

Floor Moerman - Samenvatting PhD

Inleiding

Kinderen spelen regelmatig en nemen dagelijks deel aan diverse spelactiviteiten. Tijdens de eerste twee levensjaren is er een grote evolutie in de spelvaardigheden van kinderen. Deze worden steeds geavanceerder en evolueren van niet-symbolisch spel (d.w.z. exploratiespel en combinatiespel) naar complexer (pre-)symbolisch spel (Fein, 1981; Fenson et al., 1976; Lifter et al., 1993). Sommige kinderen, waaronder kinderen met autisme, ondervinden moeilijkheden bij het ontwikkelen van deze vaardigheden (González-Sala et al., 2021). Zo ondervinden ze soms moeilijkheden om te doen alsof tijdens spel met anderen (symbolisch spel), en/of gebruiken ze speelgoed op ongebruikelijke manieren, zoals het tolleren van speelgoed (APA, 2022). Hoewel de term 'autisme' veel betekenissen heeft (Hens, 2019), wordt deze frequent beschreven als een neurobiologische ontwikkelingsstoornis, genaamd autismespectrumstoornis (ASS), volgens de criteria van de herziene vijfde editie van de *Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders* (DSM-5-TR; American Psychiatric Association, 2022). Autisme wordt gedefinieerd door enerzijds (1) uitdagingen in sociale communicatie en interactie, en anderzijds (2) de aanwezigheid van beperkte, zich herhalende patronen van gedrag, interesses of activiteiten. Ouders van kinderen bij wie later de diagnose autisme wordt gesteld, utoen aanzienlijk meer zorgen over de spelactiviteiten van hun kind vóór de eerste verjaardag van het kind, dan ouders van kinderen zonder autisme (Sacrey et al., 2015). Hoewel vroeg spelgedrag in verband wordt gebracht met cognitieve, motorische, taal- en sociaal-emotionele vaardigheden (bv. Contaldo et al., 2013; Muentener et al., 2018; Orr, 2021; Yogman et al., 2018), is ons huidige inzicht over de aard van spelvaardigheden bij jonge kinderen met autisme eerder beperkt. Het eerste overkoepelende doel van dit proefschrift was

daarom het onderzoeken van de rol van spel bij autisme tijdens de eerste twee levensjaren (Hoofdstukken 2, 3 en 5). We onderzochten binnen een groep kinderen met een verhoogde kans (VK) op autisme of het spelgedrag op 10, 14 (Hoofdstuk 2) en 24 maanden (Hoofdstuk 3) verschilde tussen kinderen met en zonder een latere onderzoeksdiagnose van autisme. Dit werd in kaart gebracht door spelgedrag gedetailleerd te coderen in directe observaties. We keken bijvoorbeeld naar ruime spelcategorieën (Hoofdstukken 2 en 3), meer specifieke spelhandelingen (Hoofdstuk 2) en zowel spontaan als uitgelokt spel (Hoofdstuk 3). We onderzochten ook longitudinale verbanden tussen vroeg spelgedrag en autismerkennmerken op 24 (Hoofdstuk 5) en 36 maanden (Hoofdstuk 3).

Sommige kinderen met autisme hebben bovengemiddelde taalvaardigheden, anderen ondervinden echter taalmoeilijkheden (Boucher, 2012; Kjelgaard & Tager-Flusberg, 2001). De eerste zorgen die ouders van kinderen bij wie later de diagnose van autisme werd gesteld naar voren brengen, hebben vaak betrekking op de taalontwikkeling van hun kind (Zablotsky et al., 2017). Bovendien gebruikt ongeveer 30% van de kinderen met autisme slechts minder dan twintig woord(benaderingen) op 36 maanden (Bacon et al., 2019). Aangezien taal een belangrijke voorspeller is van langetermijnresultaten in verschillende levensdomeinen bij mensen met autisme, waaronder adaptief gedrag, sociale vaardigheden en kwaliteit van leven (bv. Magiati et al., 2014), is het van cruciaal belang om een beter begrip te krijgen van deze vroege variatie in taalontwikkeling. Onderzoek toont aan dat taalvaardigheden, in het bijzonder op 24 maanden, van belang kunnen zijn voor de latere taal- en cognitieve vaardigheden van schoolgaande kinderen (Gilkerson et al., 2018). Het tweede doel van dit doctoraatsproject was dus om het verband tussen vroeg spelgedrag en taal op 24 maanden te onderzoeken (Hoofdstukken 4 en 5), in combinatie met andere

vaardigheden zoals sensorische prikkelverwerking (Hoofdstuk 5) en gedeelde aandacht (Hoofdstuk 4).

