bepaalde taak geselecteerd uit de ESCS. De vaardigheid IJA werd in dit deel onderzocht tijdens een gestructureerde interactie tussen onderzoeker en kind om de frequentie van pogingen tot het delen van aandacht te registreren. Dit wordt '*IJA spel*' genoemd. De onderzoeker en het kind zaten aan een tafel recht tegenover elkaar. Een mechanisch speelgoedje werd buiten het bereik van het kind geactiveerd. De onderzoeker keek stil, maar aandachtig naar het kind. Wanneer het kind opkeek, werd er een korte natuurlijke respons gegeven. Dit werd driemaal herhaald. Bij deze taak werd gekeken naar de declaratieve gedeelde aandacht. Voor het scoren van IJA werd gekeken naar de frequentie van (Mundy et al., 2003):

- (1) het maken van oogcontact met de onderzoeker wanneer deze met het speelgoedje bezig is;
- (2) het afwisselend kijken van het speelgoedje naar de onderzoeker;
- (3) wijzen naar het actief mechanisch speelgoedje met of zonder oogcontact;
- (4) het tonen van een object door het in het gezichtsveld te houden van de onderzoeker gecombineerd met oogcontact.

(1) en (2) werden gecombineerd in een '*IJA spel laag*' score, (3) en (4) werden gecombineerd in '*IJA spel hoog*' score. De '*IJA spel*' score houdt de totale frequentie in van alle vier de gedragingen. Om de reacties van kinderen te kunnen vergelijken, werd de duur van de opdracht mee in rekening gebracht. Hoe frequent het kind het gedrag vertoonde per minuut, bepaalde de IJA scores. De interbeoordelaarsbetrouwbaarheid werd bereikt door het dubbel coderen van 20% van de observaties, wat resulteerde in een intraclass coëfficiënt van 0.86.

Initiëren van joint attention (IJA) – gebeurtenis. Het initiëren van joint attention werd uitgelokt en gemeten door het kind te confronteren met een onverwachte gebeurtenis. Terwijl het kind vrij speelde op de speelmat in de onderzoeksruijnte, ging de onderzoeker bij de computer zitten en drukte op een knop zodat enkele seconden later een video startte. De onderzoeker ging voor het starten van de video terug op de mat bij het kind zitten. Drie videoclips van elk 30 seconden verschenen op het televisiescherm. Tijdens het filmpje bleef de onderzoeker neutraal en keek stil naar het kind. Iedere keer het kind oogcontact zocht, gaf de onderzoeker kort iets aan: ‘oh’, ‘heb je iets gezien?’, ‘wat zie je?’, ‘ja’, ‘leuk hé’. Deze reacties waren vooraf vastgelegd zodat bij ieder kind op eenzelfde manier gereageerd werd en het achteraf mogelijk was te weten hoe frequent het kind oogcontact gemaakt had. Enkel wanneer het kind afwisselend van de onderzoeker naar het scherm keek, ging de onderzoeker kort meekijken.

Het aantal initiërende gedragingen per minuut werd gemeten en werd ‘*IJA gebeurtenis*’ genoemd. Analoog aan de IJA-spel variabele werd ook hier een onderscheid gemaakt tussen enerzijds ‘*IJA gebeurtenis laag*’ (het aantal keren dat het kind oogcontact maakte en afwisselend van het scherm naar de onderzoeker keek) en anderzijds ‘*IJA gebeurtenis hoog*’ (het aantal keren dat het kind wees naar het scherm). Met deze taak werd gekeken naar declaratieve gedeelde aandacht omdat de focus hierbij ligt op het delen van plezier en niet op het instrumenteel verzoeken van een object. De interbeoordelaarsbetrouwbaarheid werd bereikt door het dubbel coderen van 30% van de observaties, wat resulteerde in een intraclass coëfficiënt van 0.91.

Volgen van joint attention (RJA). De taak van het volgen van joint attention was ook gebaseerd op de ESCS (Mundy et al., 2003) en werd afgenomen op de leeftijd van 12 maanden. Op een afstand van het kind werden vier kleurrijke posters van Winnie The Pooh® aan de muur gehangen. Twee posters hingen op 90° aan de linker- en rechterkant van het kind, de andere twee bevonden zich op 165°, zowel links als rechts, achter het kind. De onderzoeker trachtte de aandacht van het kind te zoeken door drie keer de naam van het kind te noemen en daarna zijn hoofd te draaien in de richting van één van de posters. Dit werd herhaald voor alle vier de posters. Wanneer, na drie keer de naam te hebben genoemd, het kind niet keek, wees de onderzoeker bij het kijken naar de laatste twee posters en bleef hij zich visueel fixeren op de poster.

Het volgen van joint attention werd genoteerd indien het kind gedurende minstens 3 seconden naar de poster keek of gedurende minstens 3 seconden de blikrichting van de

onderzoeker volgde. Het kind moest niet noodzakelijk gefixeerd kijken naar de poster om positief te scoren. De kinderen kregen een RJA niveauscore, variërend van 0 tot 4:

0= niet volgen;

1 = volgen van wijzen naar poster binnen het gezichtsveld (voor);

2 = volgen van wijzen naar poster buiten het gezichtsveld (achter);

3 = volgen van blik naar poster binnen het gezichtsveld (voor);

4 = volgen van blik naar poster buiten het gezichtsveld (achter).

De stijgende moeilijkheidsgraad hierbij vinden we terug in literatuur rond de normale ontwikkeling van het volgen van joint attention (Deák, Flom & Pick, 2000). De interbeoordelaarsbetrouwbaarheid werd bereikt door het dubbel coderen van 30% van de observaties, resulterend in een Kappa score van 0.95.

2.3.2 Ontwikkelings- en taalniveau

De Mullen Scales of Early Learning (MSEL, Mullen, 1995) is een gestandaardiseerde test om de ontwikkelingsleeftijd van een kind tussen de geboorte en 68 maanden na te gaan. Zowel bij de siblings als de controlekinderen werd deze afgenomen op 12 maanden. Deze gaat zowel de cognitieve, motorische als taalvaardigheden na en wordt opgedeeld in 5 ontwikkelingsdomeinen: grove motoriek, fijne motoriek, visuele perceptie, taalbegrip en taalproductie. Naast een algemene score (ontwikkelingsindex) over de 5 ontwikkelingsdomeinen heen, geeft de MSEL ook percentielscores per domein. De afname van de test op 12 maanden duurt gemiddeld 30 minuten. De ontwikkelingsleeftijd op 12 maanden verschilt niet significant tussen beide groepen (zie Tabel 2). Op 18 maanden werd deze test niet opnieuw afgenomen om de kinderen niet te overbevragen.

Op 18 maanden werden de taalvaardigheden van de siblings nagegaan, gebruik makend van de N-CDI vragenlijst (Zink & Lejaegere, 2002). Dit is de vertaalde en gestandaardiseerde versie van de Mac Arthur CDI (Fenson et al., 1993) en is een vragenlijst die aan de ouders werd meegegeven met de vraag deze ingevuld terug te sturen naar de universiteit. De N-CDI (Woorden en Zinnen) staat voor een oudervragenlijst om de taalontwikkeling bij kinderen tussen 16 en 30 maanden na te gaan. De lijst leidt tot een score van het aantal woorden dat het kind begrijpt (woordbegrip of receptieve taal) en een score voor het aantal woorden dat het kind zelf gebruikt (woordproductie of expressieve

taal). De responsrate in dit onderzoek bedroeg 72%. In Tabel 2 staat er een overzicht van de resultaten op de ontwikkelings- en taaltesten.

2.3.3 Kenmerken van autisme

Op 18 maanden werd de Autism Diagnostic Observation Schedule (ADOS, Lord, Rutter, DiLavore & Risi, 1999) afgenomen. Dit is een semigestructureerde spelobservatie die de kernsymptomen van autisme nagaat op het gebied van sociale interactie, communicatie en spel/verbeelding. Deze test kan, samen met aanvullend onderzoek, gebruikt worden om de diagnose van autisme te onderbouwen. Afhankelijk van het expressieve taalniveau van het kind zijn er verschillende modules uitgebouwd. In dit onderzoek werd gebruik gemaakt van module 1 die vooral speelse activiteiten bevat voor kinderen die nog niet of nauwelijks praten. In Tabel 2 bevindt zich een overzicht van de ADOS- gegevens van de sibilings.

Tabel 2. *Ontwikkelingsniveau, taalniveau en kenmerken van autisme bij de siblings en controlekinderen.*

| | Siblings | Controle | T-test (df) |
|---|-----------------|-----------------|--------------------|
| Ontwikkelingsniveau:MSEL 12m | N=17 | N=32 | -0.769 (47) |
| Ontwikkelingsindex | | | |
| M (SD) | 101.47 (15.14) | 103.91 (10.50) | |
| Bereik | 78 - 127 | 87 - 116 | |
| Taalniveau: NCDI 18m | N= 13 | | |
| Woordbegrip | | | |
| M(SD) | 152.23 (82.12) | / | / |
| Bereik | 70 - 307 | / | / |
| Woordproductie | | | |
| M(SD) | 32.08 (18.01) | | |
| Bereik | 2 - 60 | | |
| Autismekenmerken:ADOS 18m | N=17 | | |
| Sociaal | | | |
| M(SD) | 1.00 (1.41) | | |
| Bereik | 0 - 4 | / | / |
| Communicatie | | | |
| M(SD) | 2.47 (1.91) | | |
| Bereik | 0 - 6 | | |
| Totaal | | | |
| M(SD) | 3.47 (2.87) | | |
| Bereik | 0 - 9 | | |

/ = controlegroep niet opgenomen in onderzoek op 18 maanden

3 Resultaten

Vooraleer gestart werd met de statistische analyses, werd nagegaan of alle variabelen normaal verdeeld waren. Uit een Kolmogorov-Smirnov test bleek dat IJA gebeurtenis hoog ($KS = 2.63, p < 0.05$), IJA spel hoog ($KS = 2.06, p < .05$), MSEL visueel receptief ($KS = 1.86, p < 0.05$), MSEL receptieve taal ($KS = 2.18, p < .05$) en ADOS communicatie ($KS = 1.44, p < .05$) niet normaal verdeeld waren. De RJA variabele 'RJA niveau score' was bovendien van ordinaal niveau, daardoor werd beslist om voor alle toetsen non-parametrisch te testen; de groepsgemiddelden werden vergeleken met de Mann-Whitney U test, de correlaties werden bekeken met de Spearman's Rho test en twee afhankelijke samples werden vergeleken met de Wilcoxon Signed Rank test. Bij de variabelen die normaal verdeeld waren, werd zowel parametrisch als niet-parametrisch getoetst, ter controle. Hieruit bleek dat beide toetsresultaten leidden tot dezelfde conclusies. In de tabellen worden ook het gemiddelde en de standaarddeviatie per toets weergegeven (M (SD)). Deze zijn louter informatief bedoeld, om de interpretatie van de resultaten te vergemakkelijken. Gezien de kleine groep en de exploratieve aard van het onderzoek, werd ervoor gekozen om geen strenge Bonferonni correctie toe te passen. We rapporteren dan ook geen trends ($p < .10$), maar enkel significantieniveaus ($p < .05$). Bij de interpretatie wordt er rekening mee gehouden dat de resultaten ook toeval kunnen zijn.

3.1 Onderzoeksvraag 1

Is er op de leeftijd van 12 maanden een verschil op het vlak van IJA (spel en gebeurtenis), RJA (niveauscore) en ontwikkelingsniveau tussen de siblinggroep en de controlegroep?

3.1.1 Joint attention

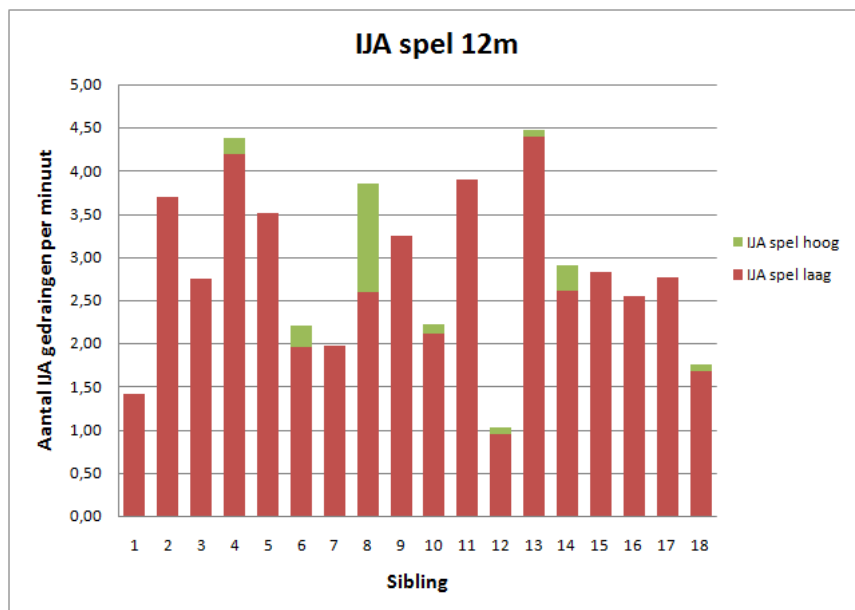
Initiëren van joint attention (IJA) - spel. De frequentie per minuut van beide groepen werd met elkaar vergeleken. De resultaten worden weergegeven in Tabel 3. Hieruit valt af te leiden dat er geen significante verschillen zijn tussen de siblings van kinderen met autisme en de controlegroep op het vlak van IJA spel. Uit een Wilcoxon test bleek dat zowel siblings als controlekinderen op 12 maanden meer lage vormen van IJA vertonen dan

hoge vormen, tijdens een gestructureerd spelmoment (respectievelijk $Z = -3.724$, $p < .01$ en $Z = -4.918$, $p < .01$). Figuur 2 biedt een overzicht van de individuele data van de siblings.

Tabel 3. Groepsgemiddelden en bijhorende Mann-Whitney U toetsen van IJA- spel bij de siblings en controlekinderen.

| IJA spel | Siblings (n=18) | | Controle (n=32) | | Mann-Whitney U |
|----------|-------------------|----------------|-------------------|----------------|----------------|
| | MR (SR) | M (SD) | MR (SR) | M (SD) | |
| Laag | 29.11 (524.00) | 2.73 (0.96) | 23.47 (751.00) | 2.41 (1.17) | U= 223.000 |
| Hoog | 24.28 (437.00) | 0.13 (0.29) | 26.19 (838.00) | 0.15 (0.25) | U=266.000 |
| Totaal | 29.11 (524.00) | 2.86 (0.99) | 23.47 (751.00) | 2.56 (1.14) | U=223.000 |

Noot. MR = Mean Rank; SR = Sum of Ranks



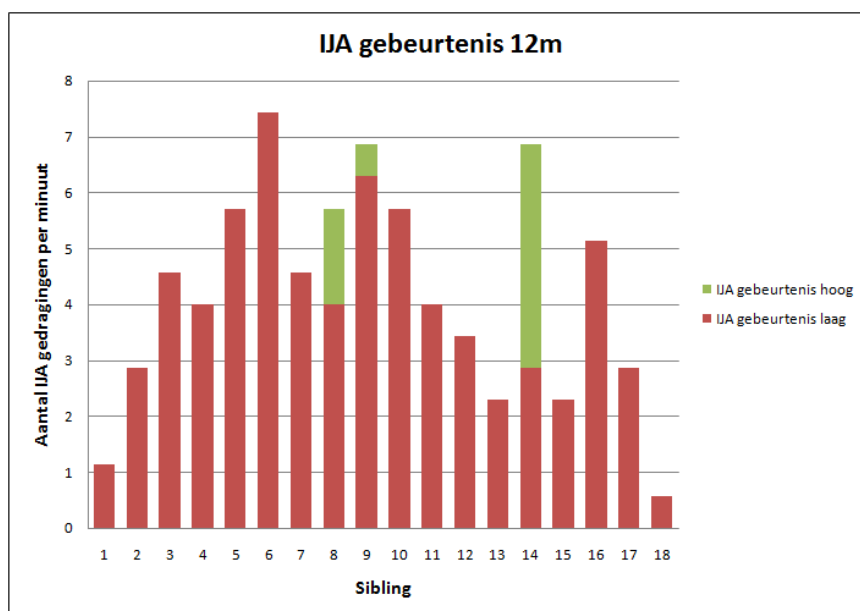
Figuur 2. IJA spel van de siblings op 12 maanden.

