

Dutch Summary (Samenvatting)

*Heroverweging van kernproblemen in autisme:
Diversiteit in empathie en sociaal gedrag*

Theoretische achtergrond

In de jaren '40 beschreef de psychiater Leo Kanner het gedrag van een jongetje, Donald, dat het gelukkigst leek wanneer hij met zijn blokjes kon spelen en door anderen met rust gelaten werd (Kanner, 1943). Donald toonde opvallend weinig interesse in zijn sociale omgeving. Als leefde hij in een glazen bol, afgesloten van de anderen. Tegenwoordig zou Donald herkend worden als een kind met een autisme spectrum stoornis (ASS). De huidige diagnostische criteria voor autisme vertonen nog steeds veel overlap met de eerste gedragsobservaties door Kanner, namelijk beperkingen in de sociale omgang met anderen, communicatieve problemen, en herhalende en beperkte interesses en gedragingen (APA, 2000). De sociale beperkingen van kinderen met een autisme spectrum stoornis (ASS) worden beschouwd als het kernprobleem van de stoornis (APA, 2000; Hobson, 2002; Kanner, 1943). Kinderen met ASS vinden het bijvoorbeeld lastig om vriendschappen te vormen of om hun persoonlijke ervaringen te delen met anderen.

Ons sociale gedrag wordt in belangrijke mate aangedreven door ons vermogen om met anderen begaan te zijn, oftewel ons vermogen tot empathie (de Waal, 2008). Vanwege het belang van empathie voor sociaal gedrag is er veel onderzoek verricht naar de empathische vermogens van kinderen met ASS. Deze empathische vermogens zijn veelvuldig onderzocht door te kijken naar het inzicht dat kinderen met ASS hebben in de gedachten, intenties, en emoties van anderen. Dit inzicht wordt in de ontwikkelingspsychologie ook wel *Theory of Mind* genoemd. Theory of Mind verwijst naar onze alledaagse ideeën (theorieën) over de belevingswerelden van de mensen om ons heen. Op die manier kunnen we het gedrag van anderen beter begrijpen en voorspellen. Kinderen met ASS hebben mogelijk problemen om zich in te leven in de gedachten en gevoelens van anderen, waardoor zij afwijkend sociaal gedrag laten zien. Inderdaad presteren jonge kinderen met ASS doorgaans slechter op zogeheten Theory of Mind tests in vergelijking met zich normaal ontwikkelende kinderen (Baron-Cohen, Leslie, & Frith, 1985; Boucher, 2012; Yirmiya, Erel, Shaked, & Solomonica-Levi, 1998). Met een klassieke Theory of Mind test wordt onderzocht of een kind begrijpt dat mensen handelen op basis van hun, soms foutieve, *ideeën* over de werkelijkheid en niet zo zeer op basis van de objectieve werkelijkheid zelf. Adolescenten met ASS maar met een normaal intelligentieniveau ('hoog-functionerend' ASS) hebben geen moeite (meer) met deze klassieke Theory of Mind tests. Complexere tests zijn daarom nodig om licht te kunnen werpen op de Theory of Mind vermogens van oudere kinderen en adolescenten met hoog-functionerend ASS.

In vergelijking met de grote hoeveelheid Theory of Mind onderzoek is er nog verrassend weinig empirisch onderzoek verricht naar het empathische *gedrag* van kinderen met ASS. Hoe reageren kinderen met ASS bijvoorbeeld op het verdriet of de pijn van een ander? En in welk opzicht wijken die reacties af van het gedrag van zich normaal ontwikkelende kinderen? Hoewel kinderen met ASS niet ongevoelig zijn voor de emoties van anderen, hebben verschillende studies laten zien dat jonge kinderen met ASS, veelal met een verstandelijke beperking, minder aandacht en minder bezorgdheid tonen wanneer een onbekende volwassene doet alsof hij/zij zich heeft bezeerd (Bacon, Fein, Morris, Waterhouse, & Allen, 1998; Scambler, Hepburn, Rutherford, Wehner, & Rogers, 2007; Sigman, Kasari, Kwon, & Yirmiya, 1992). Het is echter nog onvoldoende uitgezocht of deze verminderde empathische responsiviteit ook voorkomt onder oudere kinderen en adolescenten met ASS maar zonder een verstandelijke beperking.