Eerder retrospectief onderzoek naar vroege sociaalcommunicatieve vaardigheden bij jonge kinderen met een latere diagnose van autisme wordt gekenmerkt door beperkingen, zoals bijvoorbeeld een selectiebias. Prospectieve studies van VK-kinderen kunnen inzicht bieden in deze vaardigheden gedurende de eerste twee levensjaren en maken het mogelijk om associaties over de tijd heen te onderzoeken. Onderzoekers richten zich hiervoor vooral op jongere broers en zussen van kinderen met autisme (siblings) (Jones et al., 2014; Szatmari et al., 2016). De herhalingskans van autisme varieert tussen 7% en 19.5% bij siblings (Messinger et al., 2015; Szatmari et al., 2016). Siblings bevinden zich echter in een specifieke context. Ze leven bijvoorbeeld in een gezin met een kind met autisme. Ouders die al een ouder kind met autisme hebben, zijn eventueel meer aandachtig voor vroege autismerkennmerken en gerelateerde moeilijkheden (Zwaigenbaum et al., 2007). Het is niet duidelijk of de resultaten van eerder onderzoek met siblings kunnen worden gegeneraliseerd naar andere VK-groepen. Prematuur geboren kinderen (prematuren; kinderen geboren vóór het voltooien van de zwangerschapsduur van 37 weken; World Health Organisation, 2023) hebben ook een verhoogde kans op verschillende ontwikkelingsmoeilijkheden die gedurende hun hele leven kunnen aanhouden, waaronder autisme (Christians et al., 2023; Hochstedler et al., 2021; Johnson et al., 2015; Johnson & Marlow, 2014; Månsson & Stjernqvist, 2014; Pierrat et al., 2017; Sansavini et al., 2014). De prevalentie van autisme wordt geschat op ongeveer 6-7% bij prematuren (Agrawal et al., 2018; Laverty et al., 2021). De kans neemt toe naarmate dat de zwangerschapsduur afneemt (Kuzniewicz et al., 2014). Door de inclusie van prematuren en siblings, konden we onderzoeken of ontwikkelingsverbanden vergelijkbaar waren tussen verschillende VK-

groepen (Hoofdstukken 3, 4 en 5). Dit zorgde ervoor dat de onderzoekspopulatie werd verrijkt, waardoor de diversiteit en representativiteit ervan toenam. Het longitudinale onderzoeksdesign kwam tegemoet aan veel van de methodologische beperkingen van eerdere onderzoeken. Het stelde ons in staat om het vroege spelgedrag van jonge kinderen direct in kaart te brengen, in tegenstelling tot eerdere retrospectieve onderzoeken met homevideo's, waarbij ouders selectief momenten konden filmen die zij belangrijk achtten. Ook konden we in de vroege ontwikkelingsperiode verbanden meten over de tijd heen, in tegenstelling tot eerdere cross-sectionele onderzoeken.

Spel en Autisme

Op de leeftijd van 10 maanden werden alle niet-symbolische spelcategorieën geobserveerd bij VK-kinderen met en zonder een latere onderzoeksdiagnose van autisme. Bovendien ontstond (pre-)symbolisch spel bij deze kinderen tussen 10 en 14 maanden (Hoofdstuk 2). Deze ontwikkelingsvolgorde is dezelfde als de volgorde gevonden bij typisch ontwikkelende kinderen (bv. Baranek et al., 2005; Fein, 1981; Fenson et al., 1976; Ruff et al., 1984). Deze resultaten bevestigen dat we ons kunnen baseren op deze ontwikkelingsvolgorde om doelen te stellen in vroege interventieprogramma's die zich focussen op het bevorderen van spelgedrag.