Initiëren van joint attention (IJA) - gebeurtenis. De frequentie per minuut van de variabele IJA gebeurtenis werd vergeleken tussen beide groepen. Uit de resultaten, weergegeven in Tabel 4, bleek dat er geen significant verschil is tussen de beide groepen op

het vlak van IJA gebeurtenis. Analoog aan het IJA spel, bleek uit een Wilcoxon test dat lagere vormen van IJA zowel bij de siblings als bij de controlekinderen meer gebruikt worden op 12 maanden dan hogere vormen van IJA tijdens een onverwachte gebeurtenis (respectievelijk $Z = -3.619, p < .01$ en $Z = -4.827, p < .01$). De individuele data van de siblings worden in beeld gebracht in Figuur 3.

Tabel 4. Groepsgemiddelden en bijhorende Mann-Whitney U toetsen van IJA- gebeurtenis bij de siblings en controlekinderen.

| IJA gebeurtenis | Siblings (n=18) | | Controle (n=32) | | Mann-Whitney U |
|-----------------|-------------------|----------------|-------------------|----------------|----------------|
| | MR (SR) | M (SD) | MR (SR) | M (SD) | |
| Laag | 24.06 (433.00) | 3.87 (1.79) | 26.31 (842.00) | 4.29 (2.49) | U= 262.000 |
| Hoog | 21.81 (392.50) | 0.35 (1.00) | 27.58 (882.50) | 0.39 (0.59) | U= 221.500 |
| Totaal | 24.11 (434.00) | 4.22 (1.98) | 26.28 (841.00) | 4.68 (2.60) | U= 263.000 |

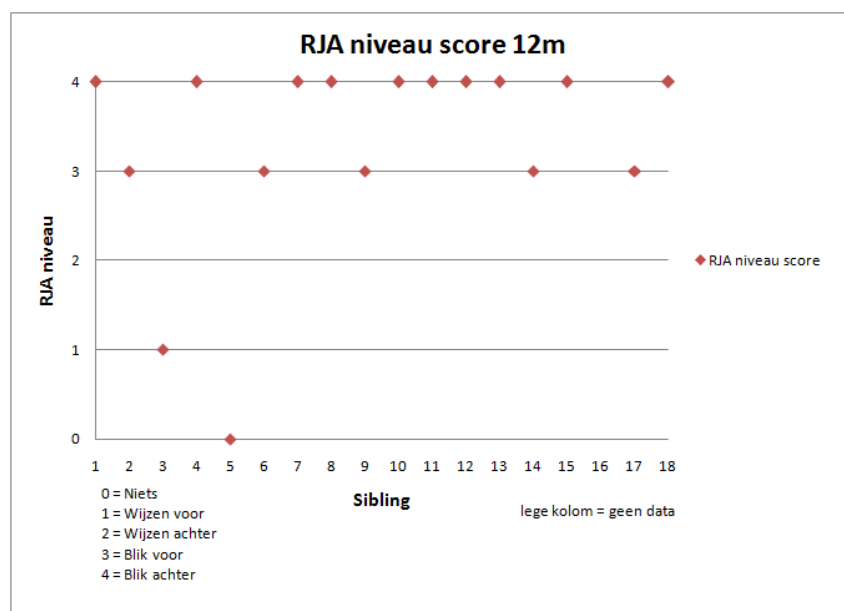


Figuur 3. IJA gebeurtenis van de siblings op 12 maanden.

Volgen van joint attention (RJA). De resultaten in Tabel 5 geven geen significante verschillen weer tussen de twee groepen op het vlak van RJA niveau score. 88% van de siblings slaagt er in om de blikrichting van de onderzoeker te volgen; hiervan slaagt 59% er in om de blik naar een poster achter zich te volgen. 77% van de controlekinderen slaagt er in om de blikrichting van de onderzoeker te volgen, waarvan 37% er in slaagt om de blik te volgen naar een poster achter zich. Figuur 4 biedt een overzicht van de individuele data van de siblings.

Tabel 5. Groepsgemiddelden en bijhorende Mann-Whitney U toets van de RJA- resultaten bij de siblings en controlekinderen.

| | Siblings (n=17) | | Controle (n=32) | | Mann-Whitney U |
|--------------|-------------------|----------------|-------------------|----------------|----------------|
| RJA | MR (SR) | M (SD) | MR (SR) | M (SD) | |
| Niveau score | 28.53 (485.00) | 3.29 (1.16) | 23.13 (740.00) | 2.94 (1.19) | U= 212.000 |



Figuur 4. RJA niveau score van de siblings op 12 maanden.

Correlaties tussen IJA onderling en IJA en RJA. Uit de resultaten in Tabel 6 (Spearman rangcorrelatiecoëfficiënten) blijkt dat het initiëren van joint attention op een

onverwacht moment (IJA gebeurtenis) en het initiëren van joint attention op een gestructureerd spelmoment (IJA spel) positief met elkaar correleren bij de controlegroep ($\rho = 0.490, p < .01$), maar niet bij de siblings. Deze correlatie van beide groepen werd met elkaar vergeleken door een Fisher transformatie toe te passen. Hieruit blijkt dat de correlatie tussen beide waarden niet significant verschillend is tussen de siblings en de controlekinderen ($z = -1.36, p = .0869$). Uit een Wilcoxon test bleek dat zowel de siblings als de controlekinderen meer IJA gedragingen vertonen tijdens IJA spel dan tijdens IJA gebeurtenis ($Z = -2.199, p < .05$ en $Z = -4.282, p < .01$).

Tabel 6. Spearman rangcorrelaties tussen de verschillende joint attention vaardigheden op 12 maand

| | IJA gebeurtenis | IJA spel |
|------------------------|-----------------|----------|
| Siblings (n=18) | | |
| IJA spel | 0.104 | - |
| RJA niveau score | -0.467 | -079 |
| Controle (n=32) | | |
| IJA spel | 0.490** | - |
| RJA niveau score | -0.167 | -0.061 |

** $p < .01$

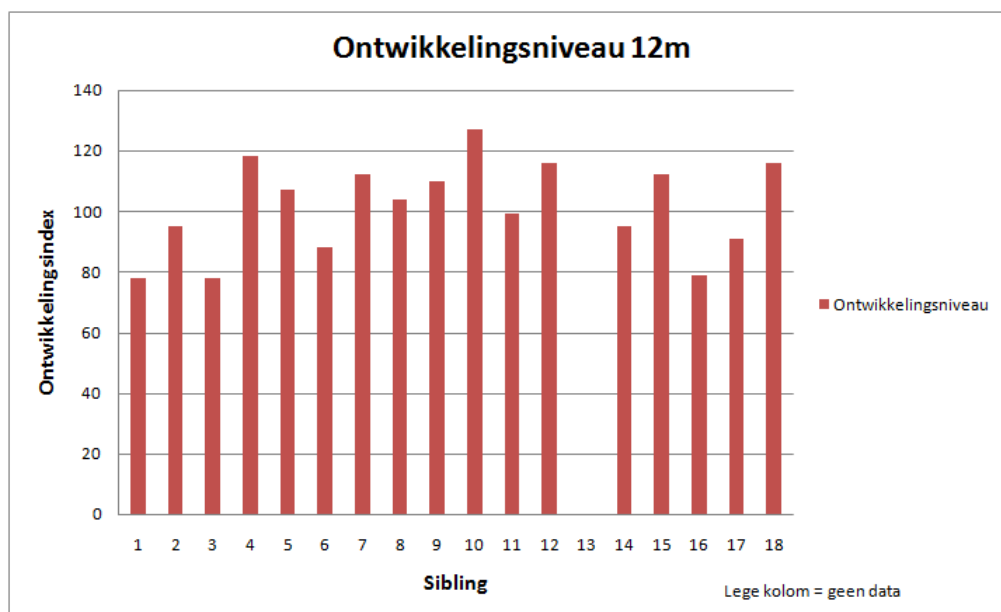
3.1.2 Ontwikkelingsniveau - MSEL

Ontwikkelingsniveau. Uit Tabel 2 blijkt dat het algemene ontwikkelingsniveau niet significant verschilt tussen beide groepen. Figuur 5 biedt een overzicht van de individuele data van de siblings op het algemene ontwikkelingsniveau. De resultaten van de verschillende ontwikkelingsdomeinen worden weergegeven in Tabel 7. Wat de subschalen van de Mullen op 12 maanden betreft, was er een significant verschil tussen beide groepen op het gebied van visuele perceptie ($U = 156.000, p < .05$). Siblings behalen een significant hogere score op het ontwikkelingsdomein visuele perceptie dan de controlekinderen.

Tabel 7. Groepsgemiddelden en bijhorende Mann-Whitney U toetsen van de verschillende ontwikkelingsdomeinen bij de siblings en controlekinderen.

| MSEL | Siblings (n=15) | | Controle (n=32) | | Mann-Whitney U |
|-------------------|-------------------|-----------------|-------------------|-----------------|----------------|
| | MR (SR) | M (SD) | MR (SR) | M (SD) | |
| Grove motoriek | 24.90 (373.50) | 11.47 (2.67) | 23.58 (754.50) | 11.28 (2.25) | U= 226.500 |
| Fijne motoriek | 18.60 (279.00) | 14.07 (1.71) | 26.53 (849.00) | 14.97 (1.36) | U= 159.000 |
| Visuele perceptie | 29.60 (444.00) | 13.87 (1.46) | 21.38 (684.00) | 13.06 (1.32) | U= 156.000* |
| Receptieve taal | 21.27 (319.00) | 10.80 (1.97) | 25.28 (809.00) | 11.03 (0.97) | U= 199.000 |
| Expressieve taal | 24.73 (371.00) | 12.67 (3.24) | 23.66 (757.00) | 12.91 (2.12) | U=229.000 |

*p < .05



Figuur 5. Ontwikkelingsniveau MSEL van de siblings op 12 maanden.

Verband met joint attention. De Spearman rangcorrelatiecoëfficiënten worden gerapporteerd in Tabel 8. Uit de resultaten blijkt dat er een positief significant verband is tussen RJA niveau score en het ontwikkelingsniveau van de siblings ($\rho = 0.550$, $p < .05$). Bij de controlekinderen was dit verband niet significant. Deze correlatie van beide groepen

werd met elkaar vergeleken door een Fisher transformatie toe te passen. Hieruit blijkt dat de correlatie tussen beide waarden niet significant verschillend is tussen de siblings en de controlekinderen ($z = 1.46, p = .07$). Tussen het ontwikkelingsniveau en IJA gebeurtenis hoog werd er een significant verband gevonden bij de controlekinderen ($\rho = 0.478, p < .01$), doch niet bij de siblings. Deze correlatie van beide groepen werd met elkaar vergeleken door een Fisher transformatie toe te passen. Hieruit blijkt dat de correlatie tussen beide waarden significant verschillend is tussen de siblings en de controlekinderen ($z = 1.47, p < .05$).

Tabel 8. *Spearman rangcorrelaties tussen ontwikkelingsniveau en de joint attention vaardigheden bij siblings en controlekinderen.*

| | Ontwikkelingsindex | |
|------------------------|--------------------|----------|
| | Siblings | Controle |
| IJA gebeurtenis | (n=18) | (n=32) |
| IJA gebeurtenis laag | 0.005 | 0.175 |
| IJA gebeurtenis hoog | -0.032 | 0.478** |
| IJA gebeurtenis totaal | -0.074 | 0.245 |
| IJA spel | (n=18) | (n=32) |
| IJA spel laag | 0.041 | -0.088 |
| IJA spel hoog | 0.307 | 0.204 |
| IJA spel totaal | 0.045 | -0.034 |
| RJA | (n=16) | (n=32) |
| RJA niveau score | 0.550* | 0.129 |

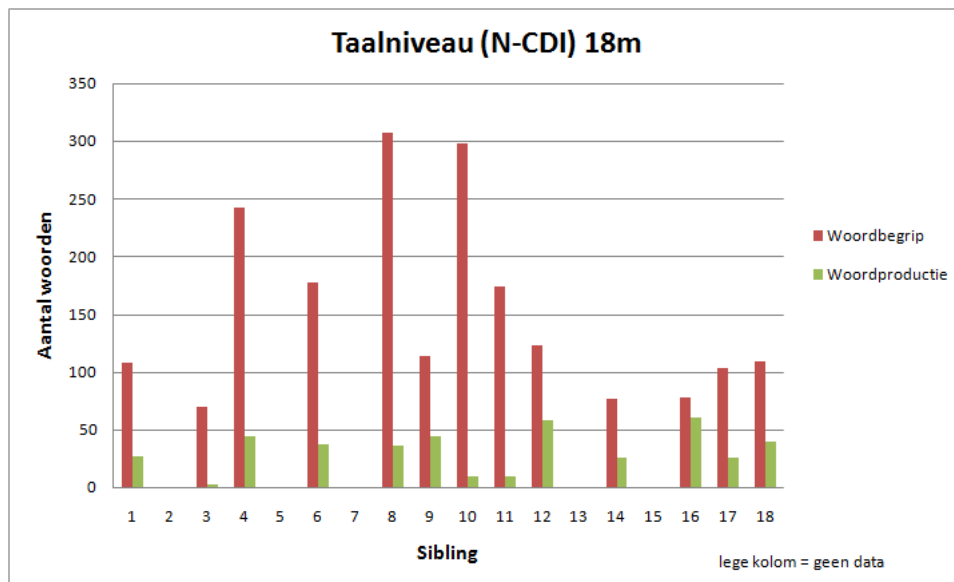
* $p < .05$; ** $p < .01$

3.2 Onderzoeksvraag 2

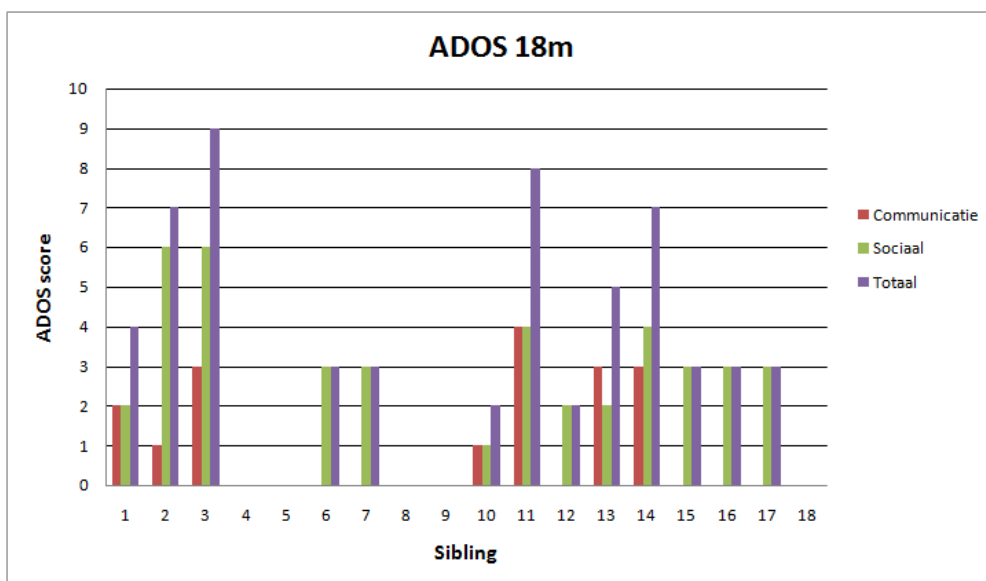
Zijn de vaardigheden op het vlak van IJA en RJA en het ontwikkelingsniveau op 12 maanden bij de siblings voorspellend voor het taalniveau en de score op de ADOS op 18 maanden?

