

ully, J.L. (2012). The convention on the rights of persons with disabilities and cultural understandings of disability. In J. Anderson and J. Philips (Eds.), *Disability and universal human rights: legal, ethical and conceptual implications of the convention on the rights of persons with disabilities* (pp. 71–83). Utrecht: Netherlands Institute of Human Rights (SIM).

mith, A. (2009). The empathy imbalance hypothesis of autism: a theoretical approach to cognitive and emotional empathy in autistic development. *Psychological Record*, 59, 133–142

nimi, S. (2015). Children's mental health: time to stop using psychiatric diagnosis. *European Journal of Psychotherapy and Counselling*, 17, 342–358. <https://doi.org/10.1080/13642537.2015.1094500>

nimi, S., Gardner, N., & McCabe, B. (2010). *The myth of autism: medicalising men's and boys' social and emotional competence*. Macmillan Education UK.

n de Cruys, S., Evers, K., Van der Hallen, R., Van Eylen, L., Boets, B., de-Wit, L., et al., (2014). Precise minds in uncertain worlds: predictive coding in autism. *Psychological Review*, 121, 649–675. <https://doi.org/10.1037/a0037665>

n Drenth, A. V. (2018). Rethinking the origins of autism: Ida Frye and the unraveling of children's inner world in the Netherlands in the late 1930s. *Journal of the History of the Behavioral Sciences*, 54, 25–42. <https://doi.org/10.1002/jhbs.21884>

rhoeff, B. (2013a). Autism in flux: a history of the concept from Leo Kanner to DSM-5. *History of Psychiatry*, 24, 442–458. <https://doi.org/10.1177/0957154X13500584>

rhoeff, B. (2013b). The autism puzzle: challenging a mechanistic model on conceptual and historical grounds. *Philosophy, Ethics, and Humanities in Medicine*, 8, 17.

rhoeff, B. (2015). Fundamental challenges for autism research: the science-practice gap, demarcating autism and the unsuccessful search for the neurobiological basis of autism. *Medicine, Health Care, and Philosophy*, 18, 443–447.

<https://doi.org/10.1007/s11019-015-9636-7>

orld Health Organization. (1992). *ICD-10 classification of mental and behavioural disorders (the): clinical descriptions and diagnostic guidelines*. World Health Organization.

ageau, M. & Huebner, B. (2017). Minding theory of mind. *Journal of Social Philosophy*, 48, 273–296.

(Advertentie)

**MIDDAGSYMPOSIUM**  
**AUTISME: SLAAP- EN ZINDELIGHEIDPROBLEMEN**  
**WWW.260319.LOGACOM.NL**

EMPIRISCH ONDERZOEK

## Trans-disciplinaire behandeling van incontinentie bij ASS

ANKA K. WAGENAAR, YVONNE GROEN, MICHEL J. VAN VLIET,  
 FRANCIS J. KLOOSTERMAN-EIJGENRAAM, ANNETTE KINGMA,  
 JAN WILLEM VAN CAPELLE, OLIVER TUCHA

### SAMENVATTING

De behandeling van incontinentie bij schoolgaande kinderen met een neurobiologische ontwikkelingsstoornis wordt vaak bemoeilijkt door problemen op het gebied van communicatie en gedrag. In dit onderzoek wordt het effect van trans-disciplinair behandelen beschreven zoals uitgevoerd onder 26 kinderen bij wie de behandeling van incontinentie stagneerde. Alle kinderen hadden problemen op het gebied van gedrag of ontwikkeling en er was sprake van een neurobiologische ontwikkelingsstoornis, waaronder autismespectrumstoornissen (ASS). De behandelgroep werd gekenmerkt door een hoge prevalentie van medische comorbiditeit en problematiek op psychosociaal gebied. Van de 26 kinderen waren 25 reeds elders behandeld vanwege incontinentie, zonder resultaat. Het effect van de huidige behandeling werd gemeten met behulp van de Goal Attainment Scale (GAS). Na 12 maanden van trans-disciplinaire behandeling lieten alle kinderen verbetering zien en bij 13 kinderen was de incontinentie zelfs volledig verholpen. Op basis van dit pilot onderzoek concluderen wij dat zelfs bij kinderen van wie wordt gezegd dat zij onbehandelbaar zijn of ongemotiveerd, behandeling van incontinentie vaak mogelijk is. Om de gestelde doelen te bereiken is het van belang dat de standaard behandelmethodes bij elk kind aangepast worden om tegemoet te komen aan de uitdagingen op het gebied van communicatie, gedrag en medische comorbiditeit.