Er waren meer overeenkomsten dan verschillen in het spelgedrag op 10 en 14 maanden tussen VK-kinderen met en zonder een latere onderzoeksdiagnose van autisme, hoewel we wel enkele (subtiele) verschillen vonden (Hoofdstuk 2). VK-kinderen zonder autisme vertoonden een hogere frequentie van algemeen combinatiespel in vergelijking met kinderen met autisme op 10 maanden. Op 14 maanden vonden we dit verschil niet terug. Deze resultaten geven aan dat de aanwezigheid van algemeen combinatiespel op 10 maanden contra-indicatief kan zijn voor autisme. In overeenstemming met beperkt eerder onderzoek bij siblings (bv.

Campbell et al., 2018) (bijv. Campbell et al., 2018) en oudere kinderen met autisme (bv. González-Sala et al., 2021), speelden VK-kinderen met autisme minder lang (pre-)symbolisch spel op 14 en 24 maanden dan VK-kinderen zonder autisme (Hoofdstukken 2 en 3). Op 14 maanden was dit verschil echter heel subtiel. In beide groepen was de proportie van kinderen die (geen) (pre-)symbolische spelhandelingen vertoonde gelijk. Verder toonden kinderen op 14 maanden over het algemeen slechts heel korte (pre-)symbolische spelacties (Hoofdstuk 2). Op 24 maanden waren de verschillen in (pre-)symbolisch spel meer uitgesproken (Hoofdstuk 3). Op deze leeftijd kunnen hulpverleners alert zijn voor moeilijkheden in spontane (pre-)symbolische spelvaardigheden, aangezien dit eventueel kan wijzen op een atypische ontwikkeling bij VK-kinderen. In Hoofdstukken 3 en 5 vonden we ook dat meer geavanceerd spelgedrag op 14 en 24 maanden verband hield met minder autisme kenmerken op 24 en 36 maanden. De verklaarde variantie in autisme kenmerken was echter eerder beperkt (14.2-22.3%), wat bevestigt dat andere factoren ook bijdragen aan de variabiliteit in autisme kenmerken.

Voorspellers van Taal

We vonden een significant verband tussen spelgedrag op 10 (Hoofdstuk 4) en 14 maanden (Hoofdstuk 5) en taalvaardigheden op 24 maanden. Onze resultaten geven aan dat spel en taal met elkaar verbonden zijn, en dat vroeg spelgedrag een impact zou kunnen hebben op latere taal. Onze resultaten komen overeen met onderzoek bij oudere kinderen met autisme (Kasari et al., 2012; Wetherby et al., 2007; Yoder et al., 2015) en onderzoek dat vooral spel en taal op hetzelfde moment meet bij VK-kinderen (Campbell et al., 2018; Christensen et al., 2010; Erickson et al., 2018; Hebert et al., 2004; Sparaci et al., 2018). Bovendien tonen resultaten van Hoofdstuk 4 aan dat spel vooral gerelateerd is aan expressieve taal en minder aan receptieve taal.

Onze bevindingen tonen ook aan dat spel een belangrijke factor kan zijn in de associatie tussen het opzoeken van sensorische prikkels op jonge leeftijd en latere taal van VK-kinderen (Hoofdstuk 5). Meer specifiek vonden we dat het meer op zoek gaan naar zintuiglijke prikkels op 10 maanden geassocieerd was met hogere spelscores op 14 maanden. Dit ging op zijn beurt gepaard met hogere taalscores op 24 maanden. Dit bevestigt dat het vaak op zoek gaan naar zintuiglijke prikkels niet altijd negatief geassocieerd is met latere ontwikkelingsmogelijkheden, zoals soms algemeen wordt aangenomen. De associatie tussen het op zoek gaan naar zintuiglijke prikkels en taal werd volledig gemedieerd door spel, aangezien er geen direct effect gevonden werd. De afwezigheid van een direct effect werd ook gevonden in enkele eerdere onderzoeken bij VK-kinderen, wanneer het op zoek gaan naar zintuiglijke prikkels werd gemeten voor 15 maanden (Feldman et al., 2021; Nowell et al., 2020). We vonden ook dat hypo- en hyperreactiviteit op zintuiglijke prikkels op 10 maanden niet geassocieerd was met latere taalvaardigheden, maar wel met latere sociaalcommunicatieve moeilijkheden.

