

A close-up photograph of a child's eye, looking slightly to the right. The eye is a light blue color, and the surrounding skin is fair. The image has a strong blue tint, especially on the left side. The text is overlaid on the image.

Gezien vanuit een ander perspectief

Het verschil in leeftijd waarop blindgeboren en ziende kinderen
perspectief kunnen nemen (Theory of Mind)
en de relatie tussen de Theory of Mind prestatie van blindgeboren kinderen en
de oorzaak van de blindheid

Marieke Janne voor de Wind

1497928

Scriptiebegeleiders Vrije Universiteit Amsterdam

Dr. Sabina Kef, orthopedagogiek

Dr. Rob Licht, klinische neuropsychologie

Inhoudsopgave

Voorwoord	3
Samenvatting	4
Abstract (english)	7
Hoofdstuk 1 Theoretische inleiding	
1.1 Theory of Mind	8
1.2 Autisme Spectrum Stoornis	10
1.3 Blindheid	14
1.4 Comorbiditeit Autisme Spectrum Stoornis, ToM-ontwikkeling en blindheid	18
1.5 Samenvatting en vraagstelling	22
Hoofdstuk 2 Methode	
2.1 Respondenten	24
2.2 Instrumenten	26
Korte termijn geheugen test en taaltesten	
ToM-taken	
2.3 Procedure	30
2.4 Scoring	31
2.5 Analysemethode	32
Hoofdstuk 3 Resultaten	
3.1 Vraagstelling 1	35
3.2 Vraagstelling 2	36
Hoofdstuk 4 Conclusie en discussie	
4.1 Beantwoording van de vragenstellingen	38
4.2 Discussie	39
4.3 Aanbevelingen voor opvoeders en professionals	41
4.4 Vervolgonderzoek	41
Literatuurlijst	43
Bijlage 1	48

Voorwoord

Naar aanleiding van mijn stage bij Visio te Amsterdam kreeg ik de mogelijkheid mee te lopen in een onderzoek van prof. Michael Brambring en drs. Doreen Stahn, beiden verbonden aan de Faculteit Psychologie van de Universiteit van Bielefeld. Met dit onderzoek willen ze bepalen op welke leeftijd blinde kinderen perspectief kunnen nemen. Hiervoor hebben ze een nieuwe testbatterij ontwikkeld die rekening houdt met de meer beperkte wereld van een blind kind. Vanwege een te klein aantal blinde respondenten in Duitsland werd er besloten het onderzoek uit te breiden naar Nederland en België. Om dit te kunnen realiseren hebben prof. Brambring en drs. Stahn contact gezocht met Marjolein Dik, als GZ-psycholoog en neuropsycholoog verbonden aan stichting Visio en tevens voorzitter van het InterLandelijk Overleg vroegbegeleiding (0-6 jaar) van de slechtzienden- en blindeninstellingen van Nederland en Vlaanderen (ILO). Omdat ik op dat moment stage liep bij de stichting Visio en het me een interessant onderwerp leek, werd er besloten dat ik de dataverzameling voor mijn rekening zou gaan nemen in Vlaanderen en Nederland en er mijn masterthese over zou gaan schrijven.

Ik wil hierbij graag van de gelegenheid gebruik maken om de stichting Visio te bedanken (met name Marjolein Dik), alle begeleiders die me hebben geholpen met het benaderen van de kinderen en ouders (van de Nederlandse stichtingen Bartiméus en Sensis, de Belgische instellingen Ganspoel te Huldenberg en KMPI Spermalie te Brugge). Daarnaast wil ik mijn scriptiebegeleiders Sabina Kef en Rob Licht bedanken voor hun kritische blik, overzicht en structurerende hulp. Ten derde wil ik graag de Duitse onderzoekers Michael Brambring en Doreen Stahn bedanken voor de mogelijkheid die ze me geboden hebben en de fijne samenwerking (Danke schön!). Ten vierde wil ik mijn vader, Lydia en Adeline bedanken voor het kritisch (doch met liefde) lezen van deze masterthese. Ten slotte wil ik de blinde kinderen en hun ouders heel erg bedanken voor hun deelname. Het was heerlijk om zo hartelijk te worden ontvangen in de gezinnen, op school en in de instellingen. Bedankt, het was een zeer bijzondere ervaring!

Samenvatting

Een belangrijke stap in de sociaal-emotionele ontwikkeling is het bewust worden van de gedachtes en gevoelens van de ander. Ziende kinderen ontwikkelen deze vaardigheid tussen hun 4^e en 5^e levensjaar. Autisme Spectrum Stoornis is een ontwikkelingsstoornis waarbij kinderen en volwassenen problemen ervaren met het in kunnen leven in de ander. Bij deze stoornis komt deze vaardigheid vaak niet of nauwelijks op gang. Daarnaast hebben mensen met autisme vaak moeite met communiceren en gebruik maken van de verbeelding. De belangrijkste oorzaak van autisme is genetisch. Autisme is een stoornis voor het leven. Veel kinderen en volwassenen met deze stoornis kunnen door middel van een cursus sociale vaardigheden redelijk functioneren in de maatschappij, maar blijven problemen houden in onbekende situaties. Het interpreteren van non-verbale communicatie en het aangaan van een gesprek blijft een heikel punt.

Eerder gepubliceerd onderzoek wijst uit dat blinde kinderen vier tot zes jaar later dan ziende kinderen de mogelijkheid ontwikkelen om zich in te leven in de ander. In de literatuur komt ook naar voren dat de oorzaak van de blindheid invloed heeft op de sociaal-emotionele ontwikkeling van het blinde kind. Uit eerder onderzoek is gebleken dat kinderen met een aanlegstoornis in het neurologische gedeelte van het brein een grotere kans hebben op een ontwikkelingsachterstand dan kinderen met een aanlegstoornis van alleen het oog.

Autisme wordt veel vaker gediagnosticeerd bij blinde kinderen (1% tot 23,5%) dan bij ziende kinderen (0,02% tot 0,07%). Omdat het 'autisme' van het blinde kind niet te vergelijken is met dat van een ziend kind, zou het onterecht zijn om te spreken van autisme. Men spreekt dan ook van 'autistiform' gedrag, wat zoveel betekent als 'gedrag dat veel weg heeft van autisme'. Het autistiforme gedrag van blinde kinderen kan lijken op het typische gedrag van autisten, maar de oorzaak is niet genetisch en zeker niet voor de rest van het leven. Er zijn twee belangrijke (niet genetische) oorzaken waarom blinde kinderen autistiform gedrag laten zien.

1) interactiebeperkingen door het blind zijn

Blinde kinderen krijgen in de communicatie en interactie met anderen minder informatie dan ziende kinderen. Non-verbale communicatie is zeer belangrijk om het gedrag van een ander te begrijpen en in te schatten. Deze informatie krijgen blinde kinderen vaak niet mee. Ziende kinderen zijn vrijer in hun beweging waardoor het spel zich snel in de ruimte verplaatst. Voor het blinde kind is het dan moeilijk te volgen. Daarnaast is het spel vaak visueel gebaseerd. Dit alles zorgt voor wat meer op zichzelf gericht spel van het blinde kind.

- 2) standaard autismetesten gaan uit van visuele ervaring en houden geen rekening met de belevingswereld van het blinde kind

De diagnose autisme wordt vastgesteld door middel van specifieke testen. Een onderdeel is het vaststellen of het kind zich in kan leven in een ander (Theory of Mind, ToM). Deze ToM-testen die in de praktijk veel worden gebruikt zijn ontworpen voor ziende kinderen. Deze materialen sluiten aan op de visuele wereld. Blinde kinderen missen de ervaring met deze handelingen of voorwerpen, waardoor zij lager zouden scoren op deze testen.

Deze laatste oorzaak is de belangrijkste reden waarom Brambring en Stahn een eigen testbatterij ontwikkelden voor het meten van ToM bij blinde kinderen. Bij de samenstelling van de taken werd gebruik gemaakt van bekende en vertrouwde materialen en handelingen voor het blinde kind. Ook werd er rekening gehouden met de afwezige visuele ervaring. Deze testbatterij werd in dit onderzoek gebruikt.

In deze masterthese werd gezocht naar een antwoord op de volgende twee vragen:

- 1) Is er een verschil in leeftijd waarop blinde kinderen met gemiddelde cognitieve vaardigheden perspectief nemen vergeleken met ziende kinderen?

Tussen de 4 en 5 jaar doet 73% van de ziende kinderen de taken correct en tussen de 5 en 6 jaar 92%. Boven de 6 jaar doen alle kinderen de taken correct. Onder de 6 jaar bleek geen van de blinde kinderen het te kunnen. Van de kinderen van 6 tot 7 jaar deed 62% het correct en alle kinderen ouder dan 7 jaar voerden de taken perfect uit.

- 2) Is er een verschil in de mate van perspectief kunnen nemen tussen blinde kinderen die een neurologische of een oogheekundige oorzaak van blindheid hebben?

Er zijn veel onderzoeken die uitwijzen dat het in kunnen leven in de ander wordt vertraagd door neurologische ontwikkelingsdefecten. De blinde kinderen werden in dit onderzoek opgedeeld in twee groepen. Groep 1 bestond uit blinde kinderen waarbij de oorzaak van de blindheid zich in de ontwikkeling van het oog bevond (microphthalmie, anophthalmie, infantiel glaucoom etc). Groep 2 bestond uit blinde kinderen waarbij de oorzaak in de ontwikkeling van het visuele systeem in het brein gelegen was (Leber's amaurosis congenita, optische zenuw hypoplasie etc). Beide blinde groepen verschillen significant van elkaar: de oogheekundige groep presteert hoger dan de neurologische groep. De ziende kinderen verschillen niet met de blinde kinderen met een oogheekundige oorzaak. De ziende kinderen verschillen wel met de blinde kinderen met een neurologische oorzaak: de blinde kinderen met een neurologische oorzaak behalen een lagere score dan de ziende kinderen.

Concluderend

Blinde kinderen kunnen gemiddeld twee jaar later perfect perspectief nemen dan ziende kinderen. Dit is een veel kleiner verschil in leeftijd dan in de literatuur gedacht werd (4-6 jaar). Blinde kinderen met een aanlegstoornis in het hersengedeelte van het visuele systeem hebben een grotere kans op problemen in de ontwikkeling van perspectief nemen dan blinde kinderen met een aanlegstoornis enkel in het oog. De verklaring hiervoor is dat perspectief nemen meer behelst dan alleen het zien. Het interpreteren en redeneren speelt een grote en belangrijke rol.

Belangrijk is te beseffen dat het 'autistiforme gedrag' van blinde kinderen met voorzichtigheid moet worden bekeken. Hierbij moet een scheidslijn worden getrokken tussen het 'normale gedrag' wat voortkomt uit het blind zijn zelf en de mogelijke autistiforme gedragingen of autisme. Zelfs blinde kinderen zonder andere sensorische en cognitieve problemen en een normale ontwikkeling laten een vertraging van ToM zien van twee jaar. Deze twee jaar kan dus gezien worden als de vertraging door de blindheid zelf en is dus een 'normale' vertraging. Met voorzichtigheid moet worden omgegaan met het label autisme bij blinde kinderen, omdat de normale gedragingen van blinde kinderen soms kunnen lijken op die van kinderen met autisme maar een andere oorzaak hebben. Deze test zou gebruikt kunnen worden binnen het diagnostische proces bij de aanwezigheid van autisme bij blinde kinderen. Dit zou wellicht een deel van de overdiagnosticering kunnen tegengaan.

Deze testbatterij zou ook geschikt zijn voor het volgen en vaststellen van de ontwikkeling van ToM bij blindgeboren kinderen. Door de meer tactiel en auditief georiënteerde opgaven is het geschikter voor blinde kinderen dan de gangbare autisme- en ToM-testen en zou het een goed alternatief zijn binnen het sociaal-emotioneel onderzoek.

Preventief zou er bij blinde kinderen meer aandacht moeten worden besteed aan de ontwikkeling van ToM, omdat ze met beperktere informatie deze moeten verwerven. Dit zou kunnen gebeuren door middel van het aanbieden van ToM-gerelateerde taken die meer auditief en tactiel georiënteerd zijn, zodat het kind bewust gemaakt kan worden van de belevingswereld van de ander door middel van de meer tactiele en auditieve eigen 'taal'.

Abstract

An important step in the social and emotional development is perspective taking (or Theory of Mind (ToM)). Seeing children develop ToM between 4 and 5 years old. Literature reports a delay of 4 to 6 years for blind children. Brambring and Stahn developed a test battery of ToM tasks specially made for blind children by choosing familiar materials and actions for the blind. This resulted in tasks which were more tactile and auditive and less visual orientated. With this test battery we tested 46 congenital blind children (28 girls, 18 boys; age in months $M=81.5$ $SD=19.8$) and 107 seeing children (56 girls, 52 boys; age in months $M=61.0$ $SD=6.0$). Blind children showed a developmental delay of two years before doing all tasks correct compared with seeing children ($F(3,153)=10.041$; $p<.001$). When taking the cause of blindness in account we found a significant effect ($F(2,141)=9.87$; $p=.034$). Blind children with the cause of the blindness laying in the development of the eye do not differentiate from the seeing children ($p=.487$). Blind children with the cause of the blindness laying in the development of the brain do worse than the seeing children ($p<.02$). This test is an interesting test as an alternative when testing blind children on their ToM development or presence of Autism Spectrum Disorder.

Hoofdstuk 1 Theoretische inleiding

In deze theoretische inleiding zullen de begrippen Theory of Mind (ToM) en Autisme Spectrum Stoornis (ASS) worden toegelicht en zal er ingegaan worden op de achterliggende neuropsychologische systemen. Hierna zullen de oorzaken van aangeboren blindheid besproken worden. De laatste paragraaf staat in het teken van de comorbiditeit tussen ASS en blindheid.

1.1 Theory of Mind

Definitie

De mogelijkheid om het gedrag van anderen te kunnen verklaren en voorspellen wordt in de literatuur beschreven als een Theory of Mind (Premack & Woodruff, 1978) of mentalizing (Frith, Morton & Leslie, 1991).¹ Kinderen ontwikkelen deze vaardigheid tussen hun vierde en vijfde levensjaar (o.a. Premack & Woodruff, 1978; Ruby & Decety 2001; Wellman, Cross & Watson, 2001).

De ontwikkeling van ToM is onafhankelijk van cultuur (Avis & Harris, 1991) en relatief onafhankelijk van intelligentie (Quintanilla & Rievière, 1992). In het algemeen is er weinig individuele variatie en een zeer korte kritische periode waarin deze vaardigheid ontwikkeld kan worden (Happé, 1995).