Voor de tweede onderzoeksvraag wordt nagegaan of de resultaten op de IJA-, RJA- en ontwikkelingstest op 12 maanden voorspellend zijn voor de taalontwikkeling en ADOS resultaten op 18 maanden. Hier is het onderzoek enkel op de siblings gefocust. Er waren

geen data beschikbaar van de controlegroep op 18 maanden. Ter informatie worden de individuele data van de siblings voor de N-CDI en de ADOS weergegeven in grafieken (zie Figuur 6 en 7). In de discussie wordt hier verder op ingegaan. Om de N-CDI data van de siblings uit ons onderzoek te kunnen vergelijken met een normgroep op 18 maanden, werden de leeftijdsequivalenten per kind nagegaan. Een gemiddeld leeftijdsequivalent werd berekend voor woordbegrip ($M = 15.54$, $SD = 2.73$) en woordproductie ($M = 16.23$, $SD = 2.31$). Dit gemiddelde werd via een One Sample Wilcoxon Signed Rank test vergeleken met de normgroep op 18 maanden. Hieruit bleek dat zowel woordbegrip ($Z = -2.507$, $p < .05$) als woordproductie ($Z = -2.754$, $p < .01$) bij de siblings op 18 maanden significant verschilt in vergelijking met de normgroep. De siblings vertonen dus significant lagere scores voor woordbegrip en woordproductie in vergelijking met de normgroep op 18 maanden.



Figuur 6. Taalniveau van de siblings op 18 maanden.



Figuur 7. ADOS scores van de siblings op 18 maanden.
Noot. Sibling 5 geen data beschikbaar.

3.2.1 Joint attention

Initiëren van joint attention - spel. De resultaten met de Spearman rangcorrelatiecoëfficiënten worden weergegeven in Tabel 10. Zowel voor IJA spel laag, IJA spel hoog als IJA spel totaal op 12 maanden werden er geen significante verbanden gevonden met woordbegrip, woordproductie en de ADOS scores op 18 maanden.

Tabel 10. Spearman rangcorrelaties tussen IJA spel op 12 maanden en het taalniveau en de ADOS resultaten op 18 maanden.

| | N-CDI | | ADOS | | |
|-----------------|-------------|----------------|---------|--------------|--------|
| | Woordbegrip | Woordproductie | Sociaal | Communicatie | Totaal |
| IJA spel | | | | | |
| IJA laag | 0.005 | -0.234 | 0.165 | 0.314 | 0.253 |
| IJA hoog | 0.529 | 0.080 | -0.410 | -0.113 | -0.399 |
| IJA totaal | 0.209 | -0.174 | 0.035 | 0.298 | 0.145 |

Initiëren van joint attention - gebeurtenis. De resultaten met de Spearman rangcorrelatiecoëfficiënten worden weergegeven in Tabel 9. Zowel voor IJA gebeurtenis laag, IJA gebeurtenis hoog als IJA gebeurtenis totaal op 12 maanden werden er geen significante verbanden gevonden met woordbegrip, woordproductie en de ADOS scores op 18 maanden.

Tabel 9. Spearman rangcorrelaties tussen IJA gebeurtenis op 12 maanden en het taalniveau en ADOS resultaten op 18 maanden.

| | N-CDI | | ADOS | | |
|------------------------|-------------|----------------|---------|--------------|--------|
| | Woordbegrip | Woordproductie | Sociaal | Communicatie | Totaal |
| IJA gebeurtenis | | | | | |
| IJA laag | 0.310 | 0.067 | 0.013 | -0.195 | -0.164 |
| IJA hoog | 0.011 | 0.004 | -0.195 | 0.004 | -0.195 |
| IJA totaal | 0.193 | -0.029 | 0.050 | -0.079 | -0.108 |

Volgen van joint attention RJA. De resultaten met de Spearman rangcorrelatiecoëfficiënten worden weergegeven in Tabel 11. De RJA niveau score op 12 maanden was significant voorspellend voor woordbegrip ($\rho = 0.164, p < .05$) en ADOS sociale score ($\rho = -0.522, p < .05$) op 18 maanden. RJA niveau score bleek niet significant voorspellend te zijn voor woordproductie, ADOS communicatie score en ADOS totale score.

Tabel 11. Spearman rangcorrelaties tussen RJA variabelen op 12 maanden en het taalniveau en de ADOS resultaten op 18 maanden.

| | N-CDI | | ADOS | | |
|-------------------------|-------------|----------------|---------|--------------|--------|
| | Woordbegrip | Woordproductie | Sociaal | Communicatie | Totaal |
| RJA niveau score | 0.614* | 0.287 | -0.522* | -0.135 | -0.381 |

* $p < .05$

3.2.2 Ontwikkelingsniveau

De resultaten met de Spearman rangcorrelatiecoëfficiënten worden gerapporteerd in Tabel 12. De MSEL ontwikkelingsindex op 12 maanden was significant voorspellend voor woordbegrip, ADOS sociale score en ADOS totale score op 18 maand ($\rho = 0.650, p < .05$; $\rho = -0.575, p < .05$ en $\rho = -0.672, p < .05$ respectievelijk). Wat de subschalen van de Mullen op 12 maanden betreft, was er een significant verband tussen fijne motoriek en woordbegrip ($\rho = 0.612, p < .05$), tussen receptieve taal en de ADOS sociale en totaalscore ($\rho = -0.523, p < .05$ en $\rho = -0.657, p < .01$) en tussen expressieve taal en de ADOS sociale en totaalscore ($\rho = -0.619, p < .05$ en $\rho = -0.750, p < .01$).

Tabel 12. Spearman rangcorrelaties tussen MSEL variabelen op 12 maanden en taalniveau op 18 maanden.

| | N-CDI | | ADOS | | |
|--------------------|-------------|----------------|---------|--------------|----------|
| | Woordbegrip | Woordproductie | Sociaal | Communicatie | Totaal |
| MSEL | | | | | |
| Ontwikkelingsindex | 0.650* | 0.227 | -0.575* | -0.359 | -0.672** |
| Grove motoriek | 0.127 | -0.380 | -0.161 | 0.465 | 0.065 |
| Fijne motoriek | 0.612* | -0.287 | -0.312 | -0.102 | -0.370 |
| Visuele perceptie | 0.271 | -0.170 | -0.056 | 0.083 | -0.143 |
| Receptieve taal | 0.500 | 0.194 | -0.523* | -0.248 | -0.657** |
| Expressieve taal | 0.561 | 0.298 | -0.619* | -0.472 | -0.750** |

* $p < .05$; ** $p < .01$

4 Discussie

In deze masterproef werd gekeken naar de sociaal-communicatieve vaardigheden, meer bepaald naar de joint attention vaardigheden en taalontwikkeling, bij siblings van kinderen met autisme en bij typisch ontwikkelende kinderen. De focus lag op het breder fenotype van autisme bij siblings van kinderen met autisme die zelf geen autisme ontwikkelden. Deze studie poogde een antwoord te bieden op twee onderzoeksvragen. Ten eerste werd nagegaan of siblings van kinderen met autisme tekorten vertoonden op het vlak van het volgen (RJA) en het initiëren van joint attention (IJA) en de algemene ontwikkeling op 12 maanden in vergelijking met de controlekinderen. Ten tweede werd bij de siblings nagegaan of de vaardigheden (en eventuele problemen) op het gebied van IJA, RJA en ontwikkelingsleeftijd op 12 maanden voorspellend waren voor (eventuele problemen op) de taalontwikkeling en de uitkomst op de ADOS op 18 maanden.

4.1 Onderzoeksvraag 1

Is er op de leeftijd van 12 maanden een verschil op het vlak van IJA (spel en gebeurtenis), RJA (niveauscore) en ontwikkelingsniveau tussen de siblings en de controlegroep?

4.1.1 Joint attention

Het initiëren van joint attention. De vaardigheid van het initiëren van joint attention werd bewust in twee verschillende contexten bekeken, namelijk tijdens een gestructureerd spelmoment (IJA spel) en tijdens een onverwacht moment (IJA gebeurtenis). Uit de literatuur blijkt dat de omgeving waarin het kind zich bevindt een invloed kan hebben op het gedrag van joint attention (Roos, McDuffie, Weismer & Gernsbacher, 2008). In deze studie werd bij de siblings geen significant verband gevonden tussen beide situaties, doch wel bij de controlekinderen. Uit een Fisher transformatie bleek echter dat deze correlatie tussen beide situaties niet significant verschillend was tussen de siblings en de controlekinderen op 12 maanden. Dit resultaat zou verklaard kunnen worden door het feit dat de Fisher transformatie een conservatieve en strenge test is. De relatie tussen IJA spel en IJA gebeurtenis verschilt dus niet significant bij de siblings en de controlekinderen en wordt om die reden niet verder geïnterpreteerd. Bij het vergelijken van beide IJA situaties blijkt bovendien dat zowel de controlekinderen als de siblings meer IJA gedragingen vertoonden

tijdens het gestructureerd spelmoment dan tijdens het onverwachte moment. In het gestructureerd moment zijn de onderzoeker en het kind gericht op een object binnen hun interactie, terwijl het object zich bij het onverwacht moment buiten de interactie bevindt. Deze laatste situatie is moeilijker voor het kind dan de eerste situatie doordat het object zich buiten de interactie vertoont. Dit zou kunnen verklaren waarom zowel de siblings als de controlekinderen minder IJA gedrag vertonen bij de onverwachte gebeurtenis.

In dit onderzoek werd gekeken naar de frequentie van IJA in de twee verschillende contexten. Uit de resultaten blijkt dat siblings van kinderen met autisme die zelf geen autisme ontwikkelen geen significante verschillen vertonen op het vlak van IJA in beide contexten in vergelijking met de controlekinderen. Dit sluit aan bij de resultaten van Toth et al. (2007) die op 18 en 27 maanden geen verschillen vonden tussen beide groepen. Siblings van kinderen met autisme die daarentegen wel autisme ontwikkelen vertonen op 15 maanden een lagere graad van IJA gedragingen (Cassel et al., 2007; Goldberg et al., 2005). In de literatuur wordt verwacht dat kinderen vanaf 11 à 12 maanden beginnen te wijzen om aandacht te vragen en dat ze hun blik intentioneel gaan gebruiken door afwisselend van persoon naar object te kijken (Carpenter, Nagell, Tomasello, 1998; Smith & Ulvund, 2003). In deze studie kan gesteld worden dat siblings even frequent en even vroeg als de controlekinderen IJA gedragingen kunnen vertonen.

Daarnaast werd er gekeken naar het niveau van IJA in beide contexten. Gebaseerd op de indeling van Mundy et al. (2003) werd onderscheid gemaakt tussen enerzijds lage en anderzijds hoge vormen van joint attention, zowel bij IJA spel als bij IJA gebeurtenis. Ook hier werden zowel bij IJA spel laag en bij IJA gebeurtenis laag als bij IJA spel hoog en IJA gebeurtenis hoog geen significante verschillen gevonden met de controlekinderen. Siblings van kinderen met autisme die zelf geen autisme ontwikkelen doen het in dit onderzoek even goed als de controlekinderen op vlak van IJA gedragingen. Deze resultaten wijzen er op dat siblings op deze leeftijd een even hoog niveau van joint attention kunnen behalen als de controlekinderen. Bovendien vertonen zowel de siblings als de controlekinderen significant meer lage IJA gedragingen dan hoge. In de literatuur wordt dit verwacht omdat de hoge vaardigheden, zoals wijzen zonder oogcontact en gecoördineerd wijzen, moeilijker zijn en zich later ontwikkelen dan de lage IJA vaardigheden, zoals oogcontact maken naar een (niet) actief speeltje en gecoördineerd oogcontact maken waarbij afwisselend van speeltje naar onderzoeker wordt gekeken (Mundy & Gomes, 1998). Opvallend is dat kinderen met een autismespectrumstoornis vaker problemen vertonen bij het gecoördineerd oogcontact

maken - een lage vorm van IJA vaardigheid - dan bij het wijzen naar een object (Mundy et al., 2007; Mundy, 2009). Dit zou erop kunnen wijzen dat gecoördineerd oogcontact maken eerder een hoge vorm van initiëren van joint attention is. Zoals Dawson et al. (2004) aangeven kan gecoördineerd oogcontact sensitiever zijn en een betere voorspeller zijn voor autisme. Bij de siblings in deze studie vinden we deze vaststelling niet terug. In toekomstig onderzoek zou een andere opdeling gebruikt kunnen worden waarbij gecoördineerd oogcontact als hoge vorm van IJA gezien wordt.

Het volgen van joint attention In de resultaten zijn er geen significante verschillen gevonden op het vlak van RJA tussen de siblings en de controlekinderen. Het grootste deel van zowel de siblings (88%) als de controlekinderen (77%) slaagt er in om de blikrichting van de onderzoeker te volgen. Dit is analoog met de resultaten van Toth et al. (2007) die geen verschillen vonden op het gebied van RJA tussen beide groepen op 18 en 27 maanden. Deze resultaten zijn bovendien consistent met onderzoek rond de normale ontwikkeling van RJA. Op 12 maanden zijn kinderen in staat om een doel dat verder af ligt te lokaliseren; ze slagen erin de blik van de onderzoeker te volgen naar een object binnen of buiten hun gezichtsveld (Deák, Flom & Pick, 2000). In het totaal is 29% van de siblings in staat om de blik van de onderzoeker te volgen naar een poster binnen hun gezichtsveld en 59% van de siblings kan de blik van de onderzoeker volgen naar een poster buiten hun gezichtsveld. Bij de controlekinderen kan 40% van de kinderen de blik van de onderzoeker volgen naar een poster binnen hun gezichtsveld en 37% naar een poster buiten hun gezichtsveld. Opmerkelijk hierbij is dat meer dan de helft van de siblings het maximale niveau van RJA vertoont (blik volgen naar poster buiten gezichtsveld). Cassel et al. (2007), Presmanes et al. (2007) en Sullivan et al. (2007) vonden wel significante verschillen op het gebied van RJA op de leeftijd van 12 en 24 maanden tussen siblings van kinderen met autisme en controlekinderen. De verschillen met deze studie zouden verklaard kunnen worden doordat in bovenstaande onderzoeken geen onderscheid werd gemaakt binnen de groep van siblings; zowel degenen die zelf autisme ontwikkelden als degenen die geen autisme ontwikkelden werden dus opgenomen. Uit onze resultaten kan afgeleid worden dat de vaardigheid RJA bij beide groepen op 12 maanden bereikt is. Toch dienen de resultaten met enige voorzichtigheid geïnterpreteerd te worden aangezien de meerderheid van beide groepen een maximale score behaalde op de RJA vaardigheid. Door beide groepen werden plafondscores behaald, wat de interpretatie van de resultaten kan beïnvloeden.