## SUMMARY

Treatment of incontinence in school-aged children with neurodevelopmental disorder (NDD), including autism spectrum disorder (ASD), is often negatively affected due to communicational and behavioral problems. This pilot study evaluates the effect of transdisciplinary treatment of 26 children with NDD, including ASD. The group was characterized by a high prevalence of comorbid medical and psychosocial stressors and 92% did not benefit from earlier treatment(s). The Goal Attainment Scale was used to evaluate progress. After 12 months of transdisciplinary training all children showed improvement and in half of the cases incontinence was solved. We conclude that even in cases considered to be untreatable, treatment of incontinence is often possible. However, adaptation of standard procedures is necessary in order to deal with the child's communicational, behavioral and other comorbid problems.

Een groot aantal (20-50%) kinderen met urine- of fecale incontinentie heeft een gedragsstoornis, in het bijzonder een neurobiologische ontwikkelingsstoornis (Buie et al., 2010a; Von Gontard, Baeyens, Van Hoecke, Warzak, & Bachmann, 2011), zoals een verstandelijke beperking, communicatie-stoornissen, autismespectrumstoornissen (ASS), attention-deficit hyperactivity/disorder (ADHD), specifieke leerstoornissen en motorische stoornissen (Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders, 4th edition (American Psychiatric Association, 2000)). Met name kinderen met incontinentie en ASS behoeven extra aandacht. Hun neuropsychologische tekortkomingen en communicatieve problemen, kenmerkend voor ASS, maken dat reguliere zorg voor hen vaak ontoereikend is (Buie et al., 2010a).

Veel (57-86%) peuters met ASS (3,5-4 jaar) zijn niet zindelijk (Horvath & Perman, 2002; Tsai, Stewart, & August, 1981). Van de 10-14-jarigen met ASS is nog steeds 7-19% incontinent (Chandler et al., 2013; Simonoff, Pickles, Charman, Chandler, Loucas, & Baird, 2008). Bij kinderen zonder ASS is dit slechts 1-5% (Rajindrajith, Devanarayana, & Benninga, 2013; Swithinbank, Heron, Von Gontard, & Abrams, 2010). Zoals bovengenoemde cijfers aangeven is er een relatie tussen ASS en verschillende vormen van incontinentie en Lower Urinary Tract Symptoms (LUTS: vrij vertaald, symptomen van de lagere urinewegen) zoals herhaalde urineweginfecties, nadruppelen, moeilijk kunnen beginnen met plassen en veelvuldig moeten plassen (Von Gontard, Pirrung, Niemczyk, & Equit, 2015). Desalniettemin is incontinentie geen kenmerk van het spectrum van kenmerken horend bij autisme. Het zou beschouwd kunnen worden als een comorbide stoornis die behandeling behoeft, waarbij gezegd moet worden dat neurobiologische ontwikkelingsstoornissen en psychosociale problematiek een negatieve invloed hebben op het effect van de behandeling van incontinentie (Van Everdingen-Faasen, Gerritsen, Mulder, Fliers, & Groeneweg, 2008). Toch zijn multimodale incontinentiebehandelingen voor kinderen met diverse neurobiologische ontwikkelingsstoornissen of psychosociale problematiek veelbelovend (Kaye & Palmer, 2010; Van Everdingen-Faasen, Gerritsen, Mulder, Fliers, & Groeneweg, 2008). Echter, de effectiviteit van incontinentiebehandeling toegespitst op kinderen met ASS is nauwelijks onderzocht. De

'operante' conditionering en de 'sociaal leren' theorie waarbij het voornamelijk gaat om kleine onderzoeken ( $n \leq 5$ ) (Kroeger & Sorensen-Burnworth, 2009), met uitzondering van twee wat grotere retrospectieve onderzoeken, waarin gekeken is naar behandelresultaat en behandelduur bij kinderen met ASS (Hanney, Jostad, LeBlanc, Carr, & Castile, 2013; Peeters, Noens, Kuppens, & Benninga, 2016).