Neuropsychologische achtergrond

Vaak wordt er in de literatuur geopperd dat er een verband is tussen de ontwikkeling van ToM en taal. Zonder taal geen redentie, zo wordt verondersteld (Siegal & Varley, 2002; Custer, 1996). Astington en Jenkins (1999) vonden dat de prestatie van driejarige kinderen op ToM-taken voorspeld werd door hun taalcompetentie. De taalcompetentie op driejarige leeftijd voorspelt de latere ToM-prestatie op vier- en vijfjarige leeftijd. De grammaticale ontwikkeling draagt hieraan sterker bij dan de semantische ontwikkeling. Astington en Jenkins (1999) denken dat dit komt omdat er bij toename van de grammaticale complexiteit er een complexere gedachtegang mogelijk is. Kinderen met een Specific Language Impairment (SLI) presteerden even goed op ToM-taken als kinderen zonder SLI (Leslie & Frith, 1988 in: Siegal & Varley, 2002). Dit gold echter niet voor kinderen met grammaticaal georiënteerde problematiek. Deze kinderen maakten meer fouten bij het maken van de ToM-taken. De hersengebieden die

¹ In deze these zal er gesproken worden over Theory of Mind, omdat dit de meest gangbare definitie is.

verantwoordelijk zijn voor de grammaticale verwerking zijn het gebied van Broca (Ba45), de linker nucleus caudatus en het cerebellum (Moro, Tettamanti, Perani, Donati, Cappa & Fazio, 2001). Custer (1996) vond echter geen direct verband tussen de grammaticale ontwikkeling en de ontwikkeling van ToM. Driejarige kinderen reageerden correct als er [Hij *doet alsof* zijn hondje buiten is] werd gezegd, maar incorrect bij de aanbieding van [Hij *denkt* dat zijn hondje buiten is]. Beide zinnen maken gebruik van dezelfde grammaticale vorm, wat dus pleit tegen een direct verband tussen syntax en false-belief begrip.

Executief functioneren² (EF) wordt voornamelijk geregeld in de frontale gebieden van het brein. In veel ToM-testen wordt er een beroep gedaan op het inhibitievermogen, bv. de persoon moet de neiging onderdrukken om de ware locatie aan te wijzen door de locatie van het *false-belief* te kiezen. De ontwikkeling van EF gaat vaak samen met de verdere myelinisering van de rechter frontaalkwab. Tijdens het uitvoeren van ToM-taken werd een verhoogde activering van de linker mediale frontale kwab gevonden (Fletcher, Happé, Frith, Baker, Dolan, Frackowiak & Frith, 1995; Goel, Grafman, Sadato & Hallett, 1995). Maar in een recent verschenen artikel wordt een casus besproken van een vrouw met bilaterale beschadiging van de mediale frontale kwab. Naast een disexecutief syndroom, had ze geen significante problemen op het gebied van ToM (Bird, Castelli, Malik, Frith & Husain, 2004). Ook uit een andere casusstudie komt naar voren dat de ToM intact kan zijn, terwijl de persoon problemen heeft met het doen van een EF-taak (Varley, Siegal & Want, 2001). Dove kinderen blijken ook problemen te hebben met ToM, maar niet met EF-taken (Woolfe, Want & Siegal, 2002).

Surian en Siegal (2001) vergeleken patiënten met laesies in de rechter hemisfeer (RHD) met patiënten met laesies in de linker hemisfeer (LHD) op hun prestatie op ToM-taken. De ToM-taken werden met en zonder visuele ondersteuning aangeboden. De RHD-patiënten hadden meer moeite wanneer de taken zonder visuele ondersteuning aangeboden werden. De fouten die de RHD-patiënten maakten zouden verklaard kunnen worden door interpretatieproblemen van visuospatiële informatie. Visuospatiële verwerking is nodig om een visuele representatie te kunnen maken van de tekstuele informatie. Mensen met laesies in de rechter hemisfeer laten problemen zien bij taken waarbij ze moeten oordelen over de mentale toestand van de ander. In de onderzoeksgroep waren de frontale gebieden vrijwel onbeschadigd, terwijl de laesies voornamelijk in de pariëtale kwab lagen. Ruby en Decety (2001) beschrijven dat de rechter inferieure pariëtale cortex en de precuneus belangrijk zijn bij het onderscheiden van het perspectief van jezelf en dat van anderen. Dit is belangrijk bij een

² Met executief functioneren wordt het doelgericht uitvoeren van taken bedoeld en alles wat daarvoor nodig is: planning, structuur aanbrengen, zelfmonitoring, mentale flexibiliteit en het inhiberen van ongewenste impulsen.

ToM-taak, waarbij het gedachtegoed van de ander moet worden onderscheiden van dat van zichzelf.

Voorgaande studies laten zien dat een ToM-redenatie onafhankelijk is van het grammaticale niveau en niet geheel terug te voeren is op de EF-capaciteit. Ook lijkt de pariëtale kwab niet altijd mee te doen tijdens het uitvoeren van een ToM-taak. Wat het kernsysteem lijkt te zijn van de ontwikkeling van ToM is de amygdala. Een deel van het bewijs hiervoor komt uit het onderzoek naar Autisme Spectrum Stoornis (ASS). ASS is een stoornis, waarbij er stagnatie optreedt bij de ontwikkeling van ToM. Soms ontwikkelt ToM zich in het geheel niet. Personen met een ASS laten voornamelijk afwijkingen zien in de mediale temporale kwab en de amygdala (Baron-Cohen et al., 1999; Abell et al., 1999). Het belang van de amygdala wordt ook benadrukt in het werk van Bachevalier (Bachevalier, 1994; Bachevalier, Malkova & Mishkin, 2001). In zijn onderzoeken laat hij zien dat wanneer bij apen de amygdala bilateraal verwijderd wordt, er sociaal-emotionele gedragsproblemen ontstaan die grote overeenkomsten hebben met ASS bij mensen. Bij mensen lijkt beschadiging van de amygdala te leiden tot nagenoeg dezelfde gedragingen (Cahill, Babinsky & Markowitsch 1995, in: Abell et al. 1999). Zie paragraaf 1.2 voor meer informatie over ASS.

Samenvattend. Bovengenoemde onderzoeken ondersteunen het vermoeden dat de amygdala de basis vormt voor een gros aan sociocognitieve gedragingen. Dit zouden basale processen kunnen zijn zoals het vaststellen van de emotionele significantie van stimuli. Dit kernsysteem zou gecombineerd met een aanvullend systeem (frontaal, rechter pariëtale cortex, de precuneus, het gebied van Broca, de linker nucleus caudatus en het cerebellum), kunnen leiden tot de meer complexe sociocognitieve vaardigheden van de mens zoals Theory of Mind (zie ook Siegal & Varley, 2002).

1.2 Autisme Spectrum Stoornis

Autisme Spectrum Stoornis (ASS) is een stoornis waarbij de ontwikkeling van ToM gestoord tot afwezig is. Happé deed in 1995 een onderzoek bij 70 kinderen met ASS en 70 controle kinderen. De analyse van de data wees uit dat autistische kinderen een veel hogere verbale mentale leeftijd moeten bereiken, voordat zij een 'false-belief' taak³ kunnen volbrengen. Terwijl 50% van de controlegroep rond de leeftijd van 4 jaar deze taak correct deed, doen de kinderen met ASS er meer dan twee keer zo lang over om dit percentage te bereiken (gemiddeld 9;2

³ Tijdens een 'false-belief' taak gaat men na of iemand begrijpt dat een ander een verkeerde opvatting kan hebben over de realiteit.

jaar). Voor een overzicht van onderzoeken naar de leeftijd waarop kinderen met ASS ToM-vaardig zijn, zie Happé (1995).

De afwezigheid van ToM is niet het enige wat aan de basis ligt van ASS (Frith & Happé, 1994). In deze paragraaf zal de definitie worden gegeven van een Autisme Spectrum Stoornis. Ten eerste zal er worden ingegaan op de specifieke gedragingen en cognities, waarna er gekeken zal worden naar mogelijke breangebieden die betrokken zijn bij deze ontwikkelingsstoornis.

Definitie

ASS is een pervasieve ontwikkelingsstoornis⁴ met een genetische oorzaak. De stoornis kan in een onaangepaste omgeving leiden tot een beperking. De beperking is onder andere afhankelijk van het karakter van de persoon, de ontwikkelingsleeftijd en omgevingsfactoren (London, 2000).

De diagnose van ASS wordt in Nederland meestal vastgesteld aan de hand van criteria zoals vastgelegd in het diagnostische handboek, de DSM-IV-TR (American Psychiatric Association [APA], 2001). De prevalentie van ASS ligt bij ziende kinderen van 4 tot 10 jaar tussen de 0,02% en de 0,07% (Yeargin-Allsopp et al., 2003). Jongens hebben een drie tot vier keer grotere kans op het ontwikkelen van ASS dan meisjes (Frith, 2001). ASS wordt gekenmerkt door een afwijkende communicatie, verbeelding en sociale interactiepatronen.

Mensen met ASS laten vaak afwijkingen in de communicatie zien. Voor zowel het receptieve als het expressieve taalgebruik geldt dat voor mensen met ASS de techniek van de taal (onder andere grammatica en woordenschat) geen problemen geeft, maar de sociale aspecten van communicatie wel (pragmatiek). Hier ligt het beperkte inlevings- en verplaatsingsvermogen aan ten grondslag. In de praktijk betekent dit dat mensen met ASS goed om kunnen gaan met taalgebruik dat letterlijk en concreet is. Problemen doen zich voor als de andere partij sarcastische, spreekwoordelijke of emotioneel gekleurde begrippen gebruikt. Hoe abstracter de begrippen worden, hoe moeilijker het wordt om te begrijpen (Tager-Flusberg, 1996).

Personen met ASS hebben moeite met verbeelding. Personen met ASS hebben problemen met in- en deduceren. Doordat mensen met ASS fragmentarisch denken is het daarnaast moeilijk voor hen om het grote geheel te zien. Als het beeld dat zij kennen verandert, zullen zij opnieuw beginnen met het waarnemen van alle individuele kenmerken van het beeld om te komen tot het grote geheel (Baron-Cohen et al., 1999).

Mensen met ASS ervaren vaak problemen tijdens de sociale interactie. Op sociaal gebied is de wederkerigheid het grootste probleem. Voor een persoon met ASS kan het erg

⁴ Een pervasieve ontwikkelingsstoornis is een stoornis die het gehele functioneren van de persoon beïnvloedt.

moeilijk zijn om zich te redden tijdens een sociale interactie, omdat er geen duidelijke en vaste regels zijn en zij dus weinig houvast hebben. Door hun probleem met ToM is het ook erg moeilijk om zich in de gevoelens en de gedachten van de ander te verplaatsen. Sommige autisten zijn ook niet goed in het verwoorden van hun eigen gevoelens, omdat deze veel te abstract zijn om daar een concrete betekenis aan toe te kennen (Loveland et al., 1997).

Oorzaak Autisme Spectrum Stoornis

Er bestaan verschillende factoren die ASS kunnen veroorzaken zoals virale infecties en stofwisselingsstoornissen. De belangrijkste oorzaak van ASS lijkt genetisch te zijn. Tweelingonderzoek wijst uit dat de concordantie bij eeneiige tweelingen 36-90% is, terwijl bij twee-eiige tweelingen dit percentage vergelijkbaar is met de kans op ASS bij broers/zussen van kinderen met ASS (Maestrini, Paul, Monaco & Bailey, 2000). Aan de hand van een review van Cody, Pelphrey en Piven (2002) wordt er in deze paragraaf een overzicht gegeven van de onderzoeken die zijn gedaan naar de neuropsychologische systemen.

In een anatomisch onderzoek van Abell et al. (1999) is er bij mensen met ASS sprake van een verkleind volume grijze stof van de amygdala. De amygdala heeft een verbinding met de ventrale temporale cortex en de inferieure cingulate cortex. Deze connecties zijn wederkerig. De connectie met de temporale kwab zorgt er voor dat visuele stimuli worden beoordeeld op hun emotionele significantie en dat er betekenis aan wordt verleend. De connecties met de frontale kwab zorgen er voor dat de mentale toestand (zoals emoties) gecontroleerd en gemoduleerd kunnen worden (Abell et al., 1999). Abell et al. (1999) vonden ook afwijkingen in de rechter inferieure temporaalkwab en in de grijze stof van het cerebellum. Naast de afwijkingen in de grijze stof van de amygdala, vonden onderzoekers bij personen met ASS afwijkingen in de linker mediale temporaalkwab (Baron-Cohen et al., 1999; Abell et al., 1999). Bauman en Kemper (1994) vonden in een postmortumonderzoek cellulaire afwijkingen in het limbische systeem⁵ en in posterieure en inferieure regio's van het cerebellum. Hardan, Minshew en Keshavan (2000) vonden in hun studie dat de anterieure regio's van het corpus callosum (CC) kleiner waren bij personen met ASS ten opzichte van personen zonder deze stoornis. Vooral in het voorste gedeelte van het CC (genu), waarvandaan de projecties van en naar de prefrontale cortex lopen.

Naast anatomisch onderzoek is er ook onderzoek gedaan naar hersenletsel. Het belang van de amygdala wordt benadrukt door het werk van Bachevalier (Bachevalier, 1994; Bachevalier et al., 2001). Na bilaterale verwijdering van de amygdala bij apen ontstonden er

⁵ Het limbische systeem bestaat uit de hippocampus (vorming van het lange termijn geheugen), de gyrus cinguli (evaluatie van beloning en straf), de hypothalamus (regulatie autonome zenuwstelsel dmv hormonen), de amygdala (agressie en angstregulatie) en de orbitofrontale cortex (het nemen van beslissingen en affectieve leerprocessen).

sociaal-emotionele gedragsproblemen. De geobserveerde gedragingen hebben overeenkomsten met ASS bij mensen, zoals verminderde initiatie tot sociaal contact, ontwijking van sociaal contact, stereotype gedragingen en abnormale communicatieve gedragingen (bv. in de gezichtsuitdrukking, lichaamshouding en in het maken van oogcontact). Bij mensen leidt amygdalabeschadiging tot een abnormaal affect, problemen bij de herkenning van gezichten en een verkleinde geheugenopslag voor emotionele inhoud van verhalen (Cahill, Babinsky & Markowitsch 1995, in: Abell et al. 1999).

Naast anatomische studies en studies naar hersenletsel zijn er ook functionele studies gedaan naar de werking van het brein van mensen met ASS. Happé et al. (1996) vergeleken de hersenactiviteit van volwassenen met en zonder het syndroom van Asperger⁶. Ze werden gescand terwijl ze verhalen lazen en vragen moesten beantwoorden over mentale of niet-mentale interferenties. Ook al beantwoordden beide groepen de vragen correct, de volwassenen met het syndroom van Asperger lieten minder activatie zien in de mediale prefrontale regio, terwijl de piek in de activatie meer ventraal in de frontale cortex lag. In een fMRI-studie vergeleken Baron-Cohen et al. (1999) mensen met en zonder ASS. Hen werd gevraagd om uit een aantal woorden een emotie te kiezen die het beste paste bij een foto van een gezicht. In de controleconditie werd gevraagd te zeggen of het een man of een vrouw was. De volwassenen met ASS lieten bij de emotioneel getinte taak minder activatie zien in frontale regio's en geen activiteit in de amygdala.