Verband tussen joint attention vaardigheden. Uit de literatuur wordt verwacht dat het initiëren van joint attention en het volgen van joint attention niet hoog met elkaar correleren omdat ze een uniek en onafhankelijk ontwikkelingspatroon vertonen en verschillende hersengebieden activeren (Mundy et al., 2007). Uit de analyses blijkt dat RJA niveau score en de IJA variabelen niet met elkaar correleerden, wat zowel bij de siblings als bij de controlekinderen het geval was.

4.1.2 Ontwikkelingsniveau

Uit de analyse blijkt dat er geen significante verschillen zijn tussen de siblings en de controlekinderen op het gebied van ontwikkelingsleeftijd. Opmerkelijk is dat de siblings het beter doen dan de controlekinderen op het gebied van visuele perceptie. Wanneer gekeken wordt naar visuele perceptie en visuele discriminatie bij kinderen met autisme, wordt geconcludeerd dat zij het op dit gebied beter doen dan de controlekinderen (O' Riordan, Plaisted, Driver & Baron-Cohen, 2001). Het kan belangrijk zijn dit aspect verder op te volgen bij de siblings op latere leeftijd. Mogelijks is het een onderdeel van het breder fenotype van autisme. Deze bevinding kan daarnaast ook beïnvloed worden door het niet toepassen van de Bonferroni correctie. Het lijkt aangewezen om dit verder te onderzoeken.

Het verband tussen ontwikkelingsniveau en joint attention bij kinderen wordt in verschillende onderzoeken gerapporteerd (Mundy & Gomes, 1998; Mundy et al., 2007; Ulvund & Smith, 1996). De correlatie tussen RJA niveau score en ontwikkelingsniveau bij siblings en controlekinderen bleek niet significant verschillend te zijn na het uitvoeren van een Fisher transformatie. Hoewel er geen significante groepsverschillen gevonden werden, is het toch mogelijk dat er bepaalde verschillen zijn die niet opgemerkt werden wegens de vrij conservatieve test Fisher. De correlatie tussen IJA gebeurtenis hoog en het ontwikkelingsniveau bij siblings en controlekinderen bleek wel significant verschillend te zijn. Bij de controlekinderen is er dus een verband tussen IJA gebeurtenis hoog en het ontwikkelingsniveau.

4.2 Onderzoeksvraag 2

Zijn de vaardigheden op het vlak van IJA en RJA en het ontwikkelingsniveau op 12 maanden voorspellend voor het taalniveau en de score op de ADOS op 18 maanden?

4.2.1 Joint attention

Initiëren van joint attention. Uit de resultaten blijkt dat zowel bij IJA spel als IJA gebeurtenis geen significante correlaties gevonden zijn met woordbegrip (receptieve taal) en woordproductie (expressieve taal). De vaardigheid IJA op 12 maanden blijkt bij siblings van kinderen met autisme die zelf geen autisme ontwikkelen niet voorspellend te zijn voor de latere taalontwikkeling op 18 maanden. Met de scores op de ADOS werden ook geen verbanden gevonden. Volgens Cassel et al.(2007) en Yoder et al. (2009) is IJA daarentegen een belangrijke voorspeller voor de latere verschillen in sociale, cognitieve en gedragsvaardigheden. Bovendien geven Mundy & Gomes (1998) aan dat IJA een goede voorspeller is voor de expressieve taal. Het gebrek aan significante correlaties in deze studie kan te wijten zijn aan het relatief beperkt aantal siblings dat deelnam aan de studie. Verbanden kunnen gemaskeerd zijn door de kleine groep. Zoals Yoder et al. (2009) aangeven kan het bovendien zijn dat de frequentie van IJA geen goede voorspeller is voor latere sociale en taalttekorten, maar dat het eerder de groei van IJA over de leeftijden heen is die een belangrijke predictor vormt voor de latere taalontwikkeling en de score op de ADOS. Uit deze resultaten kan niet zomaar geconcludeerd worden dat het initiëren van joint attention geen goede voorspeller is voor de latere taalontwikkeling en eventuele kenmerken van autisme. Verder onderzoek is nodig rond dit aspect.

Volgen van joint attention In literatuur worden associaties gevonden tussen RJA en de latere taalontwikkeling bij kinderen tussen 6 en 18 maanden (Morales et al., 2000). De studies van Sullivan et al. (2007) en Ulvund & Smith (1996) wijzen erop dat RJA voorspellend is voor de latere receptieve (woordbegrip) en expressieve (woordproductie) taal. In dit onderzoek vinden we enkel een voorspellend verband met woordbegrip op 18 maanden, wat overeenkomt met het onderzoek van Mundy & Gomes (1998). Dit verschil met ander onderzoek kan verklaard worden door de verschillende meetinstrumenten en leeftijden die gebruikt werden. Deze studie maakte gebruik van een oudervragenlijst (N-

CDI) om de taalontwikkeling op 18 maanden te onderzoeken terwijl Sullivan et al. (2007) gebruik maakten van de MSEL op 24 maanden; Ulvund & Smith (1996) maakten gebruik van de RDLS (The Reynell Developmental Language Scales, Stokes & Wong, 1996).

Volgens Sullivan et al. (2007) is RJA voorspellend voor het al dan niet hebben van autisme op 14 maanden bij siblings die zelf autisme ontwikkelen. In ons onderzoek voorspelt de RJA niet de uitkomst op de totale ADOS score, maar het voorspelt wel de sociale vaardigheden op 18 maanden. RJA wordt naast een voorspeller voor de latere taalontwikkeling ook gezien als een belangrijk concept in de sociale ontwikkeling omdat het kind bij het volgen van een blik, begrijpt wat de intentie is van de persoon (Carpenter, Nagell & Tomasello, 1998). Dit kan verklaren waarom er een significant verband gevonden wordt tussen RJA en de sociale score van de ADOS. Tekorten in RJA worden in onderzoek zowel bij siblings die autisme ontwikkelen als bij siblings die geen autisme ontwikkelen gezien als een vroeg kenmerk van tekorten in sociale en communicatieve vaardigheden (Sullivan et al., 2007). RJA kan dus gezien worden als een belangrijke vaardigheid waarop screening en vroege interventie zich kan richten. Aansluitend bij de conclusie van Presmanes et al. (2007) kan besloten worden dat siblings die moeilijkheden hebben met het volgen van joint attention een hoger risico hebben op latere problemen op het gebied van de taalontwikkeling.

4.2.2 Ontwikkelingsniveau

Op het gebied van taalniveau blijkt uit de resultaten dat het ontwikkelingsniveau op 12 maanden voorspellend is voor woordbegrip op 18 maanden. Bovendien is de fijne motoriek ook voorspellend voor woordbegrip op 18 maanden. Opmerkelijk is dat de receptieve en expressieve taal op de MSEL op 12 maanden niet correleren met de taalontwikkeling op 18 maanden. Op 12 maanden vertonen de siblings geen tekorten op het gebied van taalvaardigheden in vergelijking met de controlekinderen. Wanneer de taalscores op woordbegrip (receptieve taal) en woordproductie (expressieve taal) op 18 maanden vergeleken worden met een normgroep, blijkt dat de siblings op groepsniveau meer tekorten vertonen in taalvaardigheden. Op individueel niveau blijkt dat 8 van de 13 siblings een vertraging van 4 à 5 maanden vertonen op gebied van woordbegrip. Op gebied van woordproductie vertonen 3 van de 13 kinderen een achterstand van 5 à 6 maanden. Intuïtief gezien wordt verwacht dat de taalontwikkeling op 12 maanden voorspellend zal

zijn voor het taalniveau op 18 maanden, maar dit blijkt niet zo te zijn. Een mogelijke verklaring kan zijn dat gebruik gemaakt wordt van andere testinstrumenten op de verschillende leeftijden, namelijk de MSEL en de N-CDI. Het is mogelijk dat de MSEL op 12 maanden niet sensitief genoeg is voor het testen van de taalvaardigheden. Een ander mogelijke verklaring zou kunnen zijn dat de periode tussen 12 en 18 maanden een kritische periode is waar het kind zich de joint attention vaardigheden meer eigen maakt, waardoor er mentale capaciteit vrijkomt voor taalprocessen inzake het begrijpen en gebruiken van woorden (Delgado et al., 2002). Siblings zouden in deze periode tekorten kunnen ontwikkelen in hun joint attention vaardigheden waardoor er minder mentale capaciteit vrijkomt om latere taalvaardigheden te ontwikkelen. Een andere verklaring kan zijn dat er bij de controlekinderen sprake is van een snellere groei van taalvaardigheden in de periode tussen 12 en 18 maanden en dat dit bij de siblings wat trager verloopt, maar dat ze dit op latere leeftijd terug hebben ingehaald. Het lijkt aangewezen om dit in toekomstig onderzoek verder te verkennen.

Op het gebied van kenmerken van autisme op de ADOS blijkt uit de analyses dat het ontwikkelingsniveau voorspellend is voor de ADOS sociale en totale score. De receptieve en expressieve taal op 12 maanden is voorspellend voor de ADOS sociale en totale score. Deze bevindingen komen overeen met de conclusies van Landa & Garrett-Mayer (2006) die onderzoek deden bij siblings van kinderen met autisme, die zelf autisme ontwikkelden. Dit houdt in dat het ontwikkelingsniveau en het taalniveau op 12 maanden een goede voorspeller kan zijn voor de ADOS uitkomsten op 18 maanden zowel bij siblings met als zonder een latere diagnose.

4.3 Individuele verschillen

Op groepsniveau doen de siblings het op het gebied van joint attention en algemene ontwikkeling even goed als de controlekinderen op 12 maanden. Wanneer er binnen de groep van siblings gekeken wordt, zijn betekenisvolle verschillen op te merken tussen de siblings onderling. Zoals Mundy et al. (2007) aangeven kunnen er zich in het eerste levensjaar individuele verschillen voordoen tussen kinderen op het vlak van IJA vaardigheden, wat in deze studie het geval is. Dit kan verklaard worden door verschillen in het ontwikkelen van sociaal-cognitieve vaardigheden die de processen van joint attention

mogelijk maken (Delgado et al., 2002). Bovendien ontwikkelt de IJA vaardigheid zich tussen de leeftijd van 12 en 15 maanden. Dus kan verwacht worden dat niet alle siblings op 12 maanden de vaardigheid volledig ontwikkeld hebben (Smith & Ulvund, 2003). Slechts één sibling vertoont op 12 maanden geen RJA vaardigheid. Er is geen mogelijkheid om deze sibling te bekijken op 18 maanden omdat er geen data beschikbaar waren voor deze sibling. Belangrijk om op te merken is dat er bij de controlekinderen op 12 maanden ook individuele verschillen gevonden zijn in de diverse joint attention vaardigheden. Zowel controlekinderen als siblings kunnen individuele tekorten vertonen op bepaalde ontwikkelingsaspecten, maar ze kunnen deze op latere leeftijd weer ingehaald hebben. Doordat siblings van kinderen met autisme hoger risico lopen op het ontwikkelen van ASS, kan het belangrijk zijn om op te volgen of deze tekorten worden ingehaald of als ze blijvend zijn op latere leeftijd.

Daarnaast werden enkele verschillende ontwikkelingspatronen tussen de siblings onderling opgemerkt. Op 18 maanden vertonen 2 van de 18 siblings kenmerken van het autismespectrumsstoornis (ASS). Bij de eerste sibling (zie sibling 3 op de Figuren) zien we een gemiddelde score op de IJA vaardigheden voor beide taken; deze sibling behaalt echter een minimale niveauscore voor RJA. Het ontwikkelingsniveau op 12 maanden en de woordproductie op 18 maanden zijn beiden een standaarddeviatie onder het gemiddelde. Zoals in de conclusies op groepsniveau, kunnen RJA en het ontwikkelingsniveau op 12 maanden bij deze sibling voorspellend zijn voor de uitkomst op de ADOS en het taalniveau op 18 maanden. De tweede sibling (zie sibling 11) vertoont een opmerkelijk patroon. Op 12 maanden vertoont de sibling op zowel IJA, RJA als ontwikkelingsniveau geen tekorten of problemen. Het succesvol reageren op RJA op 12 maanden kan niet zomaar uitsluiten dat een sibling het breder fenotype van autisme niet zal vertonen (Sullivan et al., 2007). Ook op 18 maanden haalt deze sibling een gemiddelde score op woordproductie en woordbegrip, doch op de ADOS scoort hij klinisch. Dit zou verklaard kunnen worden doordat de sibling op het moment dat de ADOS werd afgenomen niet goed meewerkte of doordat de sibling toch significante problemen vertoonde op sociaal en communicatieve vaardigheden die niet werden opgemerkt tijdens de andere metingen. Op 36 maanden krijgen beide siblings geen diagnose; verdere opvolging is noodzakelijk om te kijken hoe de siblings verder evolueren. Bij deze twee siblings blijkt IJA geen goede voorspeller te zijn. RJA was voor de eerste sibling wel voorspellend voor het latere taalniveau.

Twee andere siblings (zie siblings 2 en 14) vertonen eenzelfde patroon als de laatstgenoemde sibling (sibling 11), al behalen zij op 18 maanden een subklinische grensscore. Zowel IJA als RJA waren bij deze siblings geen goede voorspellers, maar dit houdt niet in dat zij op latere leeftijd geen problemen kunnen vertonen. Deze siblings vertonen voornamelijk tekorten op communicatief vlak. Deze siblings vertonen dus niet de volledige triade van de klinische symptomen, maar wel tekorten op 18 maanden op het vlak van sociale en communicatieve vaardigheden.

Daarnaast is er nog een ontwikkelingspatroon dat opgemerkt werd bij twee andere siblings (zie siblings 1 en 18). Deze siblings vertonen op 12 maanden wel tekorten zowel op IJA spel als op IJA gebeurtenis, maar op 18 maanden zijn er geen problemen vastgesteld op het vlak van taalniveau en autismekenmerken. Bij deze kinderen zou het interessant zijn om de IJA vaardigheden op 18 maanden en latere leeftijd te bekijken. Het is mogelijk dat deze siblings de tekorten die er waren op 12 maanden ingehaald hebben eens ze 18 maanden zijn.

4.4 Sterktes en beperkingen

Een sterkte van dit onderzoek is dat de testen verliepen in een onderzoeksruimte op basis van een op voorhand vastgelegd protocol. Hierdoor werd het mogelijk om de data met elkaar te vergelijken. Bovendien werd er longitudinaal gekeken naar de ontwikkeling van siblings tussen 12 en 18 maanden waardoor er een periode in de ontwikkeling kon worden bestudeerd. Er werd gekeken naar de siblings en naar de controlekinderen op 12 maanden en naar de evolutie binnen de siblinggroep tussen 12 en 18 maanden.

Dit onderzoek biedt een meerwaarde in het onderzoek naar siblings van kinderen met autisme die later zelf geen autisme ontwikkelden doordat siblings van kinderen met autisme die wel zelf autisme ontwikkelden op 36 maanden uit de data werden verwijderd. Hierdoor kon deze studie focussen op het breder fenotype van autisme en de ontwikkeling tussen 12 en 18 maanden van siblings van kinderen met autisme die geen autisme ontwikkelden in kaart brengen. De onderzoeksvragen sloten bovendien aan bij hiaten in het onderzoek bij siblings van kinderen met autisme.

Om de variabele joint attention te bekijken, werden de verschillende vormen van joint attention in rekening gebracht, meer bepaald het initiëren van joint attention (IJA) en het volgen van joint attention (RJA). Daarbij werd IJA gemeten op twee verschillende momenten in twee verschillende contexten. Daarnaast werd er bovendien onderscheid

gemaakt tussen lage en hoge vormen van joint attention, gebaseerd op het onderscheid van Mundy et al. (2003).