In dit pilot onderzoek hebben wij gekeken of een intensieve gepersonaliseerde transdisciplinaire behandeling, waarin de standaard medische zorg werd geïntegreerd in een orthopedagogische aanpak, effectief zou kunnen zijn voor kinderen die professionele behandeling nodig hebben voor zowel hun neurobiologische ontwikkelingsstoornis als hun medische problematiek. Klachten waarvoor zij verwezen waren naar de kinderarts of kinderuroloog waren bijvoorbeeld habituele obstipatie, onder- of overactieve blaas, dysfunctional voiding (het niet volledig legen van de blaas), recidiverende urineweginfecties en aangeboren afwijkingen zoals urethra-kleppen en meatusstenose (vernauwing). De behandeling werd geboden ook (of juist) als eerdere behandeling niet effectief was gebleken. De standaard urotherapeutische behandeling en poeprtraining, zoals deze in veel ziekenhuizen wordt geboden, was de basis voor de trans-disciplinaire behandeling. Het behandelplan werd bij ieder kind en gezin echter gepersonaliseerd op basis van informatie verkregen uit gedragsobservaties en de resultaten van neuropsychologisch onderzoek.

## METHODE

Dit retrospectieve pilot onderzoek werd uitgevoerd in het Droogbedcentrum, een tertiair behandelcentrum voor incontinentie in het ziekenhuis in Meppel. De voortgang van de behandeling en de uiteindelijke behandelresultaten werden vastgesteld op basis van dossieronderzoek. Het onderzoek werd goedgekeurd door de ethische commissie van het Noorderboog ziekenhuis te Meppel en de ethische commissie van de Faculteit Psychologie van de Rijksuniversiteit Groningen.

## Deelnemers

De indicatie voor een behandelprogramma op maat werd gesteld door de kinderarts of de kinderuroloog. Kinderen moesten voldoen aan de volgende inclusie criteria: (1) indicatie voor plas- en/of poeprtraining, (2) leeftijd van 4-15 jaar, (3) urine-incontinentie of fecale incontinentie, (4) klinische symptomen van een neurobiologische ontwikkelingsstoornis, (5) ingevulde ASS screeningslijst, de Social Communication Questionnaire (SCQ), en (6) ondertekende geïnformeerde toestemming door ouders (en kinderen als zij  $\geq 12$  jaar zijn). In totaal werden 40 kinderen verwezen, waarvan er 26 werden geïncludeerd. Bij negen verwijzingen werd de SCQ niet ingevuld, bij vijf verwijzingen was er sprake van 'no show'.

In dit onderzoek worden de definities gehanteerd zoals vastgelegd en aanbevolen door de International Children's Continence Society (ICCS) (Austin et al., 2014) met de volgende aanpassingen: *Incontinentie voor urine overdag* wordt gedefinieerd als het onwille-

het urineverlies minimaal eenmaal per maand plaatsvindt en gedurende minimaal 3 maanden. *Fecale incontinentie* wordt gedefinieerd als het hebben van ontlasting op sociaal niet wenselijke momenten/plaatsen bij een kind met een ontwikkelingsleeftijd van minimaal 4 jaar, waarbij de problemen minimaal wekelijks plaatsvinden gedurende minimaal 2 maanden. Deze richtlijnen, die gebaseerd zijn op recente internationale consensus op basis van systematische reviews van de literatuur en/of de mening van deskundigen, zijn ontwikkeld door multidisciplinaire expert-teams in opdracht van de Nederlandse verenigingen voor urologen en kinderartsen. Deze richtlijnen beschrijven de diagnostiek en behandeling van de verschillende vormen van urine-incontinentie en fecale incontinentie, al dan niet gepaard gaande met obstipatie.

Alleen kinderen met zowel een SCQ-score  $\geq 15$  en een klinische ASS classificatie conform de DSM IV-criteria (American Psychiatric Association, 2000) werden geïnccludeerd in de ASS groep ( $n=12$ ). In de controlegroep werden 14 kinderen geïnccludeerd met een SCQ-score  $< 15$ . Ook kinderen met een neurobiologische ontwikkelingsstoornis anders dan ASS werden geïnccludeerd in deze groep (zie tabel 1 Resultaten sectie).