Samenvattend. In zowel anatomische studies, studies naar hersenletsel en functionele studies naar de werking van het brein lijkt er een belangrijke rol weggelegd te zijn voor de amygdala. Baron-Cohen et al. (2000) spreken dan ook van een '*amygdala theory of autism*'. Op functioneel en anatomisch niveau lijkt de (mediale) prefrontale cortex ook een rol te spelen. Anatomisch komen er nog een paar gebieden naar voren, zoals de linker mediale temporaalkwab en de rechter inferieure temporaalkwab, delen van het cerebellum, het genu van het CC en het limbische systeem. Het onderzoeken via (f)MRI-studies van de neurologische basis van autisme heeft voornamelijk bevindingen opgeleverd die nog niet gerepliceerd zijn (Cody, Pelphrey en Piven, 2002).

⁶ Het syndroom van Asperger, ook wel hoogfunctionerend autisme genoemd, is een vorm van ASS waarbij de intelligentie en taalontwikkeling niet of weinig is gestoord (Ehlers & Gillberg, 1993).

1.3 Blindheid

In deze paragraaf wordt een definitie gegeven van blindheid, waarna een korte uitleg volgt over de normale werking van het visuele systeem. Ten slotte zullen de meest voorkomende oorzaken van congenitale blindheid aan bod komen.

Definitie

De International Classification of Impairments, Disabilities & Handicaps definieert blindheid als *'the inability to see or the loss or absence of perception of visual stimuli'* met een visus van minder dan 3/60 en een gezichtsveld van minder dan 5° (World Health Organisation, 2004) ⁷.

Als een kind blind geboren wordt, spreken we van congenitale blindheid. Er bestaan verschillende oorzaken van congenitale blindheid. Congenitale blindheid kan ontstaan door een aanlegstoornis of een perinatale beschadiging op verschillende plekken in het visuele systeem. Om te begrijpen wat er mis gaat, is het belangrijk om eerst te kijken naar hoe het gezonde visuele systeem werkt.

Het visuele systeem

Licht valt ons oog binnen en wordt via fotoreceptoren doorgegeven aan de retinale ganglioncellen in het netvlies. De axonen van deze neurale cellen vormen de gezichtsenuw. Deze projecteert naar de colliculus superior in de hersenstam (voor visuele reflexen en ruimtelijke oriëntatie van het lichaam). Ook projecteert de optische zenuw naar de nucleus suprachiasmaticus van de hypothalamus (biologische klok). Ten slotte projecteert het via het corpus geniculatum lateralis (CGL) van de thalamus naar de primaire visuele cortex (V1). Men kan in deze projectie verschillende parallel lopende banen onderscheiden: de meest onderzochte zijn de parvocellulaire en magnocellulaire stromen. Het parvocellulair systeem is bijzonder gevoelig voor trage doch spatieel fijne contrastveranderingen, terwijl het magnocellulair systeem gevoeliger is voor snelle doch spatieel grove contrastveranderingen. Laesies in het parvocellulair systeem leiden bovendien tot een sterke stoornis in het zien van kleur. Deze twee complementaire, parallelle systemen worden tot op zekere hoogte vermengd in de visuele cortex. De visuele informatie komt binnen in de primaire visuele cortex (V1). (Wolters & Groenewegen, 2004; Anderson, Northam, Hendy & Wrennall, 2001; Gazzaniga, Ivry & Mangun, 2002; Kalat, 2001)

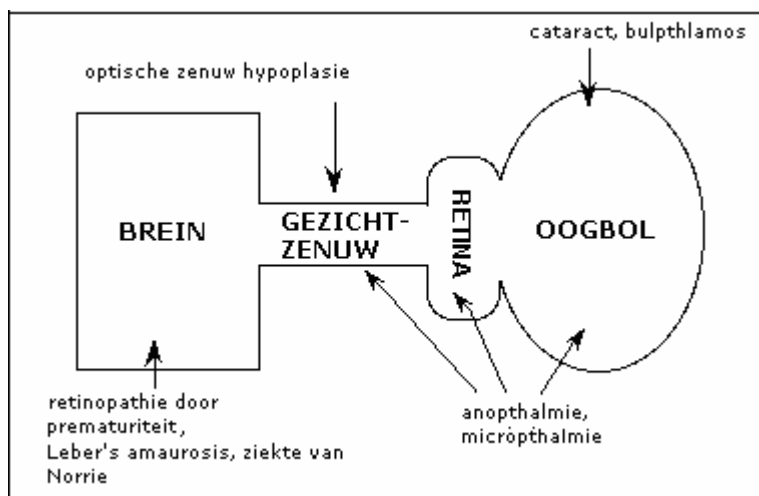
Op basis van de fysiologische en anatomische eigenschappen, alsook op basis van letselstudies bij mens en aap, kan men in de visuele cortex twee verschillende stromen van

⁷ De definities die worden gebruikt in de besproken artikelen kunnen afwijken van de definitie van de World Health Organisation.

informatieverwerking onderscheiden: de temporale/ventrale stroom en de pariëtale/dorsale stroom. Beide stromen vertrekken vanuit V1. De ventrale stroom gaat naar de inferotemporale cortex, terwijl de dorsale stroom naar de pariëtale kwab gaat. Op basis van letselstudies en de fysiologische eigenschappen van neuronen in de verschillende gebieden wordt er van uitgegaan dat de ventrale stroom visuele informatie verwerkt die van belang is om voorwerpen te herkennen (wat en wie?), terwijl de dorsale stroom informatie verwerkt om voorwerpen te lokaliseren, te kunnen manipuleren alsook om zich te kunnen verplaatsen in de buitenwereld (waar en hoe?). Dorsale stroomgebieden krijgen hoofdzakelijk magnocellulaire input terwijl de ventrale gebieden zowel magno- als parvocellulaire input krijgen (Wolters & Groenewegen, 2004; Anderson, Northam, Henty & Wrennall, 2001; Gazzaniga, Ivry & Mangun, 2002; Kalat, 2001).

Oorzaken congenitale blindheid

Uit prevalentieonderzoeken in Engeland, Wales en Scandinavië komt naar voren dat tussen de 0,01 en de 0,04% van de kinderen blind geboren wordt (Gilbert & Awan, 2003). Zoals eerder gezegd, kan congenitale blindheid ontstaan door een aanlegstoornis of een perinatale beschadiging op verschillende plekken in het visuele systeem, zie ook figuur 1. Vaak wordt er een tweedeling gehanteerd in de oorzaken van de blindheid (Cass, 1996; Ek et al, 1998). Beide onderzoekers maakten twee groepen: de ene groep met kinderen met de oorzaak van de blindheid gelegen in het neurale gedeelte van het visuele systeem en de andere groep met een ontwikkelingsstoornis in het oog zelf. Deze wordt dan ook gebruikt om in deze paragraaf de oorzaken van congenitale blindheid te groeperen.



Figuur 1 Overzicht van de verschillende oorzaken van congenitale blindheid

In deze masterthese worden twee groepen congenitale blindheid vergeleken op basis van de indeling van Cass (1996). Ten eerste zullen de (voornamelijk) in het oog gelegen oorzaken van de blindheid aan de orde komen en ten tweede de oorzaken die in het neurale gedeelte van het visuele systeem liggen.

Een voorbeeld van een oorzaak van congenitale blindheid die voornamelijk in het oog gelegen is, is an- en microphthalmia. Anophthalmia refereert aan de complete afwezigheid van de oogbol, maar in aanwezigheid van het oculair adnexa⁸. Microphthalmia wordt gedefinieerd als de grootte van de oogbol twee standaarddeviaties onder het leeftijdsgemiddelde ligt. Zowel anophthalmia als microphthalmia kan zich uni- of bilateraal manifesteren. Het kan ondergebracht worden bij een syndroom, geïsoleerd of in combinatie met andere anomalieën voorkomen (Bardakjian, Weiss & Schneider, 2006). Volgens prevalentieonderzoek van Vogt, Puhó en Czeizel (2005) heeft 3% tot 11% van de blindgeboren kinderen microphthalmia. Na het combineren van data van drie grote registers van congenitale malformaties (Frankrijk, Zweden en California) vonden Kallen, Robert en Harris (1996) een prevalentiecijfer van 1,5 per 10.000 gezonde kinderen voor anophthalmia.

Primair infantiel glaucoom, ook wel congenitaal glaucoom genoemd, is een aangeboren ontwikkelingsdefect van het kanaal van Schlemm (die het oogvocht afvoert). Het manifesteert zich in de neonatale of infantiele periode met verhoogde oogdruk, corneavergroting en oedeemvorming. Door de zeldzaamheid van de stoornis wordt het vaak niet correct gediagnosticeerd en blijft het onbehandeld (De Luise & Anderson, 1983). In West-Europa komt deze stoornis voor bij 1 op de 10.000 kinderen (Francois, 1972). In Slowakije, China en India komen prevalentiecijfers van 1 op de 2.500 voor en is het verantwoordelijk voor 4,2% van congenitale blindheid (Dandona et al., 2001).

Naast de oorzaken in de oogaanbouw, zijn er ook oorzaken van blindheid die meer in het neurale gedeelte van het visuele systeem liggen. Norrie ontdekte een zeldzame genetische vorm van congenitale blindheid die soms samengaat met mentale retardatie (Norrie, 1927 in: Parkes, 1999). De conditie is zo zeldzaam dat Warburg (1966) maar 15 mensen vond in Zweden en Denemarken⁹. De ziekte van Norrie wordt gekenmerkt door infantiele blindheid, retinale pseudo-tumoren en oculaire atrofie. Soms komen mentale retardatie, sensorisch-neurale doofheid, dysmorfe kenmerken en atonische epileptische aanvallen voor (Parkes, 1999).

⁸ Oculair adnexa is de medische term voor de structuren om het oog, bestaande uit de oogleden, oogslimvlies en de structuur die de tranen uit het oog wegsluit.

⁹ Denemarken en Zweden tellen 24,3 miljoen inwoners.

Leber's congenitale amaurosis (LCA) is de belangrijkste en meest ernstige vorm van alle erfelijke vormen van retinale dystrofie en is een van de belangrijkste oorzaken van blindheid bij kinderen. 3 op de 100.000 kinderen wordt geboren met LCA (Perrault et al., 1996). LCA is een autosomaal recessieve conditie die bij de geboorte of tijdens de eerste levensmaand leidt tot totale blindheid of een zeer ernstige visusverlaging in combinatie met een normale fundus en een niet opwekbaar ERG. Ook komen nystagmusklachten en stereotypen als oogboren¹⁰ veel voor in de eerste levensmaanden. Schappert-Kimmijser, Henkes en Van den Bosch (1959) ontdekten bij 25% van de kinderen met LCA neuropsychiatrische problemen. Nickel en Hoyt (1982) ontdekten dat drie van de 31 patiënten een hypoplasie van het cerebellair vermis lieten zien op een CT-scan. Zij verklaarden dit doordat tijdens de actieve differentiatie van de fotoreceptorlaag van de retina ook het vermis¹¹ wordt gevormd.

Optische zenuw hypoplasie is een niet-progressieve congenitale afwijking welke ontstaat door een gereduceerde hoeveelheid axonen in één of beide optische zenuwen. Het heeft een prevalentie van 6,3 op de 100.000 kinderen in de Zweedse populatie tussen de geboorte en 19 jaar (Blohmé & Tornqvist, 1997). Het kan voorkomen als een puur geïsoleerde stoornis, maar het gaat vaak samen met congenitale cerebrale malformaties. Tornqvist, Ericsson en Källé (2002) deden onderzoek bij 156 kinderen met optische zenuw hypoplasie en vonden dat 39 kinderen ook cerebrale malformaties bij de geboorte lieten zien.

Retinopathy of prematurity (ROP) is een oogandoening die soms tot blindheid leidt. Wanneer een kind na een voldragen zwangerschap ter wereld komt, zijn de retinale bloedvaten voor het grootste gedeelte aangelegd. Als een baby echter te vroeg geboren wordt, kunnen de bloedvaten stoppen met groeien voordat deze de uiteinden van de retina bereikt hebben. Hierdoor krijgt de periferie van de retina niet genoeg zuurstof en voedingsstoffen. Palmer (2003) schrijft dat de periferie van de retina dan signalen zendt naar andere gebieden van de retina voor voedingsstoffen, met als gevolg dat er abnormale bloedvaten beginnen te groeien. Deze vaten zijn meestal fragiel en zwak en kunnen bloedingen veroorzaken. Deze bloedingen leiden uiteindelijk tot de vorming van littekenweefsel. Wanneer deze littekens krimpen, ontstaat er loslating van de retina wat uiteindelijk kan leiden tot blindheid (Stilma, 2001). Kinderen die blind geboren worden met ROP hebben vaak neurologische problemen (50% is meervoudig beperkt) (Hungerford, Stewart en Hope, 1986). In Amerika is de prevalentie van ROP 0,36 op de 10.000 kinderen, waarvan 35% blind geboren wordt. ROP is een stoornis die voorkomt bij prematuur geboren kinderen, met een extra risico bij kinderen met een laag geboortegewicht (<1.250

¹⁰ Oogboren is het met één of meerdere vingers duwen tegen de ogen.

¹¹ Het vermis is een onderdeel van het cerebellum (de kleine hersenen) en ontvangt en verstuurt informatie over de positie en de balans van de romp van het lichaam (Schmahmann, 2000).

gram). Deze stoornis, welke meestal binoculair is, is een van de meest voorkomende oorzaken van slechthooftheid en blindheid in de kindertijd.

1.4 Comorbiditeit Autisme Spectrum Stoornis, ToM-ontwikkeling en blindheid

In deze paragraaf zal kritisch worden gekeken naar de comorbiditeit van ASS en blindheid. Ten eerste wordt gekeken naar het onderzoek dat gedaan is naar de ontwikkeling van ToM bij blinde kinderen. Ten tweede zullen de autistische gedragingen van blinde kinderen vergeleken worden met ASS bij ziende kinderen. Ten derde zal gezocht worden naar de verschillende oorzaken voor deze autistische gedragingen bij blinde kinderen. Er wordt afgesloten met een discussie over het methodegebruik bij de besproken onderzoeken.

Blinde kinderen en de ontwikkeling van ToM

Blinde kinderen lijken een vertraagde ontwikkeling van ToM te hebben in vergelijking tot ziende kinderen. Ziende kinderen kunnen ToM-taken tot een goed einde brengen rond hun 4^e à 5^e jaar (zie paragraaf 1.1).

In enkele studies werd onderzocht in hoeverre blinde kinderen perceptueel perspectief kunnen nemen. Het eerste onderzoek (Landau en Gleitman, 1985) was een longitudinaal single-case onderzoek naar taalverwerving. Op de leeftijd van 3;7 jaar oud, kon het meisje zich inleven in de belevingswereld van een ziende (ze draaide zich om, om de achterzakken van haar broek te laten zien). Op 4;8 jarige leeftijd kon ze beredeneren dat haar moeder, die achter een scherm stond, het object wat zij in haar hand had niet kon zien.