In Hoofdstuk 4 onderzochten we de associatie tussen gedeelde aandacht en taal door middel van een robuuste analytische benadering. In tegenstelling tot onze verwachtingen vonden we bij VK-kinderen geen significant verband tussen gedeelde aandacht op 10 maanden en taal op 24 maanden. Verder onderzoek is nodig om het gebrek aan voorspellende associaties voor gedeelde aandacht in onze studie te begrijpen, in tegenstelling tot eerder onderzoek bij oudere kinderen met autisme (Bottema-Beutel, 2016; Gulsrud et al., 2014; Kasari et al., 2012; Yoder et al., 2015) en VK-kinderen (De Schuymer et al., 2011a; Malesa et al., 2013). Het is bijvoorbeeld mogelijk dat verbanden tussen preverbale en verbale vaardigheden later ontstaan of dat kwalitatieve veranderingen in gedeelde aandacht relevanter zijn voor taalverwerving.

Het verband tussen spel en autisme kenmerken/taal, samen met de significante verschillen in spontaan (pre-)symbolisch spel bij kinderen met autisme in vergelijking met andere groepen, bevestigt dat het voor sommige VK-kinderen met autisme nuttig zou kunnen zijn om deel te nemen aan vroegtijdige interventieprogramma's die zich focussen op een combinatie van verschillende vaardigheden, waaronder spelgedrag. Een voorbeeld van een dergelijke naturalistische ontwikkelingsgerichte gedragsinterventie is de JASPER-interventie (Joint Attention, Symbolic Play, Engagement, and Regulation; Kasari et al., 2006). Deze interventie kan gunstig zijn voor kinderen wanneer zij hulp nodig hebben om de communicatie over hun behoeften te bevorderen. Deze interventies zouden meer geschikt kunnen zijn voor kinderen met betere spelvaardigheden (Panganiban & Kasari, 2022). Voor kinderen die niet zo graag spelen als we normaal gesproken zouden verwachten, of kinderen die weinig interesse tonen in deze vormen van spel, kan het essentieel zijn om andere vroegtijdige interventieprogramma's te overwegen die beter aansluiten bij de behoeften en voorkeuren van het kind.

Het is niet raadzaam om zich bij vroege interventies enkel en alleen op spelgedrag te focussen, omdat spelgedrag slechts een bescheiden bijdrage levert aan de latere ontwikkeling (14.2-26%). Deze resultaten benadrukken het belang van het onderzoeken van alternatieve aspecten van de vroege ontwikkeling. Sommige onderzoekers gaven reeds aan dat spelen één van de vele routes is naar gunstige ontwikkelingsresultaten (bv. Lillard et al., 2013). Toekomstig onderzoek zou zich niet alleen moeten richten op een meer uitgebreid begrip van de 'speelroute', maar zou ook andere routes moeten onderzoeken die leiden tot de heterogeniteit bij VK-kinderen. Kissine et al. (2023) bespraken bijvoorbeeld dat taalverwerving inherent atypisch kan zijn bij kinderen met autisme, waarbij niet-sociale factoren potentieel van belang

kunnen zijn binnen alternatieve routes voor taalverwerving. Kennis over alternatieve routes zou de basis kunnen vormen voor vroege interventieprogramma's die misschien beter aansluiten bij de behoeften en voorkeuren van het kind.

Siblings Versus Prematuren

Sommige associaties kwamen voor bij zowel siblings als prematuren, andere niet. De associatie tussen spel en latere sociaalcommunicatieve moeilijkheden, en tussen sensorische prikkelverwerking en latere communicatie was gelijkaardig in beide groepen (Hoofdstukken 3 en 5). Desalniettemin geven de bevindingen uit Hoofdstuk 3 aan dat siblings op 36 maanden minder beperkte, zich herhalende patronen van gedrag, interesses of activiteiten vertoonden, naarmate ze op 24 maanden meer (pre-)symbolisch spel vertoonden. Daarentegen werd er bij prematuren geen verband gevonden tussen (pre-)symbolisch spel en latere beperkte, zich herhalende patronen van gedrag, interesses of activiteiten. We hadden een vergelijkbare bevinding in Hoofdstuk 4, omdat de associatie tussen spel en expressieve taal afwezig was bij prematuren, in tegenstelling tot de significante positieve associatie bij siblings. Deze bevindingen tonen aan dat conclusies uit onderzoek bij siblings niet altijd toepasbaar zijn op andere VK-groepen, zoals prematuren. Bij prematuren kan de afwezigheid van bepaalde ontwikkelingsassociaties die voorkomen in andere groepen (algemene populatie, siblings en kinderen met autisme) erop wijzen dat prematuren kwalitatief verschillende ontwikkelingsprocessen doormaken.