### Geïntegreerde trans-disciplinaire behandeling

Zolang er geen specifieke richtlijnen zijn ontwikkeld voor kinderen met incontinentie in combinatie met ASS of een andere neurobiologische ontwikkelingsstoornis, wordt medische zorg verleend op basis van de geldende richtlijnen voor diagnostiek en behandeling van deze problemen zoals die gelden voor de algemene pediatrische populatie (Buie et al., 2010b). In dit onderzoek bestond de standaardprocedure uit een (hetero)anamnese, lichamelijk onderzoek, uroflowmetrisch onderzoek, echografische residu-bepaling en een klachtendagboek. Wanneer op basis van deze informatie aanvullend medisch ingrijpen nodig was, vond deze behandeling eerst plaats.

De naleving van de behandeling van ouders was niet altijd optimaal en sommige ouders meldden een psychiatrische voorgeschiedenis. Het gebrek aan naleving en daardoor ontbreken van gegevens, bemoeilijkte de diagnostische procedures en soms werden hierdoor lichamelijke problemen/afwijkingen pas later in de behandeling gediagnosticeerd.

Alle kinderen werden tevens geobserveerd door een multidisciplinair behandelteam gedurende een klinische opname van twee dagen. In deze periode werden een ontwikkelingsanamnese en een psychosociale anamnese en, indien nodig, gestandaardiseerde (neuro)psychologische diagnostiek afgenomen. Ook vond er een observatie van het kind plaats in een kindvriendelijke omgeving, waarbij er aandacht was voor communicatie, eten, drinken en toiletgedrag.

De medische en psychologische bevindingen werden geïntegreerd in een trans-disciplinair behandelplan. De plas- en poeptraining bestond uit de standaard-, eerder beschreven, componenten (zie Austin et al., 2014). De orthopedagogische behandeling werd zoveel mogelijk aangepast aan de neuropsychologische problematiek die kenmerkend is voor kinderen met ASS en andere neurobiologische ontwikkelingsstoornissen, zoals problemen op het gebied van communicatie, sensomotorische integratie (Bahrack & Todd, 2012; Mundy, Gwaltney, & Henderson, 2010), richten van

Naast eventuele chirurgische en/of farmacologische interventies bestond de behandeling uit (1) informatie en uitleg over de normale werking van blaas en darmen en problemen die kunnen optreden, het normale verloop van zindelijk worden en voorlichting over adequaat eet-, drink-, plas- en poepgedrag, (2) psycho-educatie: uitleg over normale en afwijkende ontwikkeling bij kinderen met een neurobiologische ontwikkelingsstoornis, (3) psychologische counseling, (4) uitleg en instructies aangepast aan het niveau van de receptieve communicatie van het kind, waarbij gebruikgemaakt werd van visuele ondersteuning door middel van pictogrammen of foto's met als doel het begrip te vergroten, (5) bekkenbodempfysotherapie, waarbij ook gebruikgemaakt werd van echografie om kinderen te helpen hun fysiologische sensaties (volle blaas/darm versus lege blaas/darm) beter te begrijpen en te kunnen verbaliseren, (6) leefstijladviezen, (7) counseling van ouders met als doel hun perceptie van de incontinentie te *reframen* richting een ontwikkelingsprobleem met een multifactoriële pathogenese in plaats van enkel een gedragsprobleem, om sensitief en responsief ouderschap te versterken, mishandeling te stoppen, psychosociale stress te reduceren en hen te leren omgaan met de medische en cognitieve beperkingen van hun kind.

Dit betekent dat in de praktijk vaak herhaling van instructies en uitleg nodig was. Verbale instructies werden ondersteund door expliciet voordoen, het gebruik van *prompts* en het gebruik van ondersteunende beelden, ook bij oudere kinderen. Als intensieve gezintherapie geïndiceerd was, werden kinderen verwezen naar de hiervoor aangewezen zorgverleners. Controles door de kinderarts vonden elke 3-4 maanden plaats en gesprekken met de psycholoog iedere 6-12 weken. De plas/poep-training varieerde afhankelijk van de problematiek en voortgang in frequentie en intensiteit. Patiënten werden iedere 14 dagen besproken in het multidisciplinaire team om de voortgang te evalueren en het behandelplan waar nodig bij te sturen. De behandelduur varieerde, met een minimum van 12 maanden.