Daarnaast heeft dit onderzoek ook bepaalde beperkingen, waarvan de relatief kleine steekproef de eerste is. Dit zal een invloed gehad hebben op bepaalde resultaten. Bovendien waren er geen data van controlekinderen beschikbaar om de ontwikkeling tussen 12 en 18 maanden te vergelijken met de siblinggroep.

De meerderheid van zowel de siblings als de controlekinderen behaalde op 12 maanden een maximale score op de RJA taak. Door beide groepen werd een plafondscore behaald, waardoor er weinig variabiliteit in de data zat. Hierdoor moeten de resultaten met voorzichtigheid geïnterpreteerd worden en kunnen ze niet veralgemeend worden.

Aangezien de complexiteit van autismespectrumstoornissen en het breder fenotype wordt de genetische kwetsbaarheid steeds vaker verbonden met omgevingsfactoren (Goldberg et al., 2005). Dit onderzoek richtte zich op het in kaart brengen van de vroege sociaal-communicatieve vaardigheden, doch bijkomende informatie in verband met de gezinscontext, geboortecomstandigheden, ouder-kind-interacties, etc., werd niet verzameld.

Vanuit wetenschappelijk opzicht is er nog een bijkomende beperking aan dit onderzoek. Na ieder onderzoek ontvingen de ouders een verslag met de resultaten rond de sociaal-communicatieve vaardigheden van hun kind. Zo tracht men aan te sluiten bij de vraag van ouders naar opvolging. Indien er tekorten werden opgemerkt, werd dit meegedeeld. Dit houdt in dat er tegen het volgende onderzoeksmoment bepaalde interventies gebeurd konden zijn die niet in rekening werden gebracht in het onderzoek. Vanuit pedagogisch en ethisch opzicht is deze opvolging en verslaggeving echter een sterkte en biedt het de ouders de mogelijkheid om met hun bezorgdheden ergens terecht te kunnen.

4.5 Richtlijnen toekomstig onderzoek

Vanuit dit onderzoek kunnen enkele richtlijnen geformuleerd worden voor toekomstig onderzoek. Ten eerste kan worden aangegeven dat dit onderzoek aangetoond heeft dat het nuttig is om te focussen op siblings van kinderen met autisme die zelf geen autisme ontwikkelen. Zoals Rogers (2009) aangeeft zou het interessant zijn om meer longitudinaal onderzoek te doen rond het verloop en het profiel van siblings van kinderen met autisme die

geen autisme ontwikkelen, maar wel kans hebben op het vertonen van het breder fenotype. Hoe evolueren en ontwikkelen de siblings, die op 12 en 18 maanden tekorten vertoonden, zich op latere leeftijd? Zijn deze tekorten op 36 maanden verdwenen of vertonen ze nog steeds bepaalde tekorten die voor het kind storend zijn in zijn verdere ontwikkeling?

Ten tweede werd binnen deze studie enkel gekeken naar joint attention vaardigheden op 12 maanden en taalontwikkeling op 18 maanden bij de siblings. Het zou boeiend zijn mocht toekomstig onderzoek zich niet enkel richten op de communicatieve vaardigheden, maar ook op de sociale vaardigheden en het emotioneel functioneren, imitatie, sociaal spel, etc. binnen deze groep siblings.

Ten derde zou het boeiend zijn als de bi-directionaliteit met de omgeving mee wordt opgenomen in verder onderzoek. Omgevings-en familiefactoren zijn niet de oorzaak van de tekorten en problemen bij bepaalde siblings, maar het zijn wel factoren die tijdens kritische periodes in de ontwikkeling van de sibling kunnen bijdragen tot bepaalde problemen (Toth et al., 2007).

Ten vierde richt heel wat onderzoek zich voornamelijk op het kwantitatief in beeld brengen van het risico op autisme bij siblings van kinderen met autisme, zodat aangesloten kan worden bij de ongerustheid die vaak leeft bij de ouders of andere verzorgers. Het maakt bovendien vroege interventie mogelijk. Het zou daarnaast boeiend zijn om ook onderzoek te doen naar wat de betekenis hiervan is voor ouders. Wat houdt die ongerustheid in bij het krijgen van een tweede kind, wetend dat het kind risico loopt om zelf autisme te ontwikkelen? Wat betekent dit voor het ouderschap naar de sibling toe? Onderzoek dat zowel objectieve, kwantitatieve kennis combineert met betekenisgerichte, kwalitatieve kennis brengt een grotere meerwaarde en laat verschillende perspectieven op één bepaalde situatie samengaan. Op deze manier wordt de wetenschappelijke kennis verbonden met de ervaringen en verhalen van moeders, vaders, kinderen en siblings en zodoende kunnen verschillende onderzoeksmethoden met elkaar geïntegreerd worden (Broeckaert, et al., 1997; Broeckaert, 2009).

4.6 Klinische implicaties en kritische bedenkingen

Uit de resultaten bleek dat de meerderheid van de siblings van kinderen met autisme, die zelf geen autisme ontwikkelen geen grote verschillen vertoonden met de controlekinderen.

Op groepsniveau werden geen verschillen gevonden op het gebied van joint attention vaardigheden. Wanneer er binnen de groep van de siblings gekeken werd, kwamen betekenisvolle individuele verschillen naar voor. Enkele kinderen vertoonden wel tekorten in joint attention en deze zijn bovendien voorspellend voor de al dan niet klinische uitkomst op de ADOS. Siblings kunnen verschillende ontwikkelingspatronen vertonen en op verschillende momenten tekorten ontwikkelen. Op 12 maanden werden bij de controlekinderen ook individuele verschillen gevonden. Dit houdt niet in dat zij steeds problemen zullen ontwikkelen, maar dat bepaalde controlekinderen ook vertragingen kunnen vertonen in hun ontwikkeling, die op latere leeftijd ingehaald kunnen zijn. Dit kan ook het geval zijn bij siblings. Toch is het belangrijk dat de siblings die op 12 maanden tekorten vertonen opgevolgd worden in hun ontwikkeling, evenals degenen die pas op 18 maanden problemen ontwikkelen. Bepaalde karakteristieken van het breder fenotype variëren bij siblings gedurende de ontwikkeling waarbij sommige vaardigheden of karakteristieken tijdelijk vertraagd zijn op een bepaalde leeftijd of blijvende tekorten zijn (Yirmiya & Ozonoff, 2007). Het is belangrijk dat siblings van kinderen met autisme opgevolgd worden, zeker indien er ongerustheden zijn bij ouders of andere verzorgers. RJA en de vroege taalontwikkeling op 12 maanden kan voorspellend zijn voor de latere taalontwikkeling op 18 maanden. Dit kan bruikbaar zijn in screeningsinstrumenten en klinische beoordelingsinstrumenten en interventies (Sullivan et al., 2007).

Met deze studie wordt het dichotome en categoriaal denken rond het al dan niet hebben van autisme in vraag gesteld. De meerderheid van de siblings van kinderen met autisme vertonen zelden de volledige triade van klinische symptomen, maar vertonen wel tekorten op sociaal of communicatief vlak (Landa & Garrett-Mayer, 2006). Uit de analyse van de individuele resultaten blijkt dat bepaalde siblings kenmerken van het breder fenotype vertonen. Zoals Yoder et al. (2009) aangeven is het noodzakelijk om deze verschillende ontwikkelingspatronen van tekorten op te volgen en in beeld te brengen. In de praktijk wordt er daarentegen nog te veel uitgegaan van het categoriaal denken. Een diagnose, die toegang biedt tot gepaste hulp en ondersteuning, wordt enkel gesteld wanneer een kind klinische problemen vertoont op de volledige triade van autismespectrumstoornissen. Voor kinderen die subklinische problemen vertonen op het gebied van de autismerkennmerken is de toegang tot gepaste ondersteuning moeilijker. Zoals hierboven wordt aangegeven, vertonen siblings van kinderen met autisme die zelf geen autisme ontwikkelen wel problemen in de sociale, communicatieve en/of taalontwikkeling en hebben zij en hun gezinsleden ook nood

aan toegankelijke hulpverlening. Zoals Guralnick (2001) aangeeft zou er een systeem moeten zijn dat deze hoge risico kinderen blijft opvolgen zodat ook zij toegang kunnen hebben tot gepaste ondersteuning en interventieprogramma's. Analoog met het opvolgingsprogramma voor premature kinderen, uitgevoerd door een Centrum voor Ontwikkelingsstoornissen (COS) of een andere dienst, zou er een opvolgingsprogramma kunnen zijn voor siblings van kinderen met autisme. Zonder verplichting voor de ouders zou dit een mogelijkheid zijn waar zij hun vragen en ongerustheden kunnen formuleren.

Vanuit pedagogisch opzicht moeten we als onderzoekers en hulpverleners kritisch blijven kijken naar de tendens om steeds vroeger te diagnosticeren en te interveniëren. Vanuit een medisch/individugerichte invalshoek, kijken we steeds vroeger of een kind al dan niet afwijkt van 'de normale ontwikkeling' (Van Hove, 2009). Als onderzoekers, maar ook als hulpverleners in de praktijk, moeten we ons afvragen of we siblings van kinderen met autisme niet extra problematiseren door een te grote nadruk te leggen op het risico die ze lopen. Opvolging van de siblings is noodzakelijk, maar het is niet de bedoeling dat we hen gaan problematiseren of ouders onnodig ongerust maken (Gamliel et al. 2007). Er moet bewust stilgestaan worden bij het effect van een (vroeg) diagnose op het individu en het gezin. Voor ouders kan duidelijkheid rond de problemen bij hun kind een opluchting betekenen. Het kan er echter ook voor zorgen dat de relatie tot het kind gedomineerd wordt door vragen als "wat heeft mijn kind" of door "welk risico loopt mijn kind". Ouders willen informatie hebben over het risico en over de handicap, maar die kennis kan ervoor zorgen dat er een afstand geschapen wordt tot het kind. Het "wie is mijn kind" kan daardoor op de achtergrond raken (Isarin, 2001). Het is belangrijk dat hier samen met de ouders naar een evenwicht gezocht wordt enerzijds door hen goed te informeren over het risico dat hun kind loopt in de ontwikkeling, maar anderzijds door hen niet onnodig ongerust te maken.

Als conclusie kan gesteld worden dat deze studie niet tot doel had om met het breder fenotype een nieuwe diagnose te creëren. Het is eerder een oproep om vragen en ongerustheden bij ouders ernstig te nemen en bewust te zijn van het risico dat siblings van kinderen met autisme lopen, zonder hen te problematiseren. Het is belangrijk dat primaire hulpverleners op de hoogte zijn van het risico dat siblings van kinderen met autisme hebben en van de kennis rond de vroege kenmerken van autisme.

4.7 Algemene conclusie

In deze studie werden de sociaal-communicatieve vaardigheden bij siblings van kinderen met autisme, die zelf geen autisme ontwikkelden bestudeerd op 12 en 18 maanden. De joint attention vaardigheden, het initiëren van joint attention (IJA) en het volgen van joint attention (RJA), en de ontwikkelingsleeftijd op 12 maanden verschillen niet met de controlegroep. Met andere woorden de siblings vertonen geen tekorten op het gebied van IJA en RJA. Wanneer er gekeken wordt naar het verband tussen IJA op 12 maanden en het taalniveau op 18 maanden kon geconcludeerd worden dat IJA niet voorspellend is voor zowel de receptieve als expressieve taal op 18 maanden. IJA blijkt in deze studie geen goede voorspeller te zijn bij siblings van kinderen met autisme, die zelf geen autisme ontwikkelen voor de latere taalontwikkeling en de uitkomst op de ADOS op 18 maanden. Dit zou verklaard kunnen worden door het feit dat de frequentie van IJA geen goede voorspeller is voor de latere taalontwikkeling; de groei van de IJA vaardigheid tijdens de ontwikkeling kan dit echter wel zijn zoals Yoder et al. (2009) concluderen. Verder onderzoek moet dit uitwijzen. Vooral RJA blijkt een goede voorspeller te zijn voor de latere receptieve taal op 18 maanden en de uitkomst op het sociale domein van de ADOS. Enkel de ontwikkelingsleeftijd (maar niet de expressieve en receptieve subschalen) blijkt voorspellend te zijn voor de latere taalontwikkeling. Daarnaast kan de ontwikkelingsleeftijd, ook deze op de subschalen receptieve en expressieve taal, op 12 maanden voorspellend zijn op de ADOS score op 18 maanden. Wanneer naar de individuele siblings wordt gekeken, worden verschillende ontwikkelingspatronen opgemerkt waarbij enkele siblings kenmerken van het breder fenotype vertonen. Siblings die zelf geen autisme ontwikkelen lopen dus als groep op 12 maanden geen groter risico op het vertonen van problemen die geassocieerd zijn met ASS, maar ze vertonen op individueel vlak wel kenmerken van het breder fenotype van autisme op 12 en 18 maanden. Bepaalde controlekinderen vertonen ook individuele verschillen op de joint attention vaardigheden; verschillen op individueel vlak zijn dus niet enkel op te merken bij siblings.

Op 12 maanden vertonen siblings op het vlak van joint attention en ontwikkelingsleeftijd dus geen tekorten in vergelijking met de controlegroep. Het volgen van joint attention (RJA) en de ontwikkelingsleeftijd op 12 maanden is wel voorspellend voor de taalvaardigheden en uitkomst op de ADOS op 18 maanden. Taalvertragingen en tekorten in joint attention vaardigheden kunnen gezien worden als twee belangrijke

componenten van het breder fenotype en vroege kenmerken van autisme. Siblings die kenmerken van het breder fenotype vertonen, kunnen bepaalde tekorten tijdelijk vertonen en andere tekorten zullen blijvend zijn. Belangrijk is dat siblings worden opgevolgd en de ontwikkeling van deze siblings in beeld gebracht wordt, zonder ouders onnodig te verontrusten.

5 Referenties

- Adrien, J.L., Lenoir, P., Martineau, J., Perrot, A., Hameury, L., Larmande, C., Sauvage, D. (1993). Blind ratings of early symptoms of autism based upon family home movies. *Journal of the American Academy of Child and Adolescent Psychiatry*, 32, 617-626.
- American Psychiatric Association (2000). *Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders: DSM-IV-TR (4th ed.)*. Washington, DC: American Psychiatric Association.
- Bailey, A., Palferman, S., Heavey, L., Le Couteur, A. (1998). Autism: The Phenotype in Relatives. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 28 (5), 369-392.
- Baldwin, D.A., Markman, E.M., Bill, B., Desjardins, R.N., Irwin, J.M., Tidball, G. (1996). Infants' Reliance on a Social Criterion for Establishing Word-Object Relations. *Child Development*, 67, 3135-3153.
- Barbaro, J., Dissanayake, C. (2009). Autism Spectrum Disorders in Infancy and Toddlerhood: A Review of the evidence on Early Signs, Early Identification Tools, and Early Diagnosis. *Journal of Developmental and Behavioral Pediatrics*, 30, 447-459.
- Baron-Cohen, S., Belmonte, M. (2005). Autism: A Window Onto the Development of the Social and the Analytic Brain. *Annual Review of Neuroscience*, 28, 109-126.
- Brian, J., Bryson, S.E., Garon, N., Roberts, W., Smith, I.M., Szatmari, P.S., Zwaigenbaum, L. (2008). Clinical assessment of autism in high-risk 18-month-olds. *Autism*, 12, 433-456.
- Broeckaert, E., De Fever, F., Schoorl, P., Van Hove, G., Wuyts, B. (1997). *Orthopedagogiek en Maatschappij* (pp. 23-33). Antwerpen/Appeldoorn: Garant.
- Broeckaert, E. (2009). *Naar een integratieve handelingsorthopedagogiek*. Antwerpen/Appeldoorn: Garant.
- Bryson, S.E., Zwaigenbaum, L., Brian, J., Roberts, W., Szatmari, P., Rombough, V., McDermott, C. (2007). A Prospective Case Series of High-risk Infants who Developed Autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 37, 12-24.
- Butterworth, G., & Jarrett, N. (1991). What minds have in common is space: Spatial mechanisms serving joint visual attention in infancy. *British Journal of Developmental Psychology*, 9, 55-72.
- Carpenter, M., Nagell, K., & Tomasello, M. (1998). Social cognition, joint attention, and communicative competence from 9 to 15 months of age. *Monographs of the Society for Research in Child Development*, 63 (4), 1-174.