Hoewel sociale gedragsbeperkingen van kinderen met ASS worden gezien als het kernprobleem van de stoornis, bestaan er ook grote individuele verschillen in zowel de ernst als de aard van deze sociale beperkingen (APA; 2000; Mundy, Henderson, Inge, & Coman, 2007; Wing & Gould, 1979). Leo Kanner (1943) benadrukte in zijn eerste beschrijvingen van kinderen met autisme dat ze nauwelijks geïnteresseerd leken in sociaal contact en zich niet emotioneel verbonden voelden met de mensen om hen heen. De onderzoekers Wing en Gould (1979) zouden deze kinderen waarschijnlijk tot het afzijdige sociale subtype rekenen. Zij onderscheidden drie sociale subtypen binnen het autisme spectrum. De *afzijdige* kinderen reageren nauwelijks op het sociale initiatief van anderen. Vaak hebben deze kinderen ook nog eens een verstandelijke beperking (Beglinger & Smith, 2005; Borden & Ollendick, 1994; Eagle, Romanczyk, & Lenzenweger, 2010). De *passieve* kinderen initiëren zelf weinig sociale interactie, maar reageren wel op het sociale initiatief van de ander. De *actief-maar-vreemde* kinderen maken actief contact met anderen, maar doen dit op een ongebruikelijke manier. Ze kunnen bijvoorbeeld oeverloos doorpraten over hetzelfde onderwerp zonder te controleren of hun gesprekspartner het nog interessant vindt. Hoewel de meeste klinici en onderzoekers direct zullen erkennen dat het autisme spectrum een heterogene groep kinderen omvat, is er tot nog toe opvallend weinig onderzoek verricht naar individuele verschillen in het sociale gedrag van kinderen en adolescenten met ASS.

Dit proefschrift heeft als eerste doelstelling om meer inzicht te creëren in de empathische vermogens van schoolgaande kinderen en adolescenten met hoog-functionerend ASS (HFASS). Met empathische vermogens bedoelen we hier zowel inzicht in de gedachten, wensen, en gevoelens van anderen (Theory of Mind) als empathisch

reageren op de emoties van een ander (empathische responsiviteit). De tweede doelstelling van dit proefschrift is het in kaart brengen en verklaren van individuele verschillen in sociaal gedrag binnen het autisme spectrum.

Method

De resultaten die in dit proefschrift besproken worden, zijn afkomstig van twee studies: (1) een voorstudie onder kinderen (7-10 jaar) en adolescenten (16-22 jaar) met HFASS (n=26; 88% jongens) en een zich normaal ontwikkelende vergelijkingsgroep (n=26; 85% jongens) (zie hoofdstuk 4), en (2) een hoofdstudie waaraan 214 (86% jongens) kinderen en adolescenten met HFASS deelnamen van 6 tot en met 20 jaar en 73 (85% jongens) zich normaal ontwikkelende kinderen en adolescenten die samen de vergelijkingsgroep vormen (zie hoofdstukken 2, 3, 5, en 6). Deelnemers met HFASS uit de hoofdstudie zijn grotendeels (90%) geworven via een school voor speciaal onderwijs. De overige deelnemers met HFASS zijn afkomstig van het reguliere onderwijs of een jeugdzorginstelling. De deelnemers uit de vergelijkingsgroep zijn geworven via reguliere basis- en middelbare scholen in de buurt van Amsterdam.

Deelname aan het onderzoek bestond uit een individueel psychologisch onderzoek op school waarin de sociale kennis en vaardigheden van het kind getoetst werden. Een van de tests bestond uit een vijftal verhalen om het Theory of Mind vermogen van de deelnemer te onderzoeken. Daarnaast liet de onderzoeker tijdens vastgelegde momenten in het onderzoek een bepaalde emotie (blijdschap, verdriet, pijn) zien om daarmee empathisch gedrag bij de deelnemer uit te lokken. Na het onderzoek ontvingen de ouders en de mentor van elke deelnemer een vragenlijst over het gedrag van de deelnemer.