### Meetinstrumenten

Door middel van een Goal Attainment Scale (GAS) werden de voortgang en het resultaat van de incontinentiebehandeling retrospectief geëvalueerd. Op basis van door kind en ouders beschreven symptomen en dossieronderzoek werd voortgang omschreven als 'achteruitgang', 'geen verandering', 'voortgang' of 'doel bereikt'. De classificatie 'doel bereikt' werd gegeven als er geen sprake meer was van incontinentie of de klachten zodanig gereduceerd waren dat zij niet meer interfereerden met het dagelijks leven. Evaluatiemomenten vonden plaats op T<sub>0</sub> (na de intake), T<sub>1</sub> (na 3-4 maanden), T<sub>2</sub> (na 7-8 maanden) en T<sub>3</sub> (na 11-12 maanden). De uiteindelijke uitkomst van de behandeling werd 12-13 maanden na de start van de behandeling vastgesteld (T<sub>4</sub>). Deze werd bepaald door de incontinentieklachten op T<sub>4</sub> te vergelijken met de symptomen op T<sub>0</sub>.

Onafhankelijk van elkaar bepaalden twee onderzoekers de GAS-scores, met een Kendall's tau inter-rater reliability van 93.6% (T<sub>1</sub>), 96.4% (T<sub>2</sub>), 93% (T<sub>3</sub>) en 96.3% (T<sub>4</sub>). Wanneer de beoordeling van beide onderzoekers niet overeenkwam, werd door een derde onderzoeker een GAS-score bepaald, hetgeen altijd resulteerde in een consensus score.

SCQ-scores werden gebruikt om patiënten te categoriseren als ASS of niet-ASS. De SCQ is een valide test, onafhankelijk van het IQ van kind en opleidingsniveau van ouders, die ASS en niet-ASS goed van elkaar kan onderscheiden (drempel van 15 bij een maximale score 39) (Berument, Rutter, Lord, Pickles, & Bailey, 1999; Chandler et al., 2007). Zowel de medische anamnese als de ontwikkelingsanamnese bevatte vragen over de sensorische informatieverwerking van het kind (hyper- en hyposensitiviteit) en de vraag of een kind in het verleden continent was geweest (ja/nee). Met behulp van neuropsychologisch onderzoek werden de cognitieve vaardigheden in kaart gebracht, voor zover deze niet al bekend waren. Voor het cognitief functioneren is gebruikgemaakt van de Wechsler Intelligence Scale for Children III - WISC IIINL (Wechsler, 2005). Verscheidene andere testen werden gebruikt om het individuele neuropsychologisch functioneren in kaart te brengen: de Behavior Rating Inventory of Executive Function (BRIEF) (Gioia, Isquith, Guy, & Kenworthy, 2009) en de Behavioral Assessment of the Dysexecutive Syndrome, Children (BADS-C) (Emslie, Wilson, Burden, Nimmo-Smith, & Wilson, 2006). Voor het meten van de aandachtsspanne werd de Bourdon-Vos test gebruikt (Vos, 1989); voor het auditief verbaal leren, de 15 Woorden-test (15 WT) (Kingma & Van den Burg, 2008). Op basis van de klinische presentatie werd bepaald welke testen van toegevoegde waarde waren. Indien er eerdere testresultaten beschikbaar waren (< 2 jaar oud), werden testen niet opnieuw uitgevoerd.

### Statistische analyse

De voortgang en het eindresultaat van de behandeling werden geanalyseerd met behulp van SPSS Statistics versie 20. Categoriele variabelen werden geanalyseerd met behulp van de Chi-kwadraat toets.

### Resultaten

#### Groepskenmerken

In tabel 1 zijn de demografische en klinische kenmerken opgenomen van de geïncludeerde kinderen (N = 26).