- Cassel., T.D., Messinger, D.S., Ibanez, L.V., Haltigan, J.D., Acosta, S.I., Buchman, A.C. (2007). Early Social and Emotional Communication in the Infant Siblings of Children with Autism Spectrum Disorders: An examination of the Broad Phenotype. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 37, 122-132.
- Clifford, S.M, Dissanayake, C. (2008). The early development of joint attention in infants with autistic disorder using home video observations and parental interview. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 38, 791-801.
- Constantino, J., Lajonchere, C. Lutz, M., Gray, T., Abbacchi, A., McKenna, K., Singh, D., Todd, R. (2006). Autistic social impairments in the siblings of children with pervasive developmental disorders. *The American Journal of Psychiatry*, 163, 294-296.
- Corkum, V., Moore, C. (1998). The origins of joint visual attention in infants. *Developmental Psychology*, 34, 28-38.
- 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. *Development and Psychopathology*, 14, 581-611.
- Dawson, G., Toth, K., Abott, R., Osterling, J., Munson, J., Estes, A., Liaw, J. (2004). Early Social Attention Impairments in Autism: Social Orienting, Joint Attention, and Attention to Distress. *Developmental Psychology*, 40 (2), 271-283.
- Dawson, G. (2008). Early behavioral intervention: brain plasticity and the prevention of autism spectrum disorder. *Development and Psychopathology*, 20, 775-803.
- Deák, G.O., Flom, R.A., Pick, A.D. (2000). Effects of Gesture and Target on 12- and 18-Months-Olds' Joint Visual Attention to Objects in Front of or Behind Them. *Developmental Psychology*, 36 (4), 511-523.
- De Belie, E., Van Hove, G. (2005). *Ouderschap onder druk. Ouders en hun kind met een verstandelijke beperking*. Antwerpen/Apeldoorn: Garant.
- De Giacomo, A., Fombonne, E. (1998). Parental recognition of developmental abnormalities in autism. *European Child and Adolescent Psychiatry*, 7, 131-136.
- Delgado, C.E., Mundy, P., Crowson, M., Markus, J., Yale, M., Schwartz, H. (2002). Responding to Joint Attention and Language Development: A Comparison of Target Locations. *Journal of Speech, Language and Hearing Research*, 45, 715-719.
- Filipek, P.A, Accardo, P.J., Baranek, G.T., Cook, E.H., Dawson, G., Gordon, B., Gravel, J.S., Johnson, C.P., Kallen, R.J., Levy, S.E., Minshew, N.J., Prizant, B.M., Rapin, I., Rogers, S.J., Stone, W.L., Teplin, S., Tuchman, R.F., Volkmar, F.R. (1999). The Screening and Diagnosis of Autistic Spectrum Disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorder*, 29, 6.

- Folstein, S. E., Bisson, E., Santangelo, S.L., Piven, J. (1998). Finding specific genes that cause autism: A combination of approaches will be needed to maximize power. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 28 (5), 439-445.
- Fombonne (2009). Epidemiology of Pervasive Developmental Disorders. *Pediatric Research*, 65 (6), 591-598.
- Gamliel, I., Yirmiya, N., Sigman, M. (2007). The Development of Young Siblings of Children with Autism from 4 to 54 Months. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 37, 171-183.
- Gamliel, I., Yirmiya, N., Jaffe, D.H., Manor, O., Sigman, M. (2009). Developmental Trajectories in Siblings of Children with Autism: Cognition and Language from 4 Months to 7 Years. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 39, 1131-1144.
- Goldberg, W.A., Jarvis, K.L., Osann, K., Laulhere, T.M., Straub, C., Thomas, E., Filipek, P., Spence, M.A. (2005). Brief report: Early Social Communication Behaviors in the Younger Siblings of Children with Autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 35 (5), 657-664.
- Guralnick, M.J. (2001). A developmental systems model for early intervention. *Infants and Young Children*, 14 (2), 1-18.
- Happé, F., Ronald, A., Plomin, R. (2006). Time to give up on a single explanation for autism. *Nature Neuroscience*, 9 (10), 1218-1220.
- Harris, S.L., Handleman, J. (2000). Age and IQ intake as predictors of placement for young children with autism: a four-to-six-year follow-up. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 30, 137-142.
- Hutman, T., Rozga, A., DeLaurentis, A.D., Barnwell, J.M., Sugar, C.A., Sigman, M. (2010). Response to distress in infants at risk for autism: a prospective longitudinal study. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 51 (9), 1010-1020.
- Isarin, J. (2001). Eigenwijze en eigenzinnige moeders. *Moeders, deskundigen en gehandicapte kinderen*. Nederlands Tijdschrift voor de Zorg aan Verstandelijk Gehandicapten, 27, 237-249.
- Landa, R., Garrett-Mayer, E. (2006). Development in infants with autism spectrum disorders: a prospective study. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 47 (6), 629-638.
- Mandell, D.S. Novak, M.M. Zubritsky C.D. (2005). Factors associated with age of diagnosis among children with autism spectrum disorders. *Pediatrics*, 116, 1480-1486.

- Morales, M., Mundy, P., Delgado, C., Yale, M., Messinger, D., Neal, R. et al. (2000). Responding to joint attention across the 6- through 24-month age period and early language acquisition. *Journal of Applied Developmental Psychology*, 21, 283-298.
- Mundy, P., Block, J. Delgado, C., Pomares, Y, Van Hecke, A.V., Parlade, M.V. (2007). Individual Differences and the Development of Joint Attention in Infancy. *Child Development*, 78 (3), 938- 954.
- Mundy, P., Delgado, L., Block, J., Venezia, M., Hogan, A., Seibert, J. (2003). *A Manual for the Abridged Early Social Communication Scales (ESCS)*. Coral Gables, FL: University of Miami.
- Mundy, P., Gomes, A. (1998). Individual differences in joint attention skill development in the second year. *Infant Behavior and Development*, 21 (3), 469-482.
- Mundy, P., Newell, S. (2007). Attention, Joint Attention and Social Cognition. *Current Directions in Psychological Science*, 16 (5), 269-274.
- Mundy, P., Sullivan, L., Mastergeorge, A.M. (2009). A Parallel and Distributed-Processing Model of Joint Attention, Social Cognition and Autism. *Autism Research*, 2, 2-21.
- Nadig, A.S., Ozonoff, S., Young, G.S., Rozga, A., Sigman, M., Rogers, S.J. (2007). A Prospective Study of Response to Name in Infants at Risk for Autism. *Archives of Pediatrics & Adolescent Medicine*, 161, 378-383.
- O' Riordan, M.A., Plaisted, K.C., Driver, J., Baron-Cohen, S. (2001). Superior visual search in autism. *Journal of experimental psychology. Human perception and performance*, 27, 3, 719-730.
- Osterling, J., Dawson, G. (1994). Early recognition of children with autism: a study of first birthday home videotapes. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. 24, 247-258.
- Osterling, J., Dawson, G., Munson, J. (2002). Early recognition of one-year-old infants with autism spectrum disorder versus mental retardation: a study of first birthday party home videotapes. *Development and Psychopathology*, 14, 239-251.
- Ozonoff, S., Heung, K., Byrd, R., Hansen, R., Hertz-Picciotto, I. (2008). The Onset of Autism: Patterns of Symptom Emergence in the First Years of Life. *Autism Research*, 1(6), 320–328.
- Ozonoff, S., Losif, A., Baguio, F., Cook, I.C., Moore Hill, M., Hutman, T., Rogers, S.J., Rozga, A., Sangha, S., Sigman, M., Steinfeld, M.B., Young, G.S. (2010). A Prospective Study of the Emergence of Early Behavioral Signs of Autism. *Journal of the American Academy of Child & Adolescent Psychiatry*, 49 (3), 256-266.

- Ozonoff, S., Young, G., Carter, A., Messinger, D., Yirmiya, N., Zwaigenbaum, L., Bryson, S., Carver, L., Constantino, J., Dobkins, K., Hutman, T., Iverson, J., Landa, R., Rogers, S., Sigman, M., Stone, W. (2011). Recurrence Risk for Autism Spectrum Disorders: A Baby Siblings Research Consortium Study. *Pediatrics*, 128 (3), 488-495.
- Pickels, A., Starr, E., Kazak, S., Bolton, P., Papanikolaou, K., Bailey, A., Goodman, R., Rutter, M. (2000). Variable Expression of the Autism Broader Phenotype: Findings from Extended Pedigrees. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 41 (4), 491-502.
- Presmanes, A.G., Walden, T.A., Stone, W.L., Yoder, P.J. (2007). Effects of Different Attentional Cues on Responding to Joint Attention in Younger Siblings of Children with Autism Spectrum Disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 37, 133-144.
- Roeyers, H. (2008). *Autisme: alles op een rijtje* (pp. 43-44). Leuven/Voorburg: Acco.
- Rogers, S.J. (2009). What are Infant Siblings Teaching Us About Autism in Infancy? *International Society for Autism Research*, 2, 125-137.
- Roos, E.M., McDuffie, A.S., Weismer, S.E., Gernsbacher, M.A. (2008). A comparison of contexts for assessing joint attention in toddlers on the autism spectrum. *Autism*, 12, 275-291.
- Rutter, M. (2005). Autism Research: Lessons from the Past and Prospects for the Future. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 35 (2), 241-257.
- Saint-Georges, C., Cassel, R.S., Cohen, D., Chetouani, M., Laznik, M., Maestro, S., Muratori, F. (2010). What studies of family home movies can teach us about autistic infants: A literature review. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 4, 355-366.
- Sigman, M., Ruskin, E. (1999). Continuity and change in the social competence of children with autism, Down syndrome, and developmental delays. *Monographs of the Society for Research in Child Development*, 64 (1), 1-10.
- Smith, L., Ulvund, S.E. (2003). The Role of Joint Attention in Later Development Among Preterm Children: Linkages Between Early and Middle Childhood. *Social Development*, 12 (2), 222-234.
- Stone, W.L., Coonrod, E.E., Ousley, O.Y. (2000). Brief Report: Screening Tool for Autism in Two-Year-Olds (STAT): Development and Preliminary Data. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 30 (6), 607-612.
- Stone, W.L., Coonrod, E.E., Turner, L.M., Pozdol, S.L. (2004). Psychometric properties of the STAT for early autism screening. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 34, 691-701.

- Stone, W.L., McMahon, C.R., Yoder, P.J., Walden, T.A. (2007). Early Social-Communicative and Cognitive Development of Younger Siblings of Children With Autism Spectrum Disorders. *Archives of Pediatrics & Adolescent Medicine*, 161, 384-390.
- Szatmari, P., Jones, M.B., Zwaigenbaum, L., MacLean, J.E. (1998). Genetics and autism: overview and new directions. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 28, 351- 368.
- Sullivan, M., Finelli, J., Marvin, A., Garrett-Mayer, E., Bauman, M., Landa, R. (2007). Reponse to Joint Attention in Toddlers at Risk for Autism Spectrum Disorder: A Prospective Study. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 37, 37-48.
- Tomasello, M. (2007). Cooperation and Communication in the Second Year of Life. *Child Development Perspectives*, 1 (1), 8-12.
- Tomasello, M., Carpenter, M., Liszkowski, U. (2007). A New look at Infant Pointing. *Child development*, 78 (3), 705-722.
- Toth, K., Dawson, G., Meltzoff, A.N., Greenson, J., Fein, D. (2007). Early Social, Imitation, Play and Language Abilities of Young Non-Autistic Siblings of Children with Autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 37, 145-157.
- Ulvund, S.E., Smith, L. (1996). The Predictive Validity of Nonverbal Communicative Skills in Infants With Perinatal Hazards. *Infant Behavior and Development*, 19, 441-449.
- Van Hecke, A.V., Mundy, P.C., Acra, C.F., Block, J.J., Delgado, C.E.F., Parlade, M.V. (2007). Infant Joint Attention, Temperament, and Social Competence in Preschool Children. *Child Development*, 78 (1), 53-69.
- Van Hove, G. (Red). (2009). *Disability Studies. Basisteksten uitgediept*. Antwerpen/Appeldoorn: Garant.
- Volkmar, F.R., Lord, C., Bailey, A., Schultz, R.T., Klin, A. (2004). Autism and pervasive developmental disorders, *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 54 (1), 135-170.
- Werner, E. Dawson, G. (2005). Validation of the phenomenon of autistic disorder regression using home videotapes. *Archives of General Psychiatry*, 62, 889-895.
- Wing, L. (1997). The autistic spectrum. *Lancet*, 350, 1761-1766.
- Yirmiya, N., Gamliel, I., Pilowsky, T., Feldman, R., Baron-Cohen, S., Sigman, M. (2006). The development of siblings of children with autism at 4 and 14 months: social engagement, communication, and cognition. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 47 (5), 511-523.

- Yoder, P., Stone, W.L, Walden, T., Malesa, E. (2009). Predicting Social Impairment and ASD Diagnosis in Younger Siblings of Children with Autism Spectrum Disorder. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 39, 1381-1391.
- Young, R., Brewer, N. Pattison, C. (2003). Parental identification of early behavioural abnormalities in children with autistic disorder. *Autism*, 7, 125-143.
- Young, G., Merin, N., Rogers, S.J., Ozonoff, S. (2009). Gaze behavior and affect at 6 months: predicting clinical outcomes and language development in typically developing infants and infants at risk for autism. *Development Science*, 12 (5), 798-814.
- Zwaigenbaum, L., Bryson, S., Rogers, T., Roberts, W., Brian, J., Szatmari, P. (2005). Behavioral manifestations of autism in the first year of life. *International Journal of Developmental Neuroscience*, 23, 143-152.