In contrast met Landau en Gleitman's single-case studie, geven de meeste onderzoeken hogere leeftijden bij de verwerving van ToM. Bigelow (1991a) vergeleek het perspectief nemen van drie blinde kinderen (6;4, 7;4 en 7;8 jaar), drie slechthoofden (5;7, 5;8 en 6;1 jaar) en negen ziende kinderen in drie leeftijdsgroepen (3;4-4;1, 4;3-4;11 en 5;8-6;2 jaar). De blinde kinderen deden het significant slechter dan de andere groepen. Bigelow (1991b) vroeg de kinderen om hun lichaam te verstoppen voor de onderzoeker. Ook al waren de blinde kinderen ouder, ze maakten meer fouten dan de andere kinderen. De slechthoofden verschilden niet significant met de ziende kinderen. Als de 6- en 7-jarige blinde kinderen werd gevraagd hun gehele lichaam te verstoppen, doken ze in elkaar en deden ze hun ogen dicht. Dit gedrag zie je ook bij 2-jarige ziende kinderen. Pas op 8- à 9-jarige leeftijd verlieten bijna alle kinderen de kamer om zich te verstoppen. Maar zelfs in deze leeftijdscategorie waren er kinderen die tegen een muur gingen staan en hun handen voor hun ogen hielden.

Farrenkopf en Davidson (1992) bestudeerden 21 blinde kinderen van 3 tot 8 jaar oud. Hun taakprestatie werd vergeleken met 60 ziende kinderen, waarvan de ene helft van de kinderen geblinddoekt werden en de andere helft niet. De kinderen werden in drie leeftijdsgroepen verdeeld (3-4, 5-6, 7-8 jaar). Blinde kinderen lieten een slechtere prestatie op de mate van perspectiefname zien in alle leeftijdsgroepen vergeleken met de ziende kinderen (zonder en met blinddoek). De enige uitzondering was dat er in de jongste groep (3-4 jaar) geen verschil werd gevonden tussen de geblinddoekte ziende kinderen en de blinde kinderen.

Onderzoek laat zien dat blinde kinderen problemen ervaren om in het eerste stadium van perceptueel perspectief nemen te komen. Waar ziende kinderen deze vaardigheid rond hun 2^e à 3^e jaar eigen maken, kunnen blinde kinderen het rond 6 à 7 jaar. Voor deze leeftijd lijkt het alsof ze een cognitieve gedachtegang missen omtrent de mogelijkheden en beperkingen van het blind zijn. Kinderen die blind zijn baseren hun oordeel over wat de ander kan zien op hun tactiele ervaring.

Autistiforme gedragingen blinde kinderen vs Autisme Spectrum Stoornis

Blinde kinderen worden vaker gediagnosticeerd met ASS (1-23%) dan ziende kinderen (0,02-0,07%). Bijna alle onderzoekers zijn het er over eens dat het gevonden 'autisme' bij blinde kinderen anders is dan ASS bij ziende kinderen (Green, Pring & Swettenham, 2004; McAlpine & Moore, 1995; Minter, Hobson & Bishop, 1998; Peterson, Peterson & Webb, 2000). Brambring (2004) noemt het gediagnosticeerde 'autisme' dan ook 'autistiform': de kinderen laten bepaalde kenmerken zien die lijken op autisme, maar is kwalitatief te onderscheiden van een autistische stoornis bij ziende kinderen. Het autistiforme gedrag van blinde kinderen verschilt met het ASS van ziende kinderen op de kwaliteit van sociaal-emotionele problematiek en op het gebied van taal en communicatie.

Blinde kinderen en ziende kinderen met ASS hebben vaak problemen in de sociale interactie met anderen (D'Allura, 2002; Gense & Gense, 2005). Zowel blinde als ziende kinderen met ASS laten repetitief spel zien en maken vreemd gebruik van speelgoed. Daarnaast tonen ze weinig interesse in sociale interactie en prefereren ze het in hun eentje spelen boven het spelen met anderen (Frith, 2003 in: Andrews & Wyver, 2005; Gense & Gense, 2005). Toch zijn er ook verschillen gevonden tussen deze twee groepen. In een onderzoek van Hobson, Lee en Brown (1999) werden zes blinde kinderen met ASS en zes ziende kinderen met ASS met elkaar vergeleken. Een minderheid van de blinde kinderen liet een abnormale omgang met mensen en een abnormale emotionele expressie zien, terwijl een meerderheid van de ziende kinderen met ASS dit toonde. Door middel van de CARS (Childhood Autism Rating Scale) kenmerkten de blinde kinderen zich door meer echolalie, meer imitatie en meer symbolisch spel (Hobson et al., 1999). Ook Brown et al. (1997) zagen

iets vergelijkbaars: blinde kinderen met ASS en een IQ hoger dan 70 verschillen met ziende kinderen met ASS in hun contact met anderen, lichaamsgebruik, proeven, ruiken en voelen, het gebruik van objecten en het activiteitsniveau. Ook vonden de onderzoekers bij blinde kinderen met ASS minder interactief spel, vaker een ongebruikelijke reactie op objecten, ander soort spel en meer stereotypische lichaamshouding en motorische acties.

Hobson et al. (1999) vonden ook dat blinde kinderen met ASS een normalere taal- en communicatieontwikkeling lieten zien. Zij toonden minder vaak afwijkingen op het gebied van toonhoogte, volume, lengte van de woorden en intonatie. Blinde kinderen met een IQ hoger dan 70 verschillen met ziende kinderen in (non)verbale communicatie en de blinde kinderen lieten meer directe echolalie horen (Brown et al., 1997).

Samenvattend. Geconcludeerd kan worden dat het autistiforme gedrag van blinde kinderen kwalitatief anders is dan het gedrag dat ASS bij ziende kinderen typeert. Hierdoor rijst de vraag: Als de oorzaak van deze gedragingen ergens anders ligt, mogen we dan wel van autistiform gedrag spreken? Wat is de oorzaak van deze gedragingen van blinde kinderen? Onderzoekers zoeken dit in de interactieproblemen die ontstaan door het blind zijn zelf en medische oorzaken.

Oorzaken 'autistiforme gedragingen' bij blinde kinderen

Onderzoekers zoeken de oorzaak van de autistiforme gedragingen in de interactiebepervingen die het blind zijn met zich meebrengt: (a) het gebrek aan visuele coördinatie (Hobson, 1993) zoals bij wederkerig kijkgedrag (McAlpine & Moore, 1995; Minter, Hobson & Bishop, 1998; Recchia, 1997), (b) een verminderde joint attention¹² (Baron-Cohen & Ring, 1994; Green, Pring & Swettenham, 2004; Minter, Hobson & Bishop, 1998) en (c) de problemen bij het observeren van emotionele cues door middel van gezichtsuitdrukking, handgebaren of lichaamshouding (McAlpine & Moore, 1995; Minter, Hobson & Bishop, 1998).

Een blind kind moet op basis van de (beperkte) informatie die het binnenkrijgt een beeld van de wereld vormen en hiermee interacteren. Het is de blindheid die zorgt voor een andere benadering van de wereld, niet een onderliggende (genetisch georiënteerde) stoornis als ASS.

Naast de blindheid worden er ook meer medische/ neurologische oorzaken aangehaald als vroege medische complicaties en hersenbeschadiging. Blinde kinderen laten het stereotype oogboren vaker zien als zij een gecompliceerde vroege medische geschiedenis achter de rug hebben (prematuuriteit, laag geboortegewicht en meerdere medische procedures). Mc Hugh en

¹² Joint attention of gedeelde aandacht wordt gedefinieerd als de triadische coördinatie van aandacht tussen een kind, een andere persoon en een voorwerp of gebeurtenis, waarbij beide partijen zich bewust zijn van de aandachtsfocus van de andere (Tomasello, 1995).

Lieberman (2003) claimen dan ook dat als een kind vroeg in de ontwikkeling motorisch, tactiel en sociaal beperkt wordt door ziekenhuisopname, dit zou kunnen leiden tot atypische bewegingen later in de kindertijd.

Keeler schrijft in zijn artikel van 1958 dat de interactie tussen congenitale blindheid, emotionele verwaarlozing en hersenbeschadiging leidt tot autismeachtige gedragingen (in: Hobson et al., 1999). Cass deed in 1996 een onderzoek naar perspectiefname van blindgeboren kinderen. Zij ontdekte dat alle kinderen met een afwijking in het neurale gedeelte van het visuele systeem (bv. nervus opticus, retina) een ontwikkelingsachterstand lieten zien, terwijl geen van de kinderen met een afwijking in de ontwikkeling van de oogbol (congenitaal cataract, infantiel glaucoom) dit had. De steekproef bestond uit blinde kinderen (n=32) die verschilden in de mate van ontwikkelingsachterstand. Blindgeboren kinderen met een IQ lager dan 70 gedroegen zich niet tot nauwelijks anders dan ziende autisten op basis van autismeachtige gedragingen. De groep met een IQ lager dan 70 bestond voor het grootste gedeelte (44%) uit kinderen met ROP (Brown et al., 1997). Ek et al. (1998) deden onderzoek naar de relatie tussen ASS en blindheid veroorzaakt door ROP of een erfelijke retinale stoornis. 15 van de 27 proefpersonen met ROP hadden een autismestoornis. Van de kinderen met een erfelijke retinale stoornis, vielen er maar twee van de 14 binnen de diagnose ASS. Omdat ROP sterk geassocieerd wordt met hersenbeschadiging, concludeerden de onderzoekers dat de diagnose voor ASS mogelijk gemedieerd wordt door hersenletsel of –disfunctie (Hungerford et al, 1986).

Methodegebruik

Zoals al eerder genoemd is een van de belangrijkste diagnostische criteria voor ASS een gestoorde of afwezige ToM. Er zijn vraagtekens te zetten bij de manier waarop ToM bij blinde kinderen wordt getest. Vaak worden er testen gebruikt die ontworpen zijn voor ziende kinderen. Het belangrijkste bezwaar is dat er taken worden gebruikt waarvoor het kind visuele ervaring nodig heeft. Het grootste deel van deze taken bestaat uit materiaal waar blinde kinderen geen of een beperkte ervaring mee hebben. Een voorbeeld is een taak waarbij het kind een theepot met zand krijgt (Minter, Hobson & Bishop, 1998). Het kind wordt gevraagd naar wat het verwacht in de theepot te vinden. 42% van de blindgeboren kinderen kiest zand boven thee (tegenover 2% van de ziende kinderen). Hierdoor beantwoorden blinde kinderen de hierop volgende perspectiefnamevraag ook fout (nl. Wat zou een vriendje/ vriendinnetje denken dat er in zit, voordat hij/ zij het leeg mocht gieten?). Ouders van blinde kinderen zijn vaak terughoudend in het zelfstandig laten inschenken van vloeistoffen (en helemaal hete vloeistoffen als thee) waardoor de blinde kinderen deze ervaring missen (Lewis & Iseline, 2002).

Om deze methodische problemen te ondervangen, ontwikkelden Brambring en Stahn (in press) nieuwe soorten ToM-taken die zich onderscheiden door: (a) een hoge mate van bekendheid en vertrouwdheid voor het blinde kind met zowel het materiaal als de handeling en (b) geen beduidende rol voor visuele ervaring in het oplossen van de taak. Brambring en Stahn maakten gebruik van tactiel en auditief georiënteerde taken. In de methodesectie van deze thesis zal verder in worden gegaan op de samenstelling van deze taken (zie ook paragraaf 2.2).

1.5 Samenvatting en vraagstelling

Een belangrijke stap in de sociaal/emotionele ontwikkeling is het bewust worden van de gedachten en gevoelens van de ander (ToM). Ziende kinderen ontwikkelen deze vaardigheid gemiddeld genomen tussen hun 4^e en 5^e levensjaar. Het neuropsychologische verklaringsmodel gaat uit van de functie van de amygdala (het kernsysteem). Dit zou, gecombineerd met een goedfunctionerende rechter pariëtale cortex, de precuneus, het gebied van Broca, de linker nucleus caudatus en het cerebellum, kunnen leiden tot meer complexe socio-cognitieve vaardigheden zoals ToM. Een vertraagde of afwezige ToM is een van de belangrijkste problemen bij personen met ASS.

ASS is een pervasieve ontwikkelingsstoornis die wordt gekenmerkt door een afwijkend sociaal interactiepatroon en afwijkingen in de communicatie en verbeelding. De prevalentie van ASS ligt bij ziende kinderen van 4 tot 10 jaar tussen de 0,02 en de 0,07%. Het komt 3 tot 4 keer vaker voor bij jongens dan bij meisjes. De belangrijkste oorzaak van ASS is genetisch. Het neuropsychologische verklaringsmodel omvat de amygdala (kernsysteem) en de mediale prefrontale cortex, delen van het cerebellum, limbisch systeem en de linker mediale en rechter inferieure temporaalkwabben als subsystemen.

Congenitale blindheid kan ontstaan door een aanlegstoornis of een perinatale beschadiging op verschillende plekken in het visuele systeem. Tussen de 0,01 en 0,04% van de kinderen wordt blind geboren. De meest voorkomende oorzaken van blindheid zijn syndromen (als LCA, ziekte van Norrie), oogaanbouwproblemen (micro- en anophthalmia), nervus opticus hypoplasie, infantiel glaucoom en ROP.

De prevalentie van "ASS" ligt hoger bij blinde kinderen (1% tot 23,5%) dan bij ziende kinderen (0,02% tot 0,07%). De oorzaak van deze gedragingen ligt echter ergens anders, namelijk in de sociale beperkingen die blindheid met zich meebrengt, de medische geschiedenis en de visuele georiënteerdheid van de gebruikte testen bij het diagnosticeren van ToM. Een vertraagde of afwezige ToM is een van de belangrijkste problemen bij personen met autisme. De weinige onderzoeken die gedaan zijn naar de ontwikkeling van ToM bij blinde

kinderen laten een vertraging zien van vier tot zes jaar ten opzichte van ziende kinderen (van acht tot tien jaar). Blindgeboren kinderen met afwijkingen in het neurale gedeelte van het visuele systeem laten een grotere ontwikkelingsachterstand zien dan de kinderen met afwijkingen in het oog alleen.

Brambring en Stahn (in press) ontwikkelden een eigen testbatterij voor het meten van ToM die gebruik maakt van bekende en vertrouwde materialen en handelingen voor het blinde kind en waarbij geen visuele ervaring nodig is. Deze testbatterij zal in deze masterthese gebruikt worden om twee vragen te beantwoorden.

De eerste vraag is: (1) Is er een verschil in leeftijd waarop blinde kinderen met gemiddelde cognitieve vaardigheden perspectief nemen vergeleken met ziende kinderen? Hierbij zullen zowel blinde als ziende kinderen de speciale test (Brambring en Stahn, in press) voorgelegd krijgen. De verwachting is dat de blinde en de ziende kinderen op dezelfde leeftijd perspectief kunnen nemen.

De tweede vraag is: (2) Is er een verschil in de mate van perspectief kunnen nemen tussen blinde kinderen die een neurologische of een oogheekundige oorzaak van blindheid hebben? De groep blinde kinderen zal daarvoor, net als in het onderzoek van Cass (1996) en Ek et al. (1998), opgedeeld worden in twee groepen. De eerste groep zal bestaan uit de kinderen die afwijkingen laten zien in de aanleg van en in de oogbol: micro- en anophthalmia, congenitaal cataract, infantiel glaucoom. De tweede groep zal bestaan uit kinderen die stoornissen laten zien in de retina en verder: ROP, LCA, ziekte van Norrie en nervus opticus hypoplasie. Deze twee groepen blinde kinderen zullen vervolgens vergeleken worden. De verwachting is dat de blinde kinderen bij wie de oorzaak van de blindheid meer neurologisch is, een lagere gemiddelde score zullen behalen dan de blinde kinderen waarbij de oorzaak van de blindheid meer oogheekundig is.