Tabel 1. Demografische en klinische kenmerken van de geïncludeerde kinderen

	ASS (n = 12) ratio of M (SD)	niet-ASS (n = 14) ratio of M (SD)	t of X <sup>2</sup>	p
<b>Demografie</b>				
Geslacht (man/vrouw)	7/5	12/2	2.46	.117
Leeftijd (maanden)	101 (30)	101 (6)	0.04	.966
Onderwijs (regulier/ speciaal onderwijs)	8/4	11/3	0.47	.495
Voorgaande behandeling (medisch/psychologisch)	11/6	12/4	3.26	.353
Eerder vastgestelde DSM-IV-TR symptomen	11	9	2.73	.099

	ASS (n = 12) ratio of M (SD)	niet-ASS (n = 14) ratio of M (SD)	t of X <sup>2</sup>	p
<b>Autisme</b>				
SCQ Totaal	19.5 (2.6)	10.1 (4.2)	-6.69	<.001
SCQ Sociaal gedrag	8.6 (2.0)	3.8 (2.0)	-4.92	<.001
SCQ Communicatie	5.9 (2.5)	3.9 (2.0)	-2.34	.028*
SCQ Stereotiep gedrag	3.9 (2.5)	1.9 (1.9)	-2.42	.024*
Prikkelverwerking (atypisch/typisch)	12/0	6/8	9.91	.002**
<b>Incontinentiesymptomen</b>				
Urine-incontinentie overdag	9	11	0.05	.829
Enuresis	7	11	1.24	.265
Fecale incontinentie	8	12	1.32	.250
Obstipatie	9	9	0.35	.555
Langer dan 3 maanden continent geweest (ja/nee)	0	4	4.05	0.044*
<b>DSM classificatie, as 1</b>				
ADHD	5	7	1.81	.671
PDD-NOS	12	2	19.10	<.001
Angststoornis	2	4	0.52	.473
Leerstoornis	2	0	2.53	.112
Gedragsstoornis	2	2	0.03	.867
Overig	1	1	0.01	.91
<b>Psychosociale of omgevings- stressoren (As 4, DSM)</b>				
Ouder-kind relatie	4	6	0.248	.619
Primaire steungroep	6	8	0.13	.716
Sociale omgeving	0	2	1.86	.173
Onderwijsproblemen	6	3	2.33	.172
<b>Kenmerken van de behandeling</b>				
Consult kinderuroloog	6	5	0.54	.462
Ondersteunende communicatie	11	8	3.91	.048*
Urologische medicatie	7	3	3.72*	.054
Laxantia	6	7	0.00	1.00
Corticosteroiden	1	0	1.21	.217
Antibiotica	2	0	2.53	.112
Antipsychotica	1	2	0.22	.636
Psychostimulantia	2	5	1.19	.275
Geen medicatie	0	3	2.91	.088
Klysmas	3	0	3.96	.047*

De meerderheid van de kinderen (92%) was reeds eerder behandeld vanwege incontinentie: 88% was poliklinisch of klinisch behandeld vanuit een ziekenhuis (standaard plas- en poepraining); 77% was bekend bij een psycholoog of psychiater vanwege gedragsproblemen, en de helft van deze kinderen had (cognitieve) gedragstherapie gehad vanwege incontinentieklachten. Alle kinderen met een problematische stoelgang hadden functionele klachten, in 80% van de gevallen had het kind last van fecale incontinentie in combinatie met obstipatie. Bij de kinderen met urine-incontinentie was in 55% van de gevallen sprake van recidiverende urineweginfecties of anatomische afwijkingen die bijdroegen aan de urine-incontinentie.

Bij zowel kinderen met als zonder de diagnose ASS, kwamen vergelijkbare anatomische of fysiologische problemen voor (urethra-kleppen, urethra- of meatusstenose, trabeculatie van de blaas, openstaande blaashals of een klein blaasvolume). De meeste kinderen hadden meerdere diagnoses op het gebied van incontinentie: zo was 69% van de kinderen die overdag incontinent waren voor urine ook 's nachts incontinent voor urine en 54% van de kinderen was incontinent voor zowel urine als feces.

Alle kinderen voldeden aan de criteria voor een tot drie classificaties van psychische stoornissen, waarbij ASS en ADHD de meest voorkomende waren. Opvallend was de hoge prevalentie van psychosociale stressoren (as 4, DSM IV), waaronder problemen in de ouder-kind relatie (37%) en problemen in de primaire steungroep (54%). Los van de kenmerken passend bij ASS, verschilden de ASS-groep en de niet-ASS groep niet significant van elkaar op het gebied van demografische kenmerken, DSM-classificaties of incontinentieklachten (tabel 1). Op basis van de ontwikkelingsanamnese werden wel twee significante verschillen gevonden tussen de ASS-groep en de niet-ASS groep. In de ASS-groep lieten alle kinderen een atypische prikkelverwerking zien, terwijl dit in de niet-ASS groep voor slechts 43% van de kinderen gold. Bovendien waren alle kinderen in de ASS-groep nog nooit continent geweest, terwijl in de niet-ASS groep 29% van de kinderen in het verleden langer dan drie maanden zonder incontinentieklachten was geweest.