Theory of Mind

In hoofdstuk 2 van dit proefschrift staat de vraag centraal of schoolgaande kinderen en adolescenten met HFASS moeite hebben om zich te verplaatsen in de belevingswereld van anderen, oftewel of zij beperkingen laten zien in hun *Theory of Mind*. Aan de hand van vijf complexe Theory of Mind verhalen is het inzicht van de deelnemers getoetst in de mentale toestanden (zoals een intentie of emotie) van personages. De prestaties van kinderen en adolescenten met HFASS op de Theory of Mind verhalen bleken vergelijkbaar met de prestaties van de vergelijkingsgroep. Dit is op z'n minst verrassend te noemen, omdat voorgaand onderzoek onder hoofdzakelijk jonge kinderen met ASS vaak heeft uitgewezen dat kinderen met ASS slechter presteren op klassieke Theory of Mind tests. Ons resultaat suggereert daarom dat Theory of Mind, zoals

geoperationaliseerd in deze studie, geen verklaring vormt voor de sociale beperkingen die kinderen en adolescenten met HFASS laten zien in hun alledaagse sociale interacties. Anderzijds is het vanwege de verbale en expliciete aard van Theory of Mind verhalen mogelijk makkelijker voor individuen met HFASS om de intenties en emoties van een personage uit een verhaal te begrijpen dan de vaak onuitgesproken intenties en emoties van een gesprekspartner tijdens een daadwerkelijke interactie. De mate waarin kinderen en adolescenten met HFASS in staat zijn om de intenties en emoties van anderen correct te identificeren zou weleens in belangrijke mate bepaald kunnen worden door hun aandacht en de mate van expliciete van de emotionele signalen van anderen.

Empathische responsiviteit

In het onderzoek beschreven in hoofdstuk 3 maakten we gebruik van twee verschillende methoden om de empathische responsiviteit van kinderen en adolescenten met en zonder HFASS in kaart te brengen: (1) een observatie van de empathische responsiviteit van het kind richting de onderzoeker, en (2) empathische responsiviteit van het kind zoals gerapporteerd door de ouder. Tijdens het individuele onderzoek liet de onderzoeker op drie verschillende momenten een emotie (blijdschap, verdriet, pijn) zien volgens een gestandaardiseerd protocol. De reacties van elke deelnemer werden op video vastgelegd en achteraf gecodeerd. Een empathische reactie werd gekenmerkt door de passende wijze waarop de deelnemer inging op de emotionele toestand van de onderzoeker ('Gaat het?') of oplossingen aanreikte om de toestand van de onderzoeker te verbeteren. Het bleek dat deelnemers met HFASS doorgaans hetzelfde reageerden op de getoonde emoties van de onderzoeker als de deelnemers met een normale ontwikkeling. Er werd dus geen verschil geobserveerd in empathische responsiviteit tussen de twee groepen. Daarbij moet worden opgemerkt dat beide groepen relatief weinig expliciete empathische reacties lieten zien. Het niet-significante groepsverschil in empathische responsiviteit in deze studie contrasteert met de resultaten van voorgaande onderzoeken onder hoofdzakelijk jonge kinderen met ASS en een verstandelijke beperking. Het lijkt er daarom op dat kinderen en adolescenten met ASS en een normale intelligentie net zo goed (of slecht) als hun leeftijdgenoten zonder ASS reageren op de emoties van een onbekende volwassene in een semigestructureerde situatie. Mogelijk speelt hun normale intelligentie en hun hogere leeftijd een positieve rol in hun empathische responsiviteit.

Ouders van een kind met HFASS bleken echter beduidend minder vaak een empathische reactie te verwachten van hun kind dan ouders van een zich normaal ontwikkelend kind. Deze uitkomst suggereert dat kinderen en adolescenten met HFASS in

het dagelijks leven minder empathisch op de emoties van anderen reageren in vergelijking met hun leeftijdgenoten zonder HFASS. Het is hierbij belangrijk om op te merken dat de meeste ouders met een kind met HFASS aangaven dat hun kind wel degelijk empathisch zou reageren in sommige gevallen (53% van alle door ouders gerapporteerde reacties was een empathische reactie), doch minder frequent in vergelijking met kinderen uit de vergelijkingsgroep (78% van alle gerapporteerde reacties was een empathische reactie).