Hoofdstuk 2 Methode

In deze methode- en resultatensectie zal een overzicht worden gegeven van de respondenten, instrumenten, procedure, scoring en de gebruikte analysemethode. In deze masterthese werd gebruik gemaakt van de gegevens van het promotieonderzoek van drs. Stahn. Voor een uitgebreider verslag van de data verwijs ik dan ook naar het proefschrift van Stahn (in press).

2.1 Respondenten

Blinde kinderen

Selectie. De Duitse blinde kinderen werden geworven via zowel reguliere als speciale scholen. In Nederland en België werden ouders benaderd via de begeleiders van de instellingen voor blinden en slechtzienden. De inclusiecriteria voor de blinde kinderen waren: (a) blind vanaf de geboorte, (b) 4 tot en met 9 jaar oud, (c) afwezigheid van sensorische en cognitieve problemen, (d) afwezige indicatie voor autisme en (e) een goede taalvaardigheid en geheugen.

Respons. Dit resulteerde in een groep van 55 kinderen die zich aanmeldden (38 Duitse, 14 Nederlandse en 3 Vlaamse). In de loop van het onderzoek moesten de gegevens van negen kinderen buiten beschouwing gelaten worden. Drie kinderen bleken niet blind te zijn vanaf hun geboorte, twee kinderen hadden een niet toereikende taalvaardigheid (zie 2.2.1), drie kinderen hadden een beneden gemiddelde score op de geheugentaak (standaardscore <7; zie ook 2.2.1) en een kind had omvangrijke cognitieve problemen volgens de begeleider.

Gebruikte gegevens. Dit resulteerde in een groep van 46 congenitale blinde kinderen. De groep bestond uit 28 meisjes en 18 jongens met een gemiddelde leeftijd van 81,5 maanden (SD=19,8). De Duitse groep bestond uit 32 kinderen met een gemiddelde leeftijd van 83,5 maanden (SD=21,1). De Vlaamse groep bestond uit 3 kinderen met een gemiddelde leeftijd van 78,0 maanden (SD=15,8). De Nederlandse groep bestond uit 11 kinderen met een gemiddelde leeftijd van 76,3 maanden (SD=16,5). In tabel 1 zijn de oogheeskundige gegevens van de kinderen weergegeven (n=46), met de groepsindeling zoals die gebruikt zal worden bij de beantwoording van de vraagstelling (zie paragraaf 2.5).

Oorzaak van de blindheid	n
Microphthalmia	6
Anophthalmia	5
Congenital cataract	1
Infantiel glaucoom	2
ROP	6
LCA	13
Ziekte van Norrie	2
Optische zenuw hypoplasie/ atrofie	2
Onbekend	9

Tabel 1 Oorzaak van de blindheid (n=46)

Ziende kinderen

Selectie. De ziende kinderen werden geworven via reguliere Duitse scholen. In Nederland en België werden geen ziende kinderen getest. De inclusiecriteria voor de Duitse ziende kinderen waren: (a) 4 tot en met 7 jaar oud, (b) afwezigheid van sensorische en cognitieve problemen, (c) afwezige indicatie voor autisme en (d) goede taalvaardigheid en geheugen. De leeftijdscategorie gaat t/m 7 jaar bij de ziende kinderen (in plaats van t/m 9 jaar bij de blinde kinderen), omdat Brambring en Stahn er voor hebben gekozen om jongere ziende kinderen mee te nemen in de analyse. Dit omdat uit de literatuur naar voren komt dat ziende kinderen de ToM-taken kunnen oplossen tussen het 4^e en 5^e jaar. De scores van oudere ziende kinderen (boven de 6/7) zouden een plafondeffect laten zien en dus weinig extra informatie geven. Bovendien waren de onderzoekers er voornamelijk in geïnteresseerd of de drie versies met elkaar vergeleken konden worden en of de opgaven voor de blinde kinderen moeilijker waren voor de ziende kinderen.

Respons. Dit resulteerde in een groep van 111 ziende Duitse kinderen. In de loop van het onderzoek moesten de gegevens van vier kinderen buiten beschouwing gelaten worden. Een kind had een niet toereikende taalvaardigheid en de drie andere kinderen hadden een beneden gemiddelde score op de geheugentaak (standaardscore <7).

Gebruikte gegevens. Dit resulteerde in een groep van 107 kinderen (56 meisjes en 51 jongens). Deze kinderen hadden een gemiddelde leeftijd van 61,0 maanden (SD= 6,0).

Effect nationaliteit/ testafnemer

De Duitse (ziende en blinde) kinderen werden getest door Doreen Stahn en de blinde Nederlandse en Belgische kinderen werden getest door de schrijver van deze masterthese. Er werden geen significante verschillen gevonden tussen de Nederlands-Belgische groep en de

Duitse groep blinde kinderen (t-toets voor onafhankelijke groepen: sexe $t(44)=-0,335$ $p>0,5$; leeftijd $t(44)=1,023$ $p>0,1$; korte termijn geheugen $t(44)=0,851$ $p>0,1$). Het Duitse protocol is vertaald in het Nederlands en de gebruikte taaltest is verschillend voor de Duitse en de Nederlands-Belgische groep. Het enige verschil was de gebruikte taal, maar de materialen waren in beide onderzoeksgroepen exact hetzelfde.

2.2 Instrumenten

Korte termijn geheugen-test en taaltesten

Het korte termijn geheugen werd in zowel de Nederlands-Belgische als de Duitse groep getest door middel van de subtest getallen nazeggen (of de Duitse variant 'Zahlen nachsprechen') van de Kaufman Assessment Battery for Children (K-ABC, Kaufman & Kaufman, 2001).

De taalvaardigheid werd in de Duitse variant getest door middel van twee verschillende taaltests. Kinderen tot 5;11 jaar kregen twee testen: een geheugentest voor zinnen ('Satzgedächtnis'; SG) en een fonologische werkgeheugentest voor nonsenswoorden ('Phonologisches Arbeitsgedächtnis für Nichtwörter'; PGN) uit een standaard Duitse taalontwikkelingsbatterij voor 3- tot 5-jarigen ('Sprächentwicklungstest für drei- bis fünfjährige Kinder': SETK 3-5; Grimm, 2001). Kinderen vanaf zes jaar kregen een subtest waarbij ze pseudo-woorden moesten verdelen in syllaben ('Pseudosegmentierung': PWS) uit een Duitse test voor basis lees- en schrijfvaardigheid ('Basiskompetenzen für Lese-Rechtscheibleistungen', BAKO 1-4; Stock, Marx & Schneider, 2003) en een subtest voor het imiteren van grammaticale structuren ('Imitation grammatischer Strukturen': IGS) uit een standaard Duitse taalontwikkelingstest ('Heidelberger Sprächentwicklungstest': HSET; Grimm & Schöler, 1991). Voor de Nederlandstalige kinderen werd er eenzelfde subtest afgenomen voor alle leeftijden: de Woordvormen-Productietest van de Taaltest voor Kinderen (TvK, van Bon, 1982).

ToM-taken

Allereerst kregen alle kinderen taken die vaardigheden meten die voorafgaan aan het conceptuele perspectief nemen (Wellman & Liu, 2004). Deze bestonden uit: (a) spatieel perspectief nemen (niveau 1 en 2), (b) het vermogen te discrimineren tussen realiteit en fantasie en (c) het herkennen van andermans overtuigingen. Hiervoor werden standaardtaken gebruikt zoals beschreven door Flavell (1988) en Wellman en Liu (2004). Deze taken werden in eerder onderzoek afgenomen bij blinde kinderen (Bigelow, 1988; Farrenkopf & Davidson, 1992; Peterson, Peterson & Webb, 2000).

Naast deze taken werden er negen nieuwe ‘first-order false-belief’ taken ontworpen om de klassieke ‘first-order false-belief’ taken te vervangen. Tijdens de constructie van deze taken werd uitgegaan van de volgende principes: (a) het materiaal moet een hoge mate van bekendheid en vertrouwdheid hebben voor het blinde kind, zoals tandenborstels en lepels, (b) de gevraagde handeling moet bekend zijn en (c) de taken moeten kindvriendelijk zijn. Dit resulteerde in negen taken die tactiel en auditief georiënteerd waren en weinig tot niet appelleerde op visuele ervaring. Naast de vijf taken die een beroep deden op reeds opgedane ervaring, werden er ook vier ‘first-order false-belief’ taken ontworpen waarbij de verwachting van de uitkomst alleen gerelateerd was aan de taak.

De negen taken zullen hieronder behandeld worden aan de hand van vier subcategorieën: (a) primair visueel georiënteerd, (b) primair auditief georiënteerd, (c) primair tactiel georiënteerd en (d) visueel-tactiel georiënteerd. Er zijn drie versies gemaakt van alle negen taken (zie voor een volledig overzicht van de taken Brambring & Stahn, in press). In de Nederlands-Belgische versie werd echter gekozen voor één versie, dit omdat het eenvoudiger is één soort taak te leren. Alle versies blijken even moeilijk te zijn (Brambring en Stahn in press). In deze masterthese zullen alleen de taken besproken worden die werden gebruikt bij het testen van de Nederlandse en Belgische kinderen (zie tabel 2).

Sensorische modaliteit van de taak	Ervaringsgerelateerd	Taaknummer	Inhoud van de taak
Primair visueel	Ja	(1)	Hamburgerdoosje met sok
	Nee	(2)	Kast met laden dinosauriër – haai – huisje
Primair auditief	Ja	(3)	CD ¹ 1,2,3,4,5, trring
	Nee	(4)	Trap met geluid ¹ hond – haan – baby of hard – zacht – sirene
Primair tactiel	Ja	(5)	Vorgelezen verhaal Martin en Lisa ¹ zie bijlage 1
	Nee	(6)	Tastplank ¹ Ruw – glad – zacht
Visueel-tactiel	Ja	(7)	Tandenborstellepel
	Nee	(8)	Tastzakken borstel – dobbelsteen – speen
	Ja	(9)	Voorwerp veranderd munt – doosje – portemonnee

¹ Taken die zowel in de korte als de lange versie van het onderzoek gebruikt werden. De overige taken werden alleen bij de langere versie gebruikt.

Tabel 2 De negen verschillende taken van Brambring en Stahn (in press)



Figuur 2 Primair visueel georiënteerde taak



Figuur 3 Primair auditief georiënteerde taak



Figuur 4 Primair tactiel georiënteerde taak



Figuur 5 Visueel-tactiel georiënteerde taak

Primair visueel georiënteerd

Ervaringsgerelateerd. Het kind werd een hamburgerdoosje gegeven en gevraagd wat er in zat. Als het kind het open maakte bleek er een sok in te zitten. De doos werd weer dichtgemaakt en het kind werd gevraagd wat een vriendje zou zeggen als het de doos zou zien/voelen (zie ook de procedure in McAlpine et al., 1995).

Geleerde sequentie. Er werd een kast aangeboden met zes laden (zie figuur 2). Het kind moest de laden een voor een openen en zeggen wat er in zat. De inhoud van de lades bevatten opeenvolgend haai - dinosauriër - haai - dinosauriër - haai. Het kind werd vanaf de vierde lade gevraagd wat het verwachtte. Als het kind een incorrect antwoord gaf, werd de sequentie tot aan de vierde lade herhaald. Dezelfde procedure werd herhaald bij de vijfde lade. In deze, en alle volgende sequentiële leertaken, werd er gecontroleerd of het kind de regelmaat doorkreeg zodat het laatste voorwerp (in dit geval een huisje in de zesde en laatste lade) als een verrassing zou komen. Er werd een (herinnerings)vraag gesteld: "Weet je nog wat je dacht dat er zou komen, voordat je de laatste lade had open gemaakt?". Hierna werd gevraagd wat het vriendje zou zeggen als hij bij de laatste lade aangekomen zou zijn (de perspectiefnamevraag).

Primair auditief georiënteerd

Ervaringsgerelateerd. Er werd een CD aangezet waarop een stem: "1 - 2 - 3 - 4 - 5" zei. Hierna werd op de pauzeknop gedrukt en werd het kind gevraagd hoe het dacht dat het verder zou gaan. Daarna kwam er het onverwachte geluid: telefoongerinkel. Ten slotte werden de herinnerings- en perspectiefnamevragen gesteld.

Geleerde sequentie. Er werd een trap aangeboden met op elke trede een knopje waar een geluid uit komt (zie figuur 3). De standaardtaak die werd gebruikt was hondengeblaf – haangekraai – hondengeblaf – haangekraai – hondengeblaf – haangekraai en het onverwachte item: babygehuil. Omdat het mechaniek in de trap halverwege het onderzoek kapot ging, moest over gegaan worden op een andere sequentie: luide toon - zachte toon - luide toon - zachte toon - luide toon en het onverwachte geluid: sirene. Hierna werden de herinnerings- en perspectiefnamevragen gesteld.

Ervaringsgerelateerd. De onderzoeker las een verhaaltje voor. In dit verhaal gaat persoon A weg en persoon B verandert van plaats. De vraag is dan: Waar zoekt persoon A persoon B als hij/zij terugkomt? (zie ook bijlage 1).

Primair tactiel georiënteerd

Geleerde sequentie. Een tastplank werd aangeboden. Onder elke klep was een oppervlakte die betast diende te worden: ruw – glad – ruw – glad – ruw en het onverwachte item: watten (zie figuur 4). Hierna werden de herinnerings- en perspectiefnamevragen gesteld.

Visueel-tactiel georiënteerd

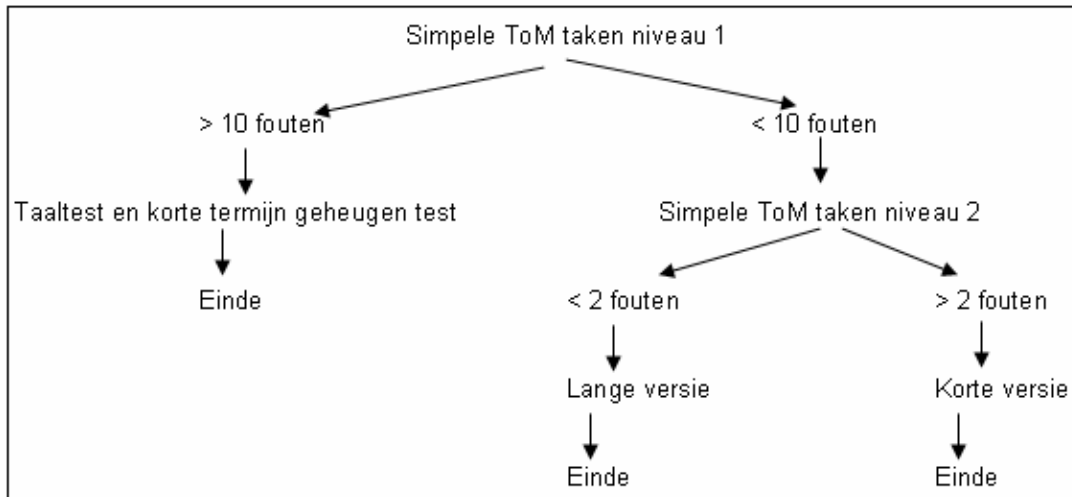
Ervaringsgerelateerd. Een tandenborstellepel (zie figuur 5) werd aangeboden aan het kind, zodanig dat het lepelgedeelte in de hand van de onderzoeker werd verborgen. Het kind kon alleen de kop van de tandenborstel voelen. Het moest hierna raden wat er in de hand van de onderzoeker zat. Hierna werden de herinnerings- en perspectiefnamevragen gesteld.