6 Appendix

Tabel 1: Overzicht van longitudinaal onderzoek bij siblings van kinderen met autismespectrumstoornis op het vlak van sociaal-communicatieve vaardigheden (2005 – 2010).

| Auteur(s) | Beschrijving onderzoek | Methode / test(s) | Resultaten | Conclusie(s) |
|---------------------------------|---|--|---|--|
| Zwaigenbaum et al., 2005 | <p>Longitudinaal onderzoek naar gedragsmanifestaties van autisme bij siblings van kinderen met autisme (n=65) vergeleken met een lage risicogroep (n= 75) die opgevolgd werden van 6 tot 24 maanden.</p> <p>Op 36 maanden maakt men onderscheid tussen siblings die autisme ontwikkelen en siblings die geen autisme ontwikkelen.</p> | <p>AOSI Visuele oriëntatietoets IBQ TBAQ MSEL ADI-R ADOS</p> | <p>7 van 65 siblings vertonen klinische symptomen op 24 maanden en krijgen op driejarige leeftijd de diagnose van autisme.</p> <p>Geen verschil gevonden in het aantal gedragskenmerken van autisme op 6 maanden tussen de twee groepen. Er werden wel individuele verschillen gevonden binnen de groep van siblings die later autisme ontwikkelden op het vlak van het reageren op naam en atypische sensorische gedragingen.</p> <p>De siblings die zowel op 6 als op 12 maanden vermindering in visuele aandacht vertoonden, kregen op 24 maanden de diagnose van autisme. Degenen die op 12 maanden meer visuele aandacht vertoonden, kregen geen diagnose.</p> <p>Degenen die geen diagnose van autisme kregen, bleven atypische</p> | <p>Observatie op 6-12 maanden kan voorspellend zijn voor een latere diagnose van autisme op 24 maanden.</p> <p>Op 6 maanden is het temperament gekenmerkt door passiviteit, namelijk minder reageren wanneer hun aandacht wordt getrokken.</p> <p>Vanaf 12 maanden is er bij siblings die later autisme ontwikkelen een vertraging in de (non)verbale communicatie:</p> <ul style="list-style-type: none"> • vermindering van visuele aandacht • verminderde oriëntatie op naam • verminderde imitatie • verminderde sociale glimlach • passiviteit • stereotiep gebruik van |

| | | | | |
|---------------------------------------|--|--------------------------|---|---|
| | | | ontwikkelingskenmerken vertonen die kunnen leiden tot andere diagnoses zoals taal- en of angststoornissen. | spelmateriaal <ul style="list-style-type: none"> • vertraagde preverbale expressieve vaardigheden • visuele fixatie (minder visueel volgen) |
| Landa & Garret-Mayer, 2006 | <p>Longitudinaal onderzoek bij siblings van kinderen met autisme (n=60) vergeleken met een lage risicogroep (n=27) die opgevolgd werden op 6, 14 en 24 maanden op het vlak van algemene ontwikkeling.</p> <p>Op 24 maanden werden de kinderen in drie groepen verdeeld: autismegroep, taalvertraagde groep, normale ontwikkelingsgroep</p> | MSEL ADOS PLS-III. | <p>Op 6 maanden werden geen significante verschillen gevonden tussen de drie groepen.</p> <p>Op 14 maanden vertoonden de siblings die later zelf autisme ontwikkelden significant lagere scores op de domeinen van MSEL met uitzondering op visuele Receptie, in vergelijking met de normale ontwikkelende groep.</p> <p>Op 24 maanden vertonen de siblings die later autisme ontwikkelden een lagere score op alle domeinen van MSEL in vergelijking met de normaal ontwikkelende groep. De taalvertraagde groep behaalt op 24 maanden betere scores op het motorische vlak, maar niet op het vlak van visuele receptie, receptieve taal en expressieve taal.</p> <p>Het ontwikkelingstraject van de</p> | <p>Wanneer een sibling op 6 maanden een gemiddeld resultaat behaalt op het vlak van algemene ontwikkeling, wil dit nog niet zeggen dat de sibling geen risico meer loopt om latere autisme kenmerken te ontwikkelen.</p> <p>De periode tussen 14 en 24 maanden is een kwetsbare periode voor peuters met autismespectrumstoornis. Op deze leeftijd vergroten de ontwikkelingsvertragingen en vertonen ze in hun ontwikkelingstraject de grootste vertraging in vergelijking tot kinderen met een taalvertraagde ontwikkeling of normale ontwikkeling.</p> |

| | | | | |
|-----------------------------|--|--|--|--|
| | | | siblings die autisme ontwikkelden nam toe over de verschillende leeftijden heen, maar verliep trager dan bij de andere groepen. | |
| Yirmiya et al., 2006 | Longitudinaal onderzoek bij siblings van kinderen met autisme (n=51) vergeleken met een lage risicogroep (n=52), die opgevolgd werden op 4 en 14 maanden op het vlak van sociaal engagement, communicatie en cognitie. | BSID-II ICQ Moeder-kind interactie FFSF Reactie-op-naam test ESCS CHAT | <p>Op 4 maanden verschillen de groepen niet significant op de meeste metingen van de siblings van kinderen met normale ontwikkeling . Toch enkele verschillen:</p> <ul style="list-style-type: none"> - Siblings van kinderen met autisme waren minder van streek gebracht en vertoonden meer neutrale reacties tijdens de still-face procedure. - Siblings gaan tijdens interactiemomenten minder interageren met de moeder dan de controlegroep. - Siblings van kinderen met autisme reageren meer op hun naam en zoeken meer naar hun moeder dan de controlekinderen. <p>6 van de 51 siblings vertoonden op 14 maanden een taalachterstand van 5 maanden waardoor verschillen werden gevonden tussen de twee groepen.</p> <p>Siblings van kinderen met autisme vertoonden significant minder</p> | <p>Op 4 maanden functioneerden de meeste siblings van kinderen met autisme even goed als de siblings van kinderen met typische ontwikkeling.</p> <p>Op 14 maanden maakten de siblings minder non-verbale verzoekgebaren en behaalden lagere scores voor de taalontwikkeling. Er werden geen verschillen gevonden op het vlak van initiëren van joint attention (IJA).</p> <p>20% van de siblings van kinderen met autisme vertoonde problemen op het vlak van communicatie en taal (belangrijke elementen van het autismespectrum).</p> <p>Siblings die op 4 maanden meer neutrale reacties vertoonden en minder reageerden op hun naam, initiëren minder non-verbale joint attention en verzoekgedrag</p> |

| | | | | |
|----------------------------|---|---|--|---|
| | | | <p>verzoekgedrag en een vertraagde taalontwikkeling.</p> <p>Geen significante verschillen op het vlak van temperament tussen de groepen op de verschillende leeftijden.</p> | op 14 maanden. |
| Bryson et al., 2007 | <p>Longitudinaal onderzoek bij sibilings van kinderen met autisme (n= 9) die opgevolgd werden van 6 tot 36 maanden op het vlak van algemene ontwikkeling. Op 3-jarige leeftijd kregen alle sibilings de diagnose van autisme.</p> | <p>AOSI ADOS ADI-R BSID MSEL CDI TBAQ</p> | <p>Er wordt onderscheid gemaakt tussen 2 subgroepen waarvan de eerste subgroep (n=6) een daling vertoonde op het vlak van IQ (van gemiddeld naar ernstige cognitieve beperking) tussen 12 en 36 maanden. De andere subgroep (n=3) behoudt een gemiddeld IQ.</p> <p>Signalen van autisme waren meer aanwezig bij de eerste groep, maar alle sibilings vertoonden sociale en communicatieve tekorten, atypische sensorische en/of motorische gedragingen en disregulatie.</p> <p>Sibilings vertonen op 6 maanden een eerder uniform beeld in responsiviteit en sociale engagement (interesse en plezier in sociale interactie, oogcontact en sociale glimlach). De meeste kinderen reageren op oriëntering van de naam.</p> <p>Atypische gedragingen waren</p> | <p>Alle sibilings vertonen een combinatie van sociaalcommunicatieve tekorten en een gedragsprofiel met visuele fixatie en andere atypische sensorische en motorische gedragingen in de ontwikkeling.</p> <p>Irritatie, negatieve affect, distress en inflexibiliteit vormen een inherent deel van het vroege begin van autisme.</p> <p>Een eerste kritische periode is tussen 6 en 12 maanden waar er een daling in visuele aandacht is. Een tweede kritische periode is tussen 12 en 24 maanden waarbij een daling in IQ opgemerkt werd en waar er een verlies in sociaalcommunicatieve vaardigheden te zien is.</p> |

| | | | | |
|----------------------------|---|--------------|---|---|
| | | | <p>voornamelijk op 2 gebieden te vinden: vertraagde motorische ontwikkeling en ongewone visuele interesses naar bepaalde objecten.</p> <p>Op 12 maanden vertonen 5 van de 9 siblings verminderde sociale interesse en engagement, maar zijn er slechts 2 die weinig sociale interesse vertonen. De andere vier kinderen zijn nog steeds hoog sociaal zonder veranderingen.</p> <p>Op 18 maanden vertonen 7 van de 9 siblings eenzelfde niveau van laag sociaal engagement. Er is wel een toename van problemen op te merken in andere gebieden zoals irritatie, repetitief gedrag, gebrek aan taalvoortgang en arme non-verbale communicatie.</p> <p>Op 24 maanden scoren de meeste siblings (n=7) positief op de ADOS. Op 36 maanden krijgen de andere 2 siblings bovendien de diagnose autisme.</p> | <p>Meer subtiele abnormaliteiten kunnen aanwezig zijn op 6 maanden, maar deze zijn gelimiteerd en ongedifferentieerd waardoor autisme moeilijk onderscheiden kan worden van andere ontwikkelingsstoornissen op deze leeftijd.</p> |
| Cassel et al., 2007 | Longitudinaal onderzoek bij siblings van kinderen met autisme (n= 12) vergeleken met een lage risicogroep (n=19), die opgevolgd werden van 6 tot 18 maanden | FFSF ESCS | Op 6 maanden vertoonden siblings van kinderen met autisme significant minder sociale glimlach in vergelijking met de controlegroep. | Siblings van kinderen met autisme kunnen moeilijkheden hebben in het trekken van aandacht en in het begrijpen of |

| | | | | |
|-----------------------------|--|-------------------------|---|---|
| | op het vlak van vroege sociaal en emotionele communicatie. | | <p>Op het vlak van initiëren van joint attention (IJA), het volgen van joint attention (RJA) en het initiëren van verzoekgedrag (IBR) zijn er inconsistente resultaten gevonden:</p> <p>Op 12 maanden vertoonden siblings van kinderen met autisme minder IBR dan controlekinderen. Op andere leeftijden werden geen verschillen gevonden.</p> <p>Op 15 maanden vertoonden siblings van kinderen met autisme een kleiner aantal IJA-pogingen dan controlekinderen. Op andere leeftijden zijn er geen verschillen.</p> <p>Op 18 maanden reageerden siblings van kinderen met autisme minder op RJA dan controlekinderen. Op andere leeftijden waren er geen verschillen.</p> | <p>reageren op een verzoek, voornamelijk rond 12 maanden.</p> <p>Vooraf in het tweede levensjaar zijn er tekorten op het vlak van verzoekgedrag te observeren. Dit reflecteert moeilijkheden in het bereiken van een gewenst object of een gebeurtenis op sociaal vlak.</p> |
| Gamliel et al., 2007 | Longitudinaal onderzoek bij siblings van kinderen met autisme (n=39) vergeleken met een lage risicogroep (n=39), die opgevolgd werden van 4, 14, 24, 36 tot 54 maanden op het vlak van cognitieve en taalvaardigheden. | ADOS-G ADI-R VABS | <p>Op 14 maanden vertoonden 6 siblings van kinderen met autisme een taalvertraging van 5 maanden. Anderen vertoonden geen vertraging.</p> <p>Uit de groep die op 14 maanden geen moeilijkheden vertoonden, vertoonden 6 siblings op 24 maanden</p> | <p>De meeste siblings ontwikkelen goed op het vlak van cognitie en taalontwikkeling. Bepaalde siblings vertonen toch bepaalde tekorten of vertragingen.</p> <p>Moeilijkheden op cognitieve en taalvaardigheden kunnen</p> |

| | | | | |
|--------------------------|---|-----------------------------|---|---|
| | | | <p>moeilijkheden.</p> <p>Op 24 en 36 maanden vertoonden 6 sibilings van kinderen met autisme cognitie en/of taalmoeilijkheden.</p> <p>Tussen 14 en 36 maanden vertoonden 11 van de 39 sibilings een vertraagde cognitie en/of taalontwikkeling vergeleken met 2 controlekinderen.</p> <p>Receptieve en expressieve taal bleef moeilijk bij bepaalde sibilings op 54 maanden. De meeste sibilings verschilden op die leeftijd niet significant met de controlegroep.</p> | <p>signalen zijn voor het breder fenotype.</p> <p>De meeste sibilings vertonen een lagere taalontwikkeling en vaardigheden op 14 maanden, maar functioneren goed op 54 maanden zonder interventie. Bepaalde kinderen kunnen kwetsbaar blijven op specifieke ontwikkelingsstadia.</p> |
| Nadig et al, 2007 | <p>Longitudinaal onderzoek bij sibilings van kinderen met autisme (n= 156) vergeleken met een lage risicogroep (n=89) op het vlak van reactie op naam. 46 van de sibilings van kinderen met autisme en 25 kinderen van de lage risicogroep werden opgevolgd van 6 tot 24 maanden.</p> | <p>Reactie-op-naam test</p> | <p>Sibilings van kinderen met autisme reageren minder op hun naam en hadden een minder consistent gedragspatroon tussen 6 en 12 maanden.</p> <p>Falen op het reageren op naam op 12 maanden toonde een hoge specificiteit voor de uitkomst op 24 maanden voor autisme of een andere ontwikkelingsvertraging.</p> <p>Enkele controlekinderen die later ontwikkelingsproblemen vertoonden (taalachterstand) scoorden goed voor</p> | <p>Gebrek aan reageren op naam is niet universeel tussen kinderen die later de diagnose autisme en/of een andere ontwikkelingsvertraging heeft.</p> <p>Falen in het reageren op naam op 12 maanden kan een voorteken zijn voor ontwikkelen van moeilijkheden en dat verdere screening nodig is.</p> <p>Deze test identificeert niet alle kinderen die risico lopen op ontwikkelingsproblemen.</p> |

| | | | | |
|-------------------------------|---|--------------------------|---|---|
| | | | de reactie-op-naam test op 12 maanden (lage sensitiviteit van de test). | Het is wel bruikbaar bij risicogroepen, maar het is geen goede indicator bij lage risicogroepen. Verminderd reageren op naam kan een onderdeel zijn van het breder autisme fenotype. |
| Presmanes et al., 2007 | <p>Longitudinaal onderzoek bij siblings van kinderen met autisme (n=46) vergeleken met een lage risicogroep (n=23), die opgevolgd werden op 12 en 23 maanden op het vlak van joint attention (RJA).</p> <p>RJA in verschillende niveaus: Laag: volgen van blik; Gematigd: volgen van blik gecombineerd met verbale informatie; Hoog: volgen van blik gecombineerd met verbale informatie en wijzen.</p> | RJA-test MSEL STAT | <p>Siblings vertoonden algemeen significant lagere RJA scores dan de controlekinderen. Bij het volgen van een blik (laag) of bij de combinatie van het volgen van een blik, verbale informatie en wijzen (hoog) zijn er geen groepsverschillen te vinden.</p> <p>Siblings van kinderen met autisme vertoonden significant meer problemen wanneer het volgen van een blik gecombineerd werd met verbale informatie (gematigd).</p> <p>Bij siblings van kinderen met autisme is er meer aandacht wanneer eerst de naam wordt genoemd en daarna de blik gevolgd moet worden.</p> <p>RJA correleert significant met receptieve en expressieve taal, ook met sociaalcommunicatieve gedragingen bij de siblings van</p> | <p>Siblings van kinderen met autisme hebben algemeen problemen met het volgen van joint attention, voornamelijk wanneer het volgen van een blik gecombineerd wordt met verbale informatie zonder te wijzen.</p> <p>Siblings die moeilijkheden hebben bij het reageren op joint attention en andere communicatieve vaardigheden hebben een hoger risico op het breder fenotype van autisme.</p> <p>RJA en de latere taal- en sociaalcommunicatieve ontwikkeling zijn verbonden met elkaar.</p> |