Wanneer gekeken werd naar de vorm van de ingezette behandeling, dan bleken er twee significante verschillen te zijn tussen de ASS-groep en de niet-ASS groep. In de eerste plaats bleek dat in de ASS-groep 92% van de kinderen behoefte had aan ondersteunende communicatie, terwijl dit in de niet-ASS groep bij 57% van de kinderen werd ingezet. Behandeling met klysma's vond in de niet-ASS groep niet plaats, in de ASS-groep werden bij 25% van de kinderen wel een of meerdere klysma's toegediend. De kinderen in de ASS-groep en de niet-ASS groep verschilden niet in cognitieve en andere neuropsychologische testcores (zie tabel 2). De IQ scores varieerden van laag tot bovengemiddeld in beide groepen.

Tabel 2. Cognitieve kenmerken van de geïncludeerde kinderen

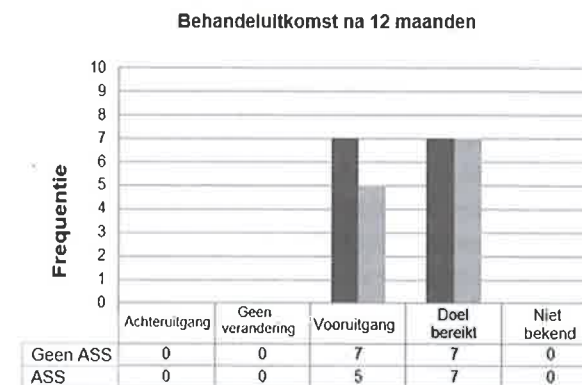
Test (gemiddelde, standard deviatie)	ASS		niet-ASS		t	p
	n	M (SD)	n	M (SD)		
WISC III-NL (M=100, SD=15)						
Totaal IQ	11	96.1 (11.7)	12	95.3 (14)	-0.14	.890
Performaal IQ	12	97.2 (14.8)	10	95.5 (15.1)	-0.26	.797
Verbaal IQ	12	92.5 (13.9)	11	89.6 (14.8)	-0.49	.627
Verwerkingsnelheid	11	83.4 (17.9)	10	98.2 (20.2)	1.42	.171
Perceptueel organiseren	9	101.0 (5.6)	9	94.6 (4.6)	-0.89	.387
Verbaal begrip	9	96.9 (9.1)	9	92.2 (10.3)	-1.02	.324

NB: WISC III-NL = Wechsler Intelligence Scale for Children - III, IQ-scores.

### Behandelresultaten

Twaalf maanden na start van de behandeling (T<sub>4</sub>), hadden 14 kinderen (54%) hun vooraf gestelde doel gehaald: geen incontinentieklachten meer of een reductie van de klachten tot een niveau waarop deze niet meer interfereerden met het dagelijks leven (figuur 1). De overige 12 kinderen (46%) lieten vooruitgang zien en gaven aan subjectief minder klachten te ervaren (afname van het aantal momenten van incontinentie). Van de kinderen die hun doel met betrekking tot de incontinentie overdag bereikt hadden, besloten 6 kinderen (43%) de behandeling voort te zetten om ook 's nachts droog te worden.

Er was geen significant verschil in de GAS-scores op T<sub>4</sub>, wanneer de ASS-groep en de niet-ASS groep met elkaar vergeleken werden ( $X^2(1, n = 26) = .181, p = .67$ ). Ook wanneer gekeken werd naar de progressie in de behandeling op T<sub>1</sub>, T<sub>2</sub> en T<sub>3</sub>, werden geen significante verschillen gevonden tussen de twee groepen ( $p = .487$  resp.  $p = .261$  resp.  $p = .94$  (zie Figuur 1). Er ontbraken waarden op T<sub>2</sub> ( $n=4$ ) en T<sub>3</sub> ( $n=2$ ) vanwege 'no show'.