Geleerde sequentie 1. Er werd een plank met tastzakken aangeboden waarin in elk zakje een voorwerp zat. Deze voorwerpen waren niet zichtbaar maar alleen te voelen. De voorwerpen die in de zakjes zaten waren: dobbelsteen – borstel – dobbelsteen – borstel – dobbelsteen. Hierna kwam het onverwachte voorwerp: een speen. Tenslotte werden de herinnerings- en perspectiefnamevragen gesteld.

Geleerde sequentie 2. Drie objecten werden aangeboden waarin iets opbergen kan worden: een rieten mand, een doosje met deksel en een portemonnee. Met een van de ouders naast het kind werd een munt in de doos gedaan. Hierna ging de ouder weg en werd de munt door het kind 'stiekem' in de portemonnee gedaan. Het kind werd gevraagd waar de ouder zou gaan zoeken als hij/ zij terug zou komen.

2.3 Procedure

De volgorde van de afname van de taken werd opgesteld door Brambring en Stahn (in press). Elke sessie begon met de simpele ToM-taken: spatieel perspectief nemen (niveau 1 en 2), het vermogen om te discrimineren tussen realiteit en fantasie en het herkennen van overtuigingen van de ander. Als het kind op al deze taken faalde, werd afgesloten met de taal- en korte termijn geheugentest. Als het kind niveau 1 van het spatieel perspectief nemen goed deed maar niveau 2 niet, kreeg het de volgende vier 'first-order false-belief' taken en de geheugen- en taalttest (CD, trap met geluiden, voorgelezen verhaal en tastplank, zie ook tabel 2). Kinderen die beide niveaus goed deden kregen alle taken (negen stuks) en de geheugen- en taalttest. Als het kind meer dan twee fouten maakte op de simpele ToM-taken niveau 2, kon de onderzoeker kiezen om de langste versie af te nemen. Zie figuur 6 voor een overzicht.



Figuur 6 Volgorde van afname (Brambring & Stahn, in press)

Aan de ouders van de kinderen werd naast een informatieve brief, een toestemmingsformulier meegestuurd. Na ontvangst van dit toestemmingsformulier werd contact opgenomen met de ouders. Zij konden zelf de meest geschikte plaats van het onderzoek kiezen: thuis, op school, op het kinderdagverblijf of op de kinderopvang. De kortste versie duurde een kwartier tot twintig minuten, de korte versie een uur en de langste versie tussen een uur en anderhalf uur. Van tevoren kon niet worden ingeschat hoe lang een kind bezig was, dus werd er ruim de tijd genomen. Bij de langste versie werd een pauze ingelast. Binnen het onderzoek was altijd ruimte om naar de wc te gaan of iets te drinken. Alle onderzoeken werden opgenomen met een videocamera. De ouder(s) was/waren in bijna alle gevallen aanwezig en soms ook een begeleider. De ouder(s) werd/werden actief betrokken bij de simpele ToM-taken en taak 9 (zie tabel 2). De kinderen waren enthousiast tijdens de afname en ervoeren het als een spel. Ze hielden het goed vol en konden zich goed concentreren.

2.4 Scoring

Tijdens het onderzoek werd er op toegezien dat de kinderen de objecten benoemden, aangaven hoe het voelde, klonk of waar het zich bevond. In de zeven taken met onverwachte uitkomst werd als eerste gevraagd naar de eigen 'false-belief' van het kind (herinneringsvraag), vervolgens naar het 'false-belief' van de ander (perspectiefnamevraag). Deze vragen werden niet in een willekeurige volgorde aangeboden, omdat Minter, Hobson en Bishop (1998) geen significant volgorde-effect vonden.

Voor de herinneringsvraag werd een temporele cue gegeven, bv. "Weet je nog wat je dacht dat er te horen zou zijn, voordat je de knop in had gedrukt?". Voor de perspectiefnamevraag kon het kind aan zowel een ziend(e) als blind(e) vriend(in) refereren. De kinderen kregen ook hier een temporele que, bv. "Als ik deze dingen ook zou laten voelen aan [naam vriend(in)] en ik zou net als bij jou hier helemaal bovenaan beginnen. Hier hadden we een haai, een dinosauriër, een haai, een dinosauriër, een haai... Dan zou ik stoppen voordat de laatste la open zou gaan en ik zou aan haar/ hem vragen: 'Wat denk je wat er nu komt?' Wat zou hij/ zij dan antwoorden?"

Antwoorden op de herinneringsvraag werden correct gerekend als het kind de eigen originele verwachting gaf. De perspectiefnamevraag werd correct bevonden als deze werd beantwoord met een (soortgelijk) antwoord dat zij zelf hadden gegeven. Het antwoord werd incorrect bevonden als het kind de onverwachte uitkomst of een soortgelijke uitkomst noemde.

Bij de taak waarin de munt verplaatst werd, werden aan het kind twee controlevragen gesteld: "Waar is de munt nu?" en "Weet mama/ papa waar het is?". Hierop volgde de perspectiefnamevraag: "Waar gaat mama/ papa zoeken als ze straks terugkomt?". Bij het verhaaltje hoefde het kind alleen de perspectiefnamevraag te beantwoorden. Kinderen werden bij elke vraag beloond om hun inzet, onafhankelijk van hoe goed ze het deden.¹³

2.5 Analyseprocedure

Vraagstelling 1

De eerste vraag die beantwoord diende te worden in deze masterthese was de volgende: Is er een verschil in leeftijd waarop blinde kinderen met gemiddelde cognitieve vaardigheden perspectief nemen vergeleken met ziende kinderen?

	Ziend (n=107)	Blind (n=54)
4 – 4;11 jaar	42	7
5 – 5;11 jaar	58	8
6 – 6;11 jaar	4	13
7 – 7;11 jaar	3	26

Tabel 3 Verdeling van de ziende en blinde kinderen over de leeftijdscategorieën

¹³ Het volledige protocol kan opgevraagd worden bij de auteurs (voor adresgegevens, zie Brambring & Stahn, in press).

Er is sprake van een scheve verdeling van de leeftijd (LFT) over de groepen blind en ziend (zie tabel 3). LFT ligt hoger in de blinde groep dan in de ziende groep ($t(49)=6,99$; $p<0,001$). Ook matching is niet mogelijk, omdat de leeftijd over de twee groepen niet gelijkmatig is verdeeld. Hierdoor kan LFT niet worden meegenomen als afhankelijke variabele.

Allereerst werd een tabel gemaakt met het aantal kinderen, de gemiddelden en de standaardafwijkingen van de leeftijdsgroepen gesplitst in ziend/ blind. Om het nog duidelijker te illustreren wordt er een tabel met percentages gemaakt van de kinderen die wel en niet perspectief kunnen nemen, ook over de verschillende leeftijdsgroepen. Het perspectief kunnen nemen wordt in Brambring en Stahn (in press) omschreven als de situatie waarin een kind zeven of meer van de negen vragen goed beantwoordt.

Omdat LFT niet als afhankelijke variabele meegenomen kan worden, worden de kinderen in vier leeftijdscategorieën opgedeeld (4 jaar=4;0-4;11, 5 jaar=5;0-5;11, 6 jaar=6;0-6;11 en 7 jaar=7;0-7;11). De somscore op de correct beantwoorde perspectiefnamevragen (PERSP_SOM) wordt gebruikt als afhankelijke variabele. Hierna worden er twee groepen gevormd. Groep A (ziende kinderen) en groep B (blinde kinderen). Door middel van een Mann-Whitney non-parametrische toets voor onafhankelijke groepen, wordt getoetst of er per leeftijdscategorie (per jaar) verschillen zijn te vinden op PERSP_SOM. De groepsvariabele is ZIENDBLIND en PERSP_SOM is de afhankelijke variabele.

Vraagstelling 2

De tweede vraag die beantwoord dient te worden in deze masterthese is de volgende: Is er een verschil in de mate van perspectief kunnen nemen tussen blinde kinderen die een neurologische of een oogheelkundige oorzaak van blindheid hebben?

Ten eerste worden alleen de blinde kinderen geselecteerd uit de totale steekproef ($n=46$). De oorzaak van de blindheid wordt door middel van een vragenlijst aan de ouders achterhaald. Bij negen kinderen is het (nog) niet duidelijk wat de oorzaak van de blindheid is; deze kinderen worden niet meegenomen in de analyse. De rest van de kinderen ($n=37$) wordt ingedeeld in twee groepen naar de oorzaak van de blindheid (Cass, 1996; zie ook tabel 1). Groep A ($n=14$) wordt gevormd door de kinderen die afwijkingen laten zien in de aanleg van en in de oogbol: micro- en anophthalmia, congenitaal cataract en infantiel glaucoom. Groep B ($n=23$) bestaat uit kinderen die stoornissen laten zien in de retina en verder: ROP, LCA, ziekte van Norrie en nervus opticus hypoplasie. De groepen (OOGNEURO) worden door middel van de Mann-Whitney non-parametrische toets voor onafhankelijke groepen vergeleken op LFT, sexe (SEXE) en het korte termijn geheugen (KTG). Een t-toets kan niet worden uitgevoerd, omdat er minder dan 30 cases in de beide groepen zitten.

Vervolgens wordt er een ANCOVA uitgevoerd met als groepsvariabele OOGNEURO en als afhankelijke variabele PERSP_SOM. De variabelen die significant verschilden (LFT, SEXE en/of KTG) worden meegenomen in de analyse als covariaat. Als geen van de variabelen significant is, wordt er een Mann-Whitney toets gedaan met PERSP_SOM als afhankelijke variabele en OOGNEURO als groepsvariabele. Deze ANCOVA wordt uitgevoerd per leeftijdscategorie (zie vraagstelling 1). Hierna worden de gemiddelden en standaardafwijkingen berekend.

Hoofdstuk 3 Resultaten

3.1 Vraagstelling 1

In de volgende tabel (tabel 4) worden de leeftijdscategorieën met de bijbehorende percentages wel/ niet perspectief kunnen nemen voor de ziende en de blinde kinderen weergegeven.

Het wel/ niet perspectief kunnen nemen	Ziend		Blind	
	Nee	Ja	Nee	Ja
Leeftijd				
4 – 4;11 jaar	27% (10)	73% (31)	100% (7)	0% (0)
5 – 5;11 jaar	8% (3)	92% (55)	100% (8)	0% (0)
6 – 6;11 jaar	0% (0)	100% (4)	38% (5)	62% (8)
7 – 7;11 jaar	0% (0)	100% (3)	0% (0)	100% (26)

Tabel 4 Het wel/ niet perspectief kunnen nemen van kinderen van blinde/ ziende kinderen in verschillende leeftijdscategorieën (aantal proefpersonen tussen haakjes)

Omdat meerdere cellen minder dan 5 respondenten bevatten, kan een Chi-kwadraattoets geen uitsluitsel geven over significante verschillen tussen de te onderscheiden categorieën. Wel zien we dat op een bepaalde leeftijd alle kinderen (100%) perspectief kunnen nemen. Dit lijkt voor de blinde groep ongeveer 2 jaar later te gebeuren. Als alternatief wordt een nonparametrische toets voor onafhankelijke groepen (Mann-Whitney) gebruikt. Hiermee wordt er gekeken of de groepen (BLINDZIEND) op de variabele PERSP_SOM significant verschillen. Dit wordt gedaan bij elke afzonderlijke leeftijdscategorie. Bij de 4- en 5-jarigen is er een significant effect van BLINDZIEND ($U=7,00$ $z=-4,10$ $p<0,001$; $U=0,50$ $z=-4,74$ $p<0,001$). De ziende kinderen behalen hier een hogere score dan de blinde kinderen. Bij de 6- en 7-jarigen werd er geen significant verschil gevonden ($U=22,50$ $z=-1,035$ $p>0,1$; $U=43,00$ $z=-0,826$ $p>0,1$). De ziende en blinde kinderen behalen in deze leeftijdscategorieën een gelijke score. Zie ook tabel 5.

Somscore perspectiefname Leeftijd	Ziend			Blind			Significantie
	N	M	SD	N	M	SD	P
4 – 4;11 jaar	42	6,8	2,0	7	1,0	1,4	<0,001
5 – 5;11 jaar	58	7,9	1,0	8	1,5	1,7	<0,001
6 – 6;11 jaar	4	7,8	0,4	13	6,1	3,0	>0,1
7 – 7;11 jaar	3	8,3	0,5	26	8,5	0,7	>0,1

Tabel 5 Somscore perspectiefname van de blinde en ziende kinderen per leeftijdscategorie in jaren

3.2 Vraagstelling 2

	Sexe		Leeftijd (in maanden)		Korte termijn geheugen (t-waarde)	
	♀	♂	M	SD	M	SD
Oogheelkundig	12	3	88,5	16,9	10,3	12,0
Neurologisch	10	11	79,9	17,3	10,5	2,0

Tabel 6 Groepssamenstelling vraagstelling 2

De groepssamenstelling staat in tabel 6. Door middel van de Mann-Whitney non-parametrische toets voor onafhankelijke groepen wordt er gekeken of groep A (oorzaak van de blindheid is oogheelkundig) en groep B (oorzaak van de blindheid is neurologisch) significant verschillen op de variabelen sexe, de gemiddelde leeftijd en het korte termijn geheugen. De groepen verschillen niet significant op sexe ($U=111,50$ $z=-2,06$ $p>0,05$), de gemiddelde leeftijd ($U=121,00$ $z=-1,44$ $p>0,1$) en de prestatie op de korte termijn geheugentest ($U=144,00$ $z=-0,75$ $p>0,1$).

Hierna wordt een Mann-Whitney toets uitgevoerd met OOGNEURO als groepsvariabele en PERSP_SOM als afhankelijke variabele. Het effect van OOGNEURO is niet significant ($U=123,00$ $z=-1,42$ $p>0,1$). De gemiddelden en de standaardafwijkingen staan in tabel 7.

Persepctiefname	N	M	SD
Oorzaak blindheid			
Oogheekundig	16	7,27	2,76
Neurologisch	21	5,19	3,74
Ziend	107	7,48	1,57

Tabel 7 De somscores van het aantal correct beantwoorde perspectiefnamevragen van de oorzaak van de blindheid

Interessant is het om ook de ziende groep mee te nemen in de analyse, zodat de drie groepen onderling met elkaar vergeleken kunnen worden. Dit wordt gedaan door middel van een ANCOVA met drie groepen (DRIEGROEPEN: groep A 'blind met oogheekundige oorzaak', groep B 'blind met neurologische oorzaak' en Groep C 'ziend'). Als afhankelijke variabele wordt PERSP_SOM genomen en als covariaat LFT (dit omdat de leeftijd van de groep ziende kinderen immers significant afwijkt van de andere groepen).