| | | | | |
|------------------------------|--|---|---|--|
| | | | kinderen met autisme. | |
| Sullivan et al., 2007 | <p>Longitudinaal onderzoek bij siblings van kinderen met autisme (n=51) die opgevolgd werden op 14 en 24 maanden op het vlak van joint attention (RJA).</p> <p>Op 36 maanden in drie groepen verdeeld: autisme, breder fenotype en geen breder autisme fenotype.</p> | <p>CSBS MSEL ADOS</p> | <p>16 kinderen kregen de diagnose van een autismspectrumstoornis, 8 kregen een diagnose van het breder fenotype.</p> <p>Het reageren op RJA was op 14 maanden significant lager bij kinderen die autisme ontwikkelden en het breder fenotype vertoonden. De moeilijkste taak voor deze twee groepen kinderen was wanneer men enkel keek zonder te wijzen.</p> <p>Er werd een significante correlatie gevonden tussen RJA op 14 maanden en de receptieve taal en expressieve taal op 24 maanden.</p> <p>Op 24 maanden is het verschil met kinderen die normaal ontwikkelen nog groter en blijft de uitkomst op RJA stabiel. Vooral bij het kijken gecombineerd met wijzen waren er tekorten.</p> | <p>Moeilijkheden in RJA zijn aanwezig op 14 maanden bij siblings die later de diagnose van autisme krijgen.</p> <p>Bij siblings die later autisme ontwikkelen zijn er minimale vooruitgangen op het vlak van RJA tussen 14 en 24 maanden in contrast met de vooruitgang bij siblings met het breder fenotype en een normale ontwikkeling.</p> <p>Het reageren op joint attention voorspelt de latere receptieve en expressieve taalontwikkeling en voorspelt ook of het kind autisme ontwikkelt of niet.</p> <p>Reageren op RJA cues op 14 maanden is geassocieerd met het niet hebben van autisme of het breder fenotype.</p> |
| Toth et al. (2007) | <p>Longitudinaal onderzoek bij siblings van kinderen met autisme (n=42) vergeleken met een lage risicogroep (n=20) die opgevolgd werden op 18 en 27 maanden</p> | <p>ADI-R ADOS MSEL SEEC</p> | <p>Siblings vertonen op de verschillende leeftijden minder sociaalcommunicatief gedrag (gelaatsuitdrukkingen en woorden),</p> | <p>Siblings als een (heterogene) groep hebben een lagere score dan de controlegroep op het vlak van expressieve taal, IQ, lagere</p> |

| | | | | |
|----------------------------------|---|--|--|--|
| | <p>op het vlak van cognitieve, adaptieve, sociale en taalvaardigheden, imitatie en spel. Gecombineerd met retrospectief onderzoek via interview en vragenlijsten afgenomen bij de ouders.</p> <p>Siblings die op latere leeftijd autisme ontwikkelden werden uit de studie gehaald.</p> | <p>CSBS-DP PAS EDI BSI DAS LES</p> | <p>maar er is geen verschil in frequentie in het initiëren van joint attention (IJA), het volgen van joint attention (RJA) en sociale interactie. Groepsverschillen op het vlak van imitatie en spel en andere aspecten van sociale communicatie zoals RJA werden niet gevonden.</p> <p>33% van de siblings scoort onder het gemiddelde voor receptieve taal 19% onder het gemiddelde voor expressieve taal.</p> <p>Ouders vertonen een gelijk niveau van psychische gezondheidsklachten, tevredenheid over partnerrelatie en stressvolle levensgebeurtenissen. Deze ouderfactoren dragen niet bij aan de groepsverschillen bij de siblings.</p> | <p>receptieve taal, adaptief gedrag en sociaal communicatieve vaardigheden. Ze gebruiken minder woorden, gelaatsuitdrukkingen en sociale glimlach.</p> <p>Ouders geven aan dat siblings aan 13 maanden sociale moeilijkheden vertonen, minder sensorische en repetitieve gedragingen vertonen en minder vroege regulatieve problemen (bv. slaapproblemen) vertonen dan de vergelijkingsgroep. Dit kan duiden op een hoger niveau van passiviteit bij siblings.</p> |
| <p>Yoder et al., 2009</p> | <p>Longitudinaal onderzoek bij siblings van kinderen met autisme (n=43) vergeleken met een lage risicogroep (n=24) die opgevolgd werden van 15 tot 34 maanden op het vlak van joint attention en triadische communicatie.</p> | <p>MSEL STAT RJA-test SBC ADOS ADI-R</p> | <p>15% van de 43 siblings werd gediagnosticeerd met autisme. 8 van de kinderen zonder dergelijke diagnose vertoonden significante sociale problemen.</p> <p>Siblings van kinderen met autisme waren als groep vertraagd in zowel RJA als meer algemeen sociale vaardigheden.</p> | <p>Initiele RJA voorspelt sterk de latere graad van stoornis bij direct geobserveerde RJA op latere leeftijd.</p> <p>Het vroege gebruik van RJA op 15 maanden voorspelt de gradatie waarin siblings vertraagd zullen zijn op het vlak van RJA op 34 maanden.</p> |

| | | | | |
|-----------------------------|--|--|--|--|
| | | | De frequentie van IJA is geen goede voorspeller in het model omdat het niet de latere sociale beperkingen voorspelt. Wel is de groei van IJA over de leeftijden heen een belangrijke predictor. RJA is bovendien een goede predictor. | De groei van IJA voorspelt de latere graad van stoornissen in de sociale ontwikkeling. Dit wordt aangegeven in oudersverslagen. RJA en IJA zijn gerelateerd aan de latere sociale ontwikkeling en het zijn goede behandelingsdoelen voor siblings die tekorten hebben in deze vaardigheden. |
| Gamliel et al., 2009 | Longitudinaal onderzoek bij siblings van kinderen met autisme (n= 37) vergeleken met een lage risicogroep (n=37) die opgevolgd werden op 4, 14, 24, 36, 54 maanden en 7 jaar op het vlak van cognitieve en taalontwikkeling. Er werd onderscheid gemaakt tussen siblings die het breder fenotype ontwikkelden en siblings zonder het breder fenotype. | ADOS-G ADI-R BSID-II K-ABC WISC-III WRAT-III RDLS CELF-Preschool CELF-III FHI | Op 7 jaar vertonen 15 van de 37 siblings (40,54%) problemen die vasthangen met het breder fenotype van autisme. Bij de controlegroep vertonen slechts 6 van de 37 siblings problemen die gerelateerd zijn aan het breder fenotype. Geen significante verschillen tussen de siblings die het breder fenotype ontwikkelden, de siblings die geen breder fenotype ontwikkelden en de controlekinderen in verband met de cognitieve scores over de leeftijden heen. Vroege taalscores op 14 tot 54 maanden zijn significant lager bij de siblings van kinderen met autisme dan | Op 7 jaar heeft 40% van de siblings met breder fenotype, in vergelijking met 16% van de controlekinderen, cognitieve, taal- en of leermoeilijkheden. Jongere siblings van kinderen met autisme vertonen wel vaker tekorten op het vlak van taal in vergelijking met siblings van normaal ontwikkelende kinderen, maar niet op het vlak van cognitieve vaardigheden. Taaltekorten kunnen een deel zijn van het breder fenotype. Bij 10 van de siblings die het breder fenotype vertonen werden de tekorten en |

| | | | | |
|---------------------------|--|---|---|--|
| | | | de taalscores bij de controlegroep. Op het vlak van cognitieve scores zijn er geen verschillen. | problemen al op vroegere leeftijd opgemerkt, terwijl bij de controlegroep dit pas op 7 jaar opgemerkt werd. |
| Young et al., 2009 | <p>Longitudinaal onderzoek bij siblings van kinderen met autisme (n=33) vergeleken met een lage risicogroep (n=25) die opgevolgd werden op 6,12,18 en 24 maanden op het vlak van oogcontact en emotionele status (affect).</p> <p>Op 36 maanden maakte men onderscheid tussen siblings die autisme ontwikkelden en siblings die geen autisme ontwikkelden.</p> | <p>FFSF ADOS M-CHAT MSEL VABS CDI</p> | <p>3 kinderen van de 58 werden gediagnosticeerd met autisme (2 siblings, 1controlekind). 11 siblings vertoonden tekorten of vertragingen in vergelijking met 4 van de controlegroep.</p> <p>De 3 kinderen die autisme diagnose kregen vertoonden een relatief typische gedrag op 6 maanden.</p> <p>Er werd verwacht dat kinderen met klinische tekorten meer naar de mond zouden fixeren tijdens interactie en minder naar de ogen, maar dit is niet significant. Beide groepen vertonen gelijkaardige en affectieve reacties op de moeder-kind interactie.</p> <p>De kinderen die op 24 maanden de diagnose kregen, vertoonden op de verschillende leeftijden een hoge frequentie van kijken naar de ogen.</p> <p>Tussen expressieve taal en het kijken naar de mond wanneer de moeder</p> | <p>Op 6 maanden vertonen siblings die de diagnose krijgen op 24 maanden geen abnormale patronen in het scannen van een gezicht. Bovendien zijn er geen verschillen op het vlak van glimlachen.</p> <p>Geen enkel van de siblings die op 6 maanden minder oogcontact maakt, vertoont enige signalen van autisme op 24 maanden.</p> <p>3 kinderen die later de diagnose autisme krijgen tonen consistente oogcontact en typisch affect op 6 maanden.</p> <p>Er is een significante relatie tussen het scannen van het gezicht en expressieve taal. Het kijken naar de mond tijdens vroege interacties is gerelateerd aan een hoger niveau van expressieve taalontwikkeling op latere leeftijd.</p> |

| | | | | |
|-----------------------------|--|--|---|---|
| | | | spreekt, werd er een significant negatief lineair effect gevonden. Het kijken naar de ogen op 6 maanden tijdens interacties is geassocieerd met een tragere expressieve taalontwikkeling. | Het al dan niet kijken naar de mond tijdens interacties kan een verklaring zijn voor de individuele verschillen in de taalontwikkeling. Dit is onafhankelijk van de uitkomst van het al dan niet hebben van autisme. |
| Hutman et al., 2010 | <p>Longitudinaal onderzoek bij sibilings van kinderen met autisme (n=103) vergeleken met een lage risicogroep (n=55) die opgevolgd werden op 12, 18, 24 en 36 maanden op het vlak van reageren op negatieve emotie (distress) bij anderen.</p> <p>Op 36 maanden maakte men onderscheid tussen sibilings die autisme ontwikkelden en sibilings die geen autisme ontwikkelden.</p> | <p>ADI-R ADOS-G MSEL Reactie-op-naam test. Onderzoeker slaat op eigen vinger om te kijken hoe het kind reageert.</p> | <p>Op 12 maanden vertoont de groep van sibilings die later autisme ontwikkelt het minst aantal affectieve reacties. De sibilings die later geen autisme ontwikkelen vertonen de meeste affectieve reacties.</p> <p>Een significant verschil tussen sibilings die geen autisme ontwikkelen en controlekinderen wordt niet gevonden.</p> <p>Groepverschillen blijven wanneer verbale vaardigheden en algemene sociale responsiviteit in het model worden bijgevoegd. Het reageren op naam verbetert de voorspelling van de uitkomst niet in het beste fittende model.</p> | <p>Diagnostische groepen verschillen op het vlak van reactie op distress van 12 tot 36 maanden.</p> <p>Sibilings die op 36 maanden de diagnose autisme krijgen vertonen minder affectieve reacties bij distress van de onderzoeker dan de sibilings die geen autisme ontwikkelen en de controlekinderen.</p> <p>De metingen van reactie op distress bij een andere persoon zijn voorspellend voor de latere diagnose. Bovendien kan interventie zich op deze vaardigheid richten.</p> |
| Ozonoff et al., 2010 | Longitudinaal onderzoek bij sibilings van kinderen met autisme (n=25) vergeleken | ADOS ADI-R | Op 6 maanden werd er tussen de sibilings die later autisme | Op 6 maanden vertonen sibilings die later autisme ontwikkelen en |

| | | | | |
|--|--|----------------------|---|---|
| | <p>met een lage risicogroep (n=25) die opgevolgd werden op 6, 12, 18, 24 en 36 maanden op het vlak sociaal glimlachen, vocalisaties en het scannen naar gezichten.</p> <p>Op 36 maanden maakte men onderscheid tussen siblings die autisme ontwikkelden en siblings die geen autisme ontwikkelden.</p> | <p>SCBS MSEL</p> | <p>ontwikkelden en de siblings die later geen autisme ontwikkelden geen significante verschillen gevonden.</p> <p>Bij de siblings die autisme ontwikkelden namen de drie gedragingen dramatisch af over de verschillende leeftijden. De verschillen werden significant op 12 maanden voor het scannen van gezichten en vocalisaties en bij 18 maanden voor sociale glimlach. Bij de controlegroep was er een significante stijging in sociale glimlach en vocalisatie, maar behouden ze hetzelfde niveau van het scannen naar gezichten.</p> <p>Verschillen in de cognitieve mogelijkheden kunnen de verschillen die gevonden worden tussen de twee groepen, gedurende de ontwikkeling, niet verklaren.</p> <p>De cognitieve en taalvaardigheden bij siblings die geen autisme ontwikkelden namen niet zoveel af als de sociaalcommunicatieve vaardigheden.</p> | <p>siblings die geen autisme ontwikkelen geen verschillen op het vlak van frequentie van het scannen van gezichten, sociale glimlach en directe vocalisatie. Maar ze vertonen wel een significante vermindering in de sociale en communicatieve vaardigheden tussen 6 en 18 maanden.</p> <p>Uit een retrospectieve vragenlijst van de ouders werd deze vermindering in vaardigheden niet opgemerkt. Deze manier van onderzoeken biedt weinig valide informatie in de afname in ontwikkeling.</p> <p>De gedragssymptomen van autisme starten in de tweede helft van het eerste levensjaar en evolueren zich gedurende enkele jaren.</p> <p>Ontwikkelingsvertragingen ontstaan voornamelijk in de sociaal-communicatieve vaardigheden en niet op elk gebied van de algemene ontwikkeling.</p> |
|--|--|----------------------|---|---|

Noot. Afkortingen van testen

ADI-R: Autism Diagnostic Interview-Revised; ADOS: Autism Diagnostic Observation Schedule; ADOS-G: Autism Diagnostic Observation Schedule-Generic; AOSI: Autism Observation Scale for Infants; BSI: The Brief Symptom Inventory; BSID-II: Bayley Scales of Infant Development – 2nd edition; CARS: Childhood Autism Rating Scale; CDI: MacArthur Communicative Development Inventories; CELF-III: Clinical Evaluation of Language Fundamentals-3rd Edition; CELF-Preschool: Clinical Evaluation of Language Fundamentals-Preschool; CHAT: Checklist for Autism in Toddlers; CSBS: Communication and Symbolic Behavior Scales; CSBS-DP: Communication and Symbolic Behavior Scales Developmental Profile; DAS: The Dyadic Adjustment Scale; EDI: The Early Development Interview; FFSF: Face-to-face/still-face; FHI: Family History Questionnaire; ICQ: Infant Characteristics Questionnaire; K-ABC: Kaufman Assessment Battery for Children; LES: The Life Experiences Survey; M-CHAT: Modified Checklist for Autism in Toddlers; MSEL: Mullen Scales of Early Learning; PAS: Play Assessment Scale; PLS-III: Preschool Language Scale; RDLS: Reynell Developmental Language Scales; SBC: Social Behavior Checklist; SCBS: Social Communication Behavior Codes; SEEC: Vineland Social-Emotional Early Childhood Scales; STAT: Screening Tool for Autism in Toddlers and Young Children; TBAQ: Toddler Behavior Assessment Questionnaire; VABS: Vineland Adaptive Behavior Scales; WISC-III: Wechsler Intelligence Scale for Children; WRAT-III: Wide Range Achievement Tests-3rd Edition.