Zelfpresentatie

In de studie gerapporteerd in hoofdstuk 4 werd een basaal, maar belangrijk onderdeel van het alledaagse sociale verkeer onderzocht: jezelf voorstellen aan een ander. Meer specifiek hebben we gekeken of kinderen en adolescenten met HFASS in staat zijn om zichzelf positief te presenteren en of zij hun zelfpresentatie strategisch kunnen aanpassen aan de specifieke voorkeuren van een toehoorder. Het vermogen om jezelf positief te presenteren aan een ander terwijl je rekening houdt met de voorkeuren van die ander, met andere woorden een succesvolle zelfpresentatie, vereist begrip van wat de ander wil horen (sociaal inzicht), maar hangt ook af van de motivatie om een positief beeld van jezelf neer te zetten (sociale motivatie). Wij vonden dat kinderen en adolescenten met HFASS, net als de deelnemers van de vergelijkingsgroep, positiever over zichzelf vertelden wanneer hun zelfpresentatie een positief doel diende (bijvoorbeeld het vooruitzicht om deel te nemen aan een prijzenspel). Deelnemers met HFASS waren echter minder strategisch in hun zelfpresentatie: zij belichtten minder vaak die specifieke vaardigheden of interesses van henzelf die vooral relevant zijn voor de toehoorder. Als de ander van voetbal houdt, is het bijvoorbeeld handig om je eigen affiniteit met voetbal ter sprake te brengen. Sommige deelnemers met HFASS vertelden echter dat ze het belangrijk vonden om zich niet anders voor te doen dan ze zijn, wat soms ten koste ging van een strategische zelfpresentatie. Mogelijk hechten kinderen en adolescenten met HFASS er minder belang aan een goede indruk te maken op anderen dan hun leeftijdgenoten zonder HFASS. Deze uitkomst ligt in de lijn van steeds meer bewijs voor een verminderde sociale motivatie bij kinderen en adolescenten met ASS (Chevallier, Kohls, Troiani, Brodtkin, & Schultz, 2012b).

Diversiteit in empathie

Wanneer kinderen en adolescenten met HFASS in het dagelijks leven *als groep* minder empathisch reageren in vergelijking met leeftijdgenoten zonder HFASS (zoals gerapporteerd door ouders), betekent dit niet dat elk *individueel* met HFASS minder empathie

toont. De aanname van hoofdstuk 5 is dan ook dat individuele kindkenmerken een belangrijke rol spelen in het wel of niet tonen van empathisch gedrag. Meer specifiek onderzochten we in hoofdstuk 5 of individuele verschillen in temperament, Theory of Mind, en executief functioneren (d.w.z., cognitieve functies die doelgericht gedrag sturen) bijdragen aan verschillen in empathische responsiviteit binnen de groep kinderen en adolescenten met HFASS. Het bleek dat het temperament van een kind met HFASS voorspellend is voor zijn/haar empathische responsiviteit zoals gerapporteerd door ouders. Hoe emotioneler een kind van nature is, hoe minder hij/zij geneigd zal zijn om empathisch te reageren op de emotie van een ander. Daarnaast reageren kinderen met een hoge sociabiliteit, dat wil zeggen kinderen die liever met anderen zijn dan alleen, eerder empathisch op de emotie van een ander. Kortom, kinderen en adolescenten met HFASS verschillen - net als hun leeftijdgenoten in de normale populatie - in hun temperament en deze temperamentsverschillen kunnen betekenisvol worden gekoppeld aan verschillen in hun empathische responsiviteit. Daarnaast viel op dat kinderen die hun gedrag volgens ouders slecht konden remmen (inhibitieproblemen hadden), juist *meer* empathische reacties toonden naar aanleiding van de emoties van de onderzoeker. Kinderen met HFASS die moeite hebben om hun gedrag te controleren, reageren mogelijk impulsiever op de emoties van een onbekende volwassene. Theory of Mind, het vermogen om je in te leven in de gedachten en gevoelens van anderen, bleek niet gerelateerd te zijn aan de mate van empathische responsiviteit. Het gebrek aan samenhang tussen Theory of Mind prestaties en empathische responsiviteit wordt mogelijk veroorzaakt doordat de vaardigheid om de mentale toestand van een personage in een verhaal correct te identificeren (zoals in een Theory of Mind test) niet exact dezelfde is als de vaardigheid om de emotie van een ander op te pikken tijdens een sociale interactie.