Er worden geen significant interactie-effect gevonden (DRIEGROEPEN*LFT $F(2,141)=2,98$; $p>0,05$). Er is een significant effect voor DRIEGROEPEN na controle voor LFT ($F(2,151)=12,76$; $p<0,001$). Een contrast-analyse laat zien dat groep A en groep C niet significant van elkaar verschillen ($p=0,57$), maar groep B en C wel ($p=0,002$). Groep A en B verschillen nu ook ($p=0,003$). Ziende kinderen behalen een hogere score dan de blindgeboren kinderen met een neurologische oorzaak. Blinde kinderen met een oogheekundige oorzaak behalen een hogere score dan de blinde kinderen met een neurologische oorzaak. Ziende kinderen en de blindgeboren kinderen met een oogheekundige oorzaak behalen een gelijke score (zie ook tabel 7).

Hoofdstuk 4: Conclusie en discussie

4.1 Beantwoording van de vraagstellingen

Vraagstelling 1

Is er een verschil in leeftijd waarop blinde kinderen met gemiddelde cognitieve vaardigheden perspectief nemen vergeleken met ziende kinderen?

De verwachting was dat de blinde en de ziende kinderen op dezelfde leeftijd perspectief kunnen nemen. Ook met deze speciale test die meer rekening houdt met de ervaringswereld van het blinde kind, behalen ziende kinderen gemiddeld een significant hogere score op perspectiefnametaken dan blindgeboren kinderen. Ziende kinderen ontwikkelen tussen hun 4 en 5^e jaar het perspectief nemen, in deze leeftijdscategorie beantwoordde meer dan 60% de perspectiefnamevragen correct. Het merendeel van de blindgeboren kinderen kunnen tussen hun 6 en 7^e jaar de perspectiefnamevragen correct beantwoorden. Het verschilt dus ongeveer 2 jaar.

Vraagstelling 2

Is er een verschil in de mate van perspectief kunnen nemen tussen blinde kinderen die een neurologische of een oogheelkundige oorzaak van blindheid hebben?

De verwachting was dat de blinde kinderen waarbij de oorzaak van de blindheid meer neurologisch is, een lagere gemiddelde score behalen dan de blinde kinderen waarbij de oorzaak van de blindheid meer oogheelkundig is. Er wordt geen significant verschil gevonden op de gemiddelde scores tussen de beide groepen. De gemiddelden laten alleen wel een verschil in twee hele punten zien (Oogheelkundig: 7,27; Neurologisch: 5,19). Het probleem is de grote variantie binnen de groepen (neurologische groep: SD 3,74). Als we de ziende groep toevoegen aan de analyse, zien we dat de beide blinde groepen wel van elkaar verschillen. De ziende kinderen verschillen niet met de blinde kinderen met een oogheelkundige oorzaak. De ziende kinderen verschillen wel met de blinde kinderen met een neurologische oorzaak.

4.2 Discussie

Uit dit onderzoek komt naar voren dat blindgeboren kinderen met normale cognitieve vermogens het concept van ToM ongeveer twee jaar later laten zien dan ziende kinderen. Het lijkt alsof het niet binnen krijgen van visuele informatie (het blind zijn) zorgt voor twee jaar achterstand in het perspectief nemen. Het gevonden verschil van twee jaar is een veel kleiner verschil in leeftijd dan in de literatuur gerapporteerd wordt. Bigelow (1991) vond dat de blinde kinderen het significant slechter deden dan de (slecht)ziende kinderen. Ook al waren de blinde kinderen twee jaar ouder, ze maakten meer fouten dan de ziende kinderen. Bigelow concludeerde dan ook dat er een ontwikkelingsachterstand is van meer dan 2 jaar.

Uit dit onderzoek komt naar voren dat ziende kinderen beter perspectief kunnen nemen dan blinde kinderen in hun 4^e en 5^e levensjaar. In het 6^e en 7^e levensjaar verschillen blinde kinderen niet meer van de ziende kinderen. Ook dit kwam niet uit de literatuur naar voren. Farrenkopf en Davidson (1992) vonden dat blinde kinderen een slechtere prestatie op perspectiefnametaken lieten zien in alle leeftijdsgroepen (3-4, 5-6, 7-8 jaar).

Blinde kinderen kunnen dus eerder perspectief nemen dan uit de literatuur tot nu toe naar voren komt. Het enige verschil tussen de bovengenoemde literatuur en het huidige onderzoek is het gebruikte testmateriaal. Hieruit kunnen we dus concluderen dat blinde kinderen, mits via goed aangeboden testmateriaal, tussen 6;0 en 6;11 jaar perspectief kunnen nemen.

De groep blindgeboren kinderen met een neurologische oorzaak van de blindheid behaalden een lagere score op de taken dan de kinderen met een oogheekundige oorzaak van de blindheid. Cass deed in 1996 een gelijknamige ontdekking. Alle kinderen met een afwijking in het neurale gedeelte van het visuele systeem (bv. nervus opticus, retina) lieten een ontwikkelingsachterstand zien, terwijl geen van de kinderen met een afwijking in de ontwikkeling van de oogbol (congenitaal cataract, infantiel glaucoom) dit had. In dit onderzoek werd niet statistisch gecontroleerd voor andere sensorische en cognitieve problemen. In deze masterthese werd hier echter wel voor gecontroleerd, en zelfs dan worden er ook verschillen gevonden tussen de groepen. Dit betekent dat kinderen met een neurologische oorzaak van de blindheid een grotere kans hebben op problemen bij de ontwikkeling van ToM. Ek et al. (1998) deden onderzoek naar de relatie tussen ASS en blindheid veroorzaakt door ROP of een erfelijke retinale stoornis. 15 van de 27 proefpersonen met ROP hadden een autismestoornis. Van de kinderen met een erfelijke retinale stoornis, vielen er maar twee van de 14 binnen de diagnose ASS. Ervan uitgaande dat ASS samengaat met een vertraagde ToM-ontwikkeling, is dit resultaat in ons onderzoek gerepliceerd.

De gebruikte groep respondenten is relatief groot. Door Duitse, Nederlandse en Belgische kinderen te testen zegt het resultaat iets over een grote groep kinderen. Tijdens het onderzoek bevonden de kinderen zich in een vertrouwde omgeving en waren de ouders aanwezig om ze nog extra op hun gemak te stellen. De voorwerpen die de kinderen aangeboden kregen en de handelingen die ze er mee moesten verrichten, waren vertrouwd en bekend voor de blinde kinderen. Dit alles droeg bij aan een omgeving waarin het blinde kind optimaal kon presteren. Kinderen ervoeren het dikwijls als een spel. Het gehele onderzoek werd op camera opgenomen, waardoor er bij twijfel teruggekeken kon worden.

Het is belangrijk te bedenken dat er in dit onderzoek alleen blinde kinderen zijn opgenomen die geen andere sensorische en cognitieve problemen hebben. Dit heeft voordelen en nadelen. Een voordeel is dat het effect dat gevonden wordt niet wordt gemedieerd door andere ontwikkelingsproblemen dan de blindheid zelf. Een nadeel is dat dit resultaat niet te induceren is naar de gehele groep blindgeboren kinderen. De resultaten hebben uitzonderlijk betrekking op blindgeboren kinderen met een relatief normale ontwikkeling. Vaak zullen andere variabelen meespelen waardoor de ontwikkeling van ToM wel of niet normaal ontwikkelt. Juist bijkomende sensorische, cognitieve en neurologische problemen zouden hun invloed kunnen hebben op de ontwikkeling van deze complexe vaardigheid.

Omgevingsvariabelen spelen natuurlijk ook een grote rol bij de ontwikkeling van ToM. Hiervoor is niet gecontroleerd in deze masterthese. Het hebben van een oudere (ziende) broer of zus zou een belangrijke factor kunnen zijn binnen de ontwikkeling van ToM. Daarnaast zou kunnen meespelen hoeveel aandacht er wordt besteed aan sociaal-emotionele thema's in de klas, thuis of tijdens de professionele begeleiding van het kind. Het onderwijs dat het kind volgt zou ook de ontwikkeling kunnen bespoedigen of vertragen (bijvoorbeeld het verschil tussen het speciaal of regulier onderwijs)

In deze masterthese wordt voor de beantwoording van de tweede vraag een splitsing tussen twee groepen gemaakt: kinderen met de oorzaak van de blindheid in het brein of in het oog. De groep die we in dit onderzoek NEURO hebben genoemd is een zeer heterogene groep. Het hebben van een stoornis in het neurologische gedeelte van het visuele systeem is een risico voor ontwikkelingsproblemen van ToM, maar het is geen zuivere één-op-één relatie. Het oog maakt deel uit van het centrale zenuwstelsel. Het oog ontwikkelt zich vanaf 6 weken vanaf de bevruchting. Als er iets mis is in de ontwikkeling van het oog is er dus een grote kans dat ook in de ontwikkeling van de rest van het lichaam (inclusief het brein) sprake is. Een voorbeeld is al eerder gegeven in het onderzoek van Nickel en Hoyt (1982). Zij verklaarden neuropsychiatrische problemen bij Leber's congenitale amaurosis doordat tijdens de actieve differentiatie van de fotoreceptorlaag van de retina ook het vermis (deel van het cerebellum) wordt gevormd. Daarnaast komen pure syndromen of enkelvoudige oorzaken in de praktijk

bijna nooit voor. Er is vaak geen eenduidige oorzaak aan te wijzen voor de blindheid. Soms is het niet eens duidelijk wát de oorzaak van de blindheid is (in ons geval was het onduidelijk voor negen van de 46 kinderen). Juist de bijkomende sensorische en cognitieve problemen zouden grote invloed kunnen hebben op de ontwikkeling van deze complexe vaardigheid.

4.3 Aanbevelingen voor opvoeders en professionals

Belangrijk is te beseffen dat het 'autistiforme gedrag' van blinde kinderen met voorzichtigheid moet worden bekeken. Hierbij moet een scheidslijn worden getrokken tussen het 'normale gedrag' wat voortkomt uit het blind zijn zelf en de mogelijke autistiforme gedragingen of ASS. Zelfs blinde kinderen zonder andere sensorische en cognitieve problemen en een normale ontwikkeling laten een vertraging van ToM zien van twee jaar. Deze twee jaar kan dus gezien worden als de vertraging door de blindheid zelf en is dus een 'normale' vertraging. Met voorzichtigheid moet worden omgegaan met het label ASS bij blinde kinderen. Dit vanwege de overeenkomsten van de gedragingen van blinde kinderen en het gedrag van ziende kinderen met ASS, terwijl het een andere oorzaak heeft. Deze test zou gebruikt kunnen worden binnen het diagnostische proces naar de aanwezigheid van ASS bij blinde kinderen. Dit zou wellicht een deel van de overdiagnosticering kunnen tegengaan.

Deze testbatterij zou ook geschikt zijn voor het volgen en vaststellen van de ontwikkeling van ToM bij blindgeboren kinderen. Door de meer tactiel en auditief georiënteerde opgaven is het geschikter voor blinde kinderen dan de gangbare ASS- en ToM-testen en zou het een goed alternatief zijn binnen het sociaal-emotioneel onderzoek.

Preventief zou er bij blinde kinderen meer aandacht moeten worden besteed aan de ontwikkeling van ToM, omdat ze deze met beperktere informatie moeten verwerven. Dit zou kunnen gebeuren door middel van het aanbieden van ToM-gerelateerde taken die meer auditief en tactiel georiënteerd zijn, zodat het kind bewust gemaakt kan worden van de ander zijn belevingswereld door middel van de meer tactiele en auditieve eigen 'taal'.

4.4 Vervolgonderzoek

Niet alleen in de praktijk zou deze testbatterij gebruikt kunnen worden, maar ook in het wetenschappelijk onderzoek. In het onderzoek naar de ToM-ontwikkeling bij blinde kinderen met ASS zou de test gebruikt kunnen worden als een meer nauwkeurige test voor het meten

van de ontwikkeling van het blinde kind met ASS. Daarnaast zou het gebruikt kunnen worden om de normale ontwikkeling van ToM bij blinde kinderen in kaart te brengen.

In dit onderzoek hebben we een groep blindgeboren kinderen zonder sensorische en cognitieve problemen genomen. Interessant zou het kunnen zijn als deze nieuw ontwikkelde ToM-taken gebruikt zouden worden bij blinde kinderen die deze problemen wel hebben. Zo zou er kunnen worden gekeken of de relatie tussen het blind geboren zijn en de ToM-ontwikkeling wordt gemedieerd door de intellectuele capaciteiten van het kind.

Deze testbatterij zou ook gebruikt kunnen worden om te onderzoeken of het hebben van enige visuele ervaring invloed heeft op de ontwikkeling van ToM. De test zou bij kinderen afgenomen kunnen worden die tijdens hun eerste 7 jaar blind zijn geworden. Hierbij zou de verwachting kunnen zijn dat hoe hoger het aantal jaren dat het kind kan zien, des te beter de ToM-ontwikkeling.

Om de taken van Brambring en Stahn te kunnen vergelijken met de standaard ToM-taken, zou er een intersubject vergelijkend onderzoek moeten worden gedaan bij zowel blinde als ziende kinderen. Dit om aan de ene kant te kijken naar de vergelijkbaarheid bij ziende kinderen en aan de andere kant te kijken of de blinde kinderen daadwerkelijk beter presteren op deze nieuwe taken.

Tijdens de literatuurstudie naar de neuropsychologische modellen van ASS en ToM zijn er nog veel onduidelijkheden gebleken. Ten eerste hebben veel van de (f)MRI-studies naar de neurologische basis van ASS bevindingen opgeleverd die nog niet gerepliceerd zijn (Cody, Pelphrey en Piven, 2002). Ten tweede is ASS een stoornis die meer behelst dan alleen een gestoorde ToM (Frith & Happé, 1994). Dit alles leidt tot onduidelijkheden en (onnodig) overlappende neurologische systemen voor ASS en ToM. Vervolgonderzoek is nodig om deze neurologische systemen te (onder)scheiden.

Als deze neurologische systemen duidelijker zijn, zou gekeken kunnen worden naar mogelijke verschillen in de gebruikte neurologische systemen van een blind en een zierend kind, tijdens het doen van een ToM-taak. Ook is het interessant om dezelfde taak af te nemen bij blinde kinderen met ASS en blinde kinderen zonder ASS en te kijken naar de verschillen in hersensystemen die worden gebruikt tijdens het oplossen van de taak.