Conceptuele en Methodologische Reflecties Over Spel

Er moet worden opgemerkt dat het conceptuele kader om de vroege spelontwikkeling te beschrijven varieert tussen verschillende onderzoeken, wat de complexiteit van vroeg spelgedrag benadrukt en de vergelijking tussen bevindingen bemoeilijkt. Hulpverleners en onderzoekers moeten zich bewust zijn van de

verschillende conceptuele kaders bij het interpreteren en vergelijken van onderzoeksresultaten. Hoewel spelgedrag complex is, moeten onderzoekers ernaar streven duidelijke definities te geven aan basisconcepten die verband houden met de ontwikkeling van spel om de duidelijkheid en consistentie van onderzoeksresultaten te vergroten. Naast de verschillen in het conceptuele kader is er aanzienlijk veel variatie in de metingen die worden gebruikt om spelvaardigheden in kaart te brengen. Over het algemeen toonden onze resultaten minimale overeenkomsten tussen verschillende spelmetingen, vooral op 10 maanden (Hoofdstuk 6). In lijn met de resultaten van Pierucci et al. (2015) bij oudere kinderen met autisme geven onze bevindingen aan dat verschillende spelmaten waarschijnlijk andere spelaspecten in kaart brengen in een steekproef van jonge VK-kinderen.

Conclusie

Dit doctoraatsproject verschaft informatie over de vroege spelontwikkeling en sociaalcommunicatieve vaardigheden van kinderen met een verhoogde kans op autisme, van wie sommigen op 36 maanden een onderzoeksdiagnose van autisme kregen. Er werden meer overeenkomsten dan verschillen in spelgedrag gevonden tussen VK-kinderen met en zonder autisme op 10 en 14 maanden. Op de leeftijd van 24 maanden werden de verschillen in (pre-)symbolisch spel echter duidelijker. Moeilijkheden met spontane (pre-)symbolische spelvaardigheden op deze leeftijd zouden kunnen wijzen op een atypische ontwikkeling bij VK-kinderen. Bovendien werd meer geavanceerd spel op 14 en 24 maanden geassocieerd met minder autisme kenmerken op 24 en 36 maanden. We vonden ook een positief verband tussen spelgedrag op 10 en 14 maanden en (expressieve) taal op 24 maanden, wat aangeeft dat vroeg spelgedrag kan bijdragen aan de latere taalontwikkeling. Spelgedrag op 14 maanden medieerde ook de positieve relatie tussen het op zoek gaan naar zintuiglijke

prikkels op 10 maanden en communicatie op 24 maanden. Hoewel sommige associaties consistent waren voor siblings en prematuren, verschilden anderen, wat de complexe wisselwerking tussen vroeg spelgedrag, ruimere ontwikkeling en individuele kenmerken benadrukt. Bevindingen uit onderzoek met siblings zijn waarschijnlijk niet altijd van toepassing op andere groepen met een verhoogde kans op autisme, zoals prematuren. Zowel de relatief beperkte hoeveelheid ontwikkelingsvariantie die door spel wordt verklaard, als het gebrek aan associatie tussen gedeelde aandacht, hypo- en hyperreactiviteit op zintuiglijke prikkels op 10 maanden en later taalgebruik, benadrukken het belang van het onderzoeken van alternatieve aspecten van de vroege ontwikkeling. Dit kan ons begrip van de heterogeniteit van autisme verruimen. Onze resultaten geven ook aan dat verschillende spelmetingen verschillende aspecten van spelgedrag in kaart brengen, en benadrukken het belang van het gebruik van meerdere methoden om de complexiteit ervan volledig te begrijpen. Onze resultaten hebben belangrijke implicaties voor vroege diagnostiek en interventieprogramma's voor kinderen met (verhoogde kans op) autisme en kunnen als inspiratie dienen voor toekomstig onderzoek op dit gebied.