Diversiteit in sociaal gedrag

In hoofdstuk 6 bespreken we de verschillende sociale gedragsstijlen van kinderen en adolescenten met ASS en een normale intelligentie. Voorgaand onderzoek naar sociale gedragsstijlen vond tot nog toe voornamelijk plaats onder individuen met ASS en een verstandelijke beperking. Omdat kinderen met een afzijdige of passieve gedragsstijl vaak minder intelligent bleken dan kinderen met een actief-maar-vreemde gedragsstijl (Beglinger & Smith, 2005; Borden & Ollendick, 1994; Castelloe & Dawson, 1993; Roeyers, 1997), bleef het de vraag of hun sociale gedragsstijl niet gewoon paste bij een bepaald intelligentieniveau. In onze studie vertoonde 40% van de kinderen en adolescenten met HFASS een hoge mate van actief-maar-vreemd sociaal gedrag, dat wil zeggen dat zij

relatief vaak sociaal contact initiëren, maar dit op een ongebruikelijke of onhandige manier doen. Kinderen met HFASS die meer actief-maar-vreemd sociaal gedrag lieten zien volgens hun ouders, vertoonden ook meer autistische kenmerken, kenmerken van hyperactiviteit, inhibitieproblemen en socio-emotionele problemen volgens ouders en leerkrachten. Het is daarom belangrijk voor klinici om zich te realiseren dat sociaal actief gedrag van een kind met HFASS niet hoeft te betekenen dat dit kind ook *minder* problemen ervaart dan een kind met HFASS en een overwegend passieve gedragsstijl. Kinderen en adolescenten die vooral actief-maar-vreemd sociaal gedrag laten zien, hebben mogelijk zelfs meer of andersoortige problemen dan zij die zich vooral afzijdig of passief opstellen in de sociale interactie. Deze verschillen kunnen gebruikt worden als mogelijke aanknopingspunten voor meer gepersonaliseerde interventies voor kinderen en adolescenten met HFASS.

Conclusie

Sinds de eerste gedragsbeschrijvingen van kinderen met autisme door Leo Kanner (1943) is er veel veranderd aan de kennis en het beeld dat we hebben van autisme. Toch zijn de meeste wetenschappers en klinici het er nog steeds over eens dat de sociale beperkingen de kern vormen van de stoornis. Een eerste conclusie van dit proefschrift is dat het empathische en sociale onvermogen, zoals dat consistent is vastgesteld in onderzoek bij met name jonge kinderen met ASS (soms met een verstandelijke beperking), minder duidelijk naar voren treedt bij schoolgaande kinderen en adolescenten met ASS en een normale intelligentie (HFASS). Dit onderzoek liet zien dat zij net zo goed als hun leeftijdgenoten zonder ASS in staat zijn om de mentale toestanden van personages te duiden of om empathisch te reageren op de emoties van een ander in een gestructureerde situatie. Het kan zijn dat de structuur van de test (situatie) en hun intellectuele vermogens er gedeeltelijk voor zorgen dat deze kinderen hun empathische en sociale beperkingen kunnen compenseren of verbergen. Ouders geven echter aan dat kinderen en adolescenten met HFASS in het dagelijks leven wel degelijk minder empathie tonen in vergelijking met leeftijdgenoten. Daarnaast lijken sommige kinderen en adolescenten met HFASS gekenmerkt te worden door een verminderde sociale motivatie. Zelfs wanneer ze zich bewust zijn van specifieke sociale eisen die aan hen gesteld worden, weigeren zij soms zich te conformeren aan dit sociaal wenselijke beeld.

Een tweede belangrijke conclusie van dit onderzoek is dat kinderen en adolescenten met HFASS grote onderlinge verschillen laten zien in hun empathische en sociale gedrag. Een gebrek aan empathische responsiviteit of een gebrek aan sociaal

Dutch Summary (Samenvatting)

initiatief lijken niet zo zeer universele kenmerken te zijn van HFASS, maar lijken mede te worden gevormd door individuele verschillen in leeftijd, temperament, inhibitievermogen, en hyperactiviteit. Het is belangrijk voor zowel wetenschappers als klinici om stil te staan bij het gegeven dat het autisme spectrum een heterogene groep van individuen representeert. Zolang we er echter naar streven om mensen op te delen in categorieën (stoornis versus geen stoornis) - wat wellicht in een klinische setting efficiënt en welhaast onvermijdelijk is -, zal de grote diversiteit binnen het autisme spectrum een bron van frustratie en verwarring blijven. Wanneer we deze individuele verschillen echter gaan beschouwen als betekenisvol, kunnen zij gebruikt worden als een belangrijke stap naar een beter begrip van het autisme spectrum.