Literatuurlijst

- Bachevalier, J. (1994). Medial temporal lobe structures and autism: a review of clinical and experimental findings. *Neuropsychologia*, 32, 627–648.
- Bachevalier, J., Malkova, L. & Mishkin, M. (2001). Effects of selective neonatal temporal lobes on socioemotional behavior in infant rhesus monkeys (*Macaca mulatta*). *Behavioral Neuroscience*, 115, 545–559.
- Baron-Cohen, S., & Ring, H. (1994). A model of the mindreading system: Neuropsychological and neurobiological perspectives. In C. Lewis & P. Mitchell (Eds.), *Children's early understanding of mind: Origins and development* (pp. 183-207). Hove, UK: Erlbaum.
- Baron-Cohen, S., Ring, H., Williams, S., Weelwright, S., Bullmore, E., Brammer, M., and Andrew, C. (1999). Social intelligence in the normal and autistic brain: An fMRI study. *European Journal of Psychiatry*, 11, 1891–1898.
- Baron-Cohen, S., Ring, H. A., Bullmore, E. T., Wheelwright, S., Ashwin, C., Williams, S. C. (2000). The amygdala theory of autism. *Neuroscience Biobehavioral Review*, 24, 355–364.
- Bauman, M. L., & Kemper, T. L. (1994). Neuroanatomic observations of the brain in autism. In M. L. Bauman & T. L. Kemper (Eds.), *The neurobiology of autism* (pp. 119-145). Baltimore: Johns Hopkins University Press.
- Bigelow, A. (1988). Blind children's concepts of how people see. *Journal of Visual Impairment and Blindness*, 82, 65-68.
- Bird, C. M., Castelli, F., Malik, O., Frith, U., Husain, M. (2004). The impact of extensive medial frontal lobe damage on 'Theory of Mind' and cognition. *Brain*, 127 (4), 914-928.
- Blohmé, J., & Tornqvist, K. (1997). Visual impairment in Swedish children. I. Register and prevalence data. *Acta Ophthalmologica Scandinavica*, 75, 194–198.
- Brambring, M. (2004). *Blindheit und Autismus – eine kontroverse Diskussion*. Referate der 19. Fortbildungstagung in Kerkrade, 117-135.
- Brambring, M. & Stahn, D. (in press). False-Belief Tasks and the Blind Child: A Reappraisal.
- Brown, R., Hobson, P., Lee, A. & Stevensen, J. (1997). Are there “autistic-like” features in congenitally-blind children? *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 38(6), 693–703.
- Cass, H. (1996). *Autism and visual impairment – what we know about causation and early identification*. Proceedings of the Autism and Visual Impairment Conference, Sydney.
- Cody, H., Pelphrey, K., Piven, J. (2002). Structural and functional magnetic resonance imaging of autism. *International Journal Developmental Neuroscience*, 20, 421-438.
- Custer, W. L. (1996). A comparison of young children's understanding of contradictory representations in pretense, memory, and belief. *Child Development*, 67, 678–688.
- D'Allura, T. (2002). Enhancing the social interaction skills of preschoolers with visual impairments. *Journal of Visual Impairment and Blindness*, 96(8), 576–84.
- Dandona, L., Dandona, R., Srinivas, M., Giridhar, P., Vilas, K., Prasad, M. N., John, R. K., McCarty, C. A., & Rao, G. N. (2001). Blindness in the Indian state of Andhra Pradesh. *Investigations Ophthalmologica Visual Science*, 42, 908-916.

- De Luise V., Anderson, D. R. (1983). Primary infantile glaucoma (congenital glaucoma). *Surv Ophthalmologist*, 28, 1–19.
- Ek, U., Fernell, E., Jacobson, L., & Gillberg, C. (1998). Relation between blindness due to retinopathy of prematurity and autistic spectrum disorders: a population-based study. *Developmental Medicine and Child Neurology*, 40, 297-301.
- Farrenkopf, C., & Davidson, I. F. (1992). The development of perspective-taking abilities in young blind children. *RE:view*, 24(1), 7-22.
- Flavell, J. H. (1988). Young children's knowledge about visual perception: Further evidence for the level 1 - level 2 distinction. In J. W. Astington, P. L. Harris, & D. R. Olson (Eds.), *Developing theories of mind* (pp. 244-267). Cambridge, UK: Cambridge University Press.
- Fletcher, P. C., Happe, F., Frith, U., Baker, S. C., Dolan, R. J., Frackowiak, R. S. J., & Frith, C. D. (1995). Other minds in the brain: a functional imaging study of 'theory of mind' in story comprehension. *Cognition*, 57, 109-128.
- Francois, J. (1972). Congenital glaucoma and its inheritance. *Ophthalmologica*, 181, 61-73.
- Frith, U. (2001). Mind Blindness and the Brain in Autism. *Neuron*, 32 (20), 969-979.
- Frith, U. and Happé, F. (1994). Autism: beyond 'theory of mind', *Cognition*, 50, 115–132.
- Frith, U., Morton, J., & Leslie, A. M. (1991). The cognitive basis of a biological disorder: autism. *Trends in Neurosciences*, 14, 433-438.
- Gazzaniga, M. S., Ivry, R.B., & Mangun, G. R. (2002). *Cognitive Neuroscience: The biology of the mind*. New York USA: W.W. Norton & Company.
- Gense, M. H., & Gense, D. J. (2005). *Autism Spectrum Disorder and Visual Impairment*. Washington: Heldref Publications.
- Gilbert, C., & Awan H. (2003) Blindness in children. *BMJ*, 327, 760–761.
- Goel, V., Grafman, J., Sadato, N., & Hallett, M. (1995). Modeling other minds. *Neuroreport*, 6, 1741-1746.
- Goodman, R., & Minne, C. (1995). Questionnaire screening for comorbid pervasive developmental disorders in congenitally blind children: A pilot study. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 25, 195-203.
- Green, S., Pring, L., & Swettenham, J. (2004). An investigation of first-order false belief understanding of children with congenital profound visual impairment. *British Journal of Developmental Psychology*, 22, 1-17.
- Grimm, H., & Schöler, H. (1991). *Heidelberger Sprachentwicklungstest* (HSET). Göttingen, Germany: Hogrefe.
- Grimm, H. (2001). *Sprachentwicklungstest für drei- bis fünfjährige Kinder* (SETK 3-5). Göttingen, Germany: Hogrefe.
- Happé, F. (1995). The role of age and verbal ability in the theory of mind task performance of autistic subjects. *Child Development*, 66, 843-855.
- Happé, F., Ehlers, S., Fletcher, P., Frith, U., Johansson, M., Gillberg, C., Dolan, R., Frackowiak, R., & Frith, C. D. (1996). Theory of Mind in the brain: Evidence from a PET scan study of Asperger syndrome. *NeuroReport*, 8, 197–201.

- Hardan, A., Minshew, N., Keshavan, M., (2000). Corpus callosum size in autism. *Neurology*, 55, 1033–1036.
- Hobson, R. P. (1993). *Autism and the development of mind*. Hove, UK: Erlbaum.
- Hobson, R. P., Lee, A., & Brown, R. (1999). Autism and congenital blindness. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 29 (1), 45-56.
- Hungerford, J., Stewart, A., & Hope, P. (1986). Ocular sequelae of preterm birth and their relation to ultrasound evidence of cerebral damage. *British Journal of Ophthalmology*, 70, 463–468.
- Kalat, J. W. (2001). *Biological psychology*. Belmont USA: Wadsworth/ Thomson Learning.
- Källén, B., Robert, E., Harris, J. (1996). The descriptive epidemiology of anophthalmia and microphthalmia. *International Journal of Epidemiology*, 25, 1009–1016.
- Kaufman, A. S., & Kaufman, N. L. (2001). *Kaufman Assessment Battery for Children (K-ABC), Deutsche Version* (P. Melchers & U. Preuss, Trans.). Frankfurt am Main, Germany: Swets Test.
- Landau, B., & Gleitman, L. R. (1985). *Language and experience: Evidence from the blind child*. Harvard University Press.
- Lewis, S., & Iselin, S. A. (2002). A comparison of the independent living skills of primary students with visual impairments and their sighted peers: A pilot study. *Journal of Visual Impairment & Blindness*, 96(5), 335-344.
- London, E. A. (2000). The environment as an etiologic factor in autism: a new direction for research. *Environmental Health Perspectives*, 108(3), 401–404.
- Loveland, K., Tunali-Kotoski, B., Chen, Y., Ortegon, J., Pearson, D., Brelsford, K., & Gibbs, M. (1997). Emotion recognition in autism: verbal and nonverbal information. *Development and Psychopathology*, 9, 579–593.
- Maestrini, E., Paul, A., Monaco, A. P., & Bailey, A. (2000). Identifying autism susceptibility genes. *Neuron*, 28, 19–24.
- McAlpine, L. M., & Moore, C. L. (1995). The development of social understanding in children with visual impairments. *Journal of Visual Impairment & Blindness*, 89(4), 349-358.
- McHugh, E. & Lieberman, L. (2003). The impact of developmental factors on stereotypic rocking of children with visual impairments. *Journal of Visual Impairment and Blindness*, 97(8), 453–75.
- McHugh, E., & Pyfer, J. (1999). The development of rocking among children who are blind. *Journal of Visual Impairment and Blindness*, 93(2), 82–96.
- Minter, M. E., Hobson, R. P., & Bishop, M. (1998). Congenital visual impairment and "theory of mind". *British Journal of Developmental Psychology*, 16(2), 183-196.
- Moro, A., Tettamanti, M., Perani, D., Donati, C., Cappa, S.F., Fazio, F. (2001). Syntax and the brain: disentangling grammar by selective anomalies. *Neuroimage*, 13, 110– 18.
- Nickel, B., & Hoyt, C. S. (1982). Leber's congenital amaurosis. Is mental retardation a frequent associated defect? *Archives of Ophthalmology*, 100, 1089-1092.
- Palmer, J. D. (2003). The symbiotic birth and spread of plastids: how many times and whodunit? *Journal of Phycology*, 39, 1-9.
- Parkes, J.D. (1999). Genetic factors in human sleep disorders with special reference to Norrie disease, Prader-Willi syndrome and Moebius syndrome. *Journal of Sleep*, 8(1), 14–22.

- Perrault, I., Rozet, J. M., Calvas, P., Gerber, S., Camuzat, A., Dollfus, H., Châtelin, S., Souied, E., Ghazi, I., Leowski, C., Bonnemaïson, M., Le Paslier, D., Frézal, J., Dufier, J.L., Pittler, S., Munnich, A., & Kaplan, J. (1996). Retinal-specific guanylate cyclase gene mutations in Leber's congenital amaurosis. *Nature Genetics*, *14*, 461-464.
- Peterson, C. C., Peterson, J. L., & Webb, J. (2000). Factors influencing the development of a theory of mind in blind children. *British Journal of Developmental Psychology*, *18*, 431-447.
- Premack, D., & Woodruff, G. (1978). Does the chimpanzee have a theory of mind? *Behavioral Brain Science*, *4*, 515-526.
- Recchia, S. L. (1997). Establishing intersubjective experience: Developmental challenges for young children with congenital blindness and autism and their caregivers. In V. Lewis & G. M. Collis (Eds.), *Blindness and psychological development in young children* (pp. 117-129). Leicester, UK: BPS Books.
- Ruby, P., & Decety, J. (2001). Effect of subjective perspective taking during simulation of action: a PET investigation of agency. *Nature Neuroscience*, *4*, 546-550.
- Sabbagh, M. A., & Taylor, M. (2000). Neural correlates of theory of mind reasoning in adults: An event-related potential study. *Psychological Science*, *11*, 46-50.
- Schappert-Kimmijser, J., Henkes, H. E., Van den Bosch, J. (1959). Amaurosis congenita (Leber). *Archives of Ophthalmology*, *61*, 211-218.
- Schmahmann, J.D. (2000). The role of the cerebellum in affect and psychosis. *Journal of Neurolinguistics*, *13*, 189-214.
- Siegal, M., & Varley, R. (2002). Neural systems involved in theory of mind. *Nature Reviews Neuroscience*, *3*, 462-471.
- Stilma, J. S. V. B. (2001). *Praktische Oogheekunde*. Tweede druk. Houten: Bohn Stafleu van Loghum
- Stock, C., Marx, P., & Schneider, W. (2003). *BAKO 1-4. Basiskompetenzen für Leserechtschreibleistungen*. Göttingen, Germany: Deutsche Schultests Beltz.
- Surian, L., & Siegal, M. (2001). Sources of performance on theory of mind tasks in right hemisphere damaged patients. *Brain Language*, *78*, 224-232.
- Tager-Flusberg, H. (1996). Current theory and research on language and communication in autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, *26*, 169-172.
- Tirosh, E., Shnitzer, M. R., Davidovitch, M., & Cohen, A. (1998). Behavioural problems among visually impaired between 6 months and 5 years. *International Journal of Rehabilitation Research*, *21*, 63-70.
- Tomasello, M., 1995. Joint attention as social cognition. In: Moore, C., Dunham, P.J. (Eds.), *Joint Attention: Its Origins and Role in Development*. Erlbaum, Hillsdale, NJ, pp. 103-130.
- Tornqvist, K., Ericsson, A., & Källén, B. (2002). Optic nerve hypoplasia: risk factors and epidemiology. *Acta Ophthalmologica Scandinavica*, *80*, 300-304.
- Van Bon, W. H. J. (1982). Taaltests voor Kinderen. Handleiding: Lisse: Swets & Zeitlinger.
- Varley, R., Siegal, M., & Want, S. C. (2001). Severe grammatical impairment does not preclude 'theory of mind'. *Neurocase*, *7*, 489-493.

- Warburg, M. (1966). Norrie's disease. A congenital progressive oculo-acoustico-cerebral degeneration. *Acta Ophthalmologica*, 89(1), 141-147.
- Wellman, H. M., Cross, D., & Watson, J. (2001). Meta-analysis of theory of mind development: the truth about false-belief. *Child Development*, 72, 655-84.
- Wellman, H. M., Liu, D. (2004). Scaling of theory-of-mind tasks. *Child Development*, 75 (2), 523-542.
- Winner, E., Brownell, H., Happe, F., Blum, A., & Pincus, D. (1998). Distinguishing lies from jokes: theory of mind deficits and discourse interpretation in right hemisphere brain-damaged patients. *Brain Language*, 62, 89-106.
- Wolters, E. C., & Groenewegen, H. J. (2004). *Neurologie: Structuur, functie en dysfunctie van het zenuwstelsel*. Houten Nederland: Bohn Stafleu Van Loghum.
- Woolfe, T., Want, S. C. & Siegal, M. (2002). Signposts to development: theory of mind in deaf children. *Child Development*, 73, 768-778.
- World Health Organization. (2004). *The International Classification of Impairments, Disabilities and Handicaps: Blindness*. Opgehaald 12/05/2007 van <http://www.who.int/topics/blindness/en/>
- Yeargin-Allsopp, M., Rice, C., Karapurkar, T., Doernberg, N., Boyle, C., & Murphy, C. (2003). Prevalence of Autism in a US Metropolitan Area. *JAMA*, 289 (1), 49-55.

Bijlage 1

Instructie: Nu ga ik je een verhaaltje voorlezen. Luister goed, want na het verhaaltje moet je een vraag beantwoorden.

Martin en Lisa spelen in de poppenhoek. Martin moet naar de wc en gaat de klas uit. Lisa heeft geen zin meer om in de poppenhoek op Martin te wachten en gaat naar de keuken om een glas sinaasappelsap te halen. Als Martin van de wc komt wil hij met Lisa verder gaan spelen. Waar gaat hij naar toe: naar de poppenhoek of naar de keuken?