Figuur 1. Behandeluitkomst na 12 maanden (T<sub>4</sub>) afgezet tegen de start van de behandeling (T<sub>0</sub>)

## DISCUSSIE

In dit retrospectieve pilot onderzoek is gekeken naar de effectiviteit van een geïntegreerd trans-disciplinair medisch/psychologisch behandelprogramma voor kinderen met urine-incontinentie en/of fecale incontinentie in combinatie met een neurobiologische ontwikkelingsstoornis. In totaal werden 26 kinderen geïncludeerd in dit onderzoek. Bijna alle patiënten (92%,  $n=24$ ) waren reeds eerder onder medische of gedragsmatige behandeling geweest vanwege incontinentie. De geïncludeerde patiënten werden beschouwd als complex of zelfs als onbehandelbaar.

De beschreven behandeling voor incontinentie bij kinderen met ASS en andere neurobiologische ontwikkelingsstoornissen is intensief en langer durend, maar de resultaten zijn veelbelovend: bij 54% van de kinderen ( $n=14$ ) waren de incontinentieproblemen na een jaar verdwenen en interfereerden ze niet meer met het dagelijks leven. Bovendien rapporteerden de overige kinderen allemaal vermindering van hun klachten. We hebben hiermee laten zien dat zelfs kinderen met uitgebreide psychosociale comorbiditeit kunnen profiteren van een behandelprogramma gericht op incontinentie, mits het programma aangepast wordt aan de comorbide problemen. Aanpassingen vonden plaats door onder meer de duur van het programma te verlengen, ruimte te bieden aan meer oefening en herhaling en het gebruik van ondersteunende communicatie (bijvoorbeeld pictogrammen), zelfs bij sprekende of oudere kinderen. Ondersteunende communicatie was noodzakelijk bij bijna alle kinderen met ASS (92%,  $n=11$ ) en een groot deel van de kinderen met een andere neurobiologische ontwikkelingsstoornis (57%,  $n=8$ ), zelfs wanneer sprake was van een gemiddeld IQ. Dit maakt dat zowel diagnostiek als behandeling complexer is en meer tijd vraagt.

Verder hebben we gemerkt dat niet het aanleren van adequaat toiletgedrag in een klinische setting het grootste probleem was, maar de generalisatie van het aangeleerde gedrag naar de thuissituatie van het kind. Door middel van ondersteunende communicatie werden kinderen en ouders geholpen de dag te structureren, handelingen te starten en vervolgstappen te zetten en de geleerde vaardigheden te generaliseren naar de thuissituatie. De onderzoekspopulatie werd gekenmerkt door een grote diversiteit aan biomedische, (neuro)psychologische en sociale problematiek. Opvallend was de hoge prevalentie van comorbide problemen in de ouder-kind relatie en comorbide problemen in de primaire steungroep (DSM IV, as 4: psychosociale of omgevingsstressoren: 38-54%,  $n=10-14$ ).

Wij adviseren om ook wanneer een kind gediagnosticeerd is met een neurobiologische ontwikkelingsstoornis en de incontinentie onbehandelbaar lijkt, aandacht te blijven houden voor mogelijke psychiatrische problematiek bij ouders, pedagogische onmacht en kindermishandeling. Een gebrek aan medewerking van de ouders (bijvoorbeeld plas/poep-dagboeken die niet of onvoldoende ingevuld worden), kan ook het gevolg zijn van problemen met het cognitief of executief functioneren van ouders. Ook kan het zijn dat ouders verminderd gemotiveerd zijn en geen vertrouwen in de behandeling hebben. Eerdere negatieve behandelervaringen kunnen hier debet aan zijn.

In zowel de groep kinderen met als die zonder ASS werden medische aandoeningen gediagnosticeerd die verband hielden met incontinentie of deze veroorzaakten. Dit illustreert

dat ook bij patiënten waarbij de problemen op gedrags-, ontwikkelings- of psychosociaal gebied op de voorgrond staan, er aandacht moet zijn voor somatische problemen.

Bij de kinderen met fecale incontinentie werden alleen functionele defecatiestoornissen gevonden: de meerderheid van de kinderen had last van obstipatie (80%,  $n=16$ ). In dit onderzoek was het alleen in de ASS-groep noodzakelijk om klyasma's te geven. We hypothetiseren dat de aanwezige communicatieproblemen en/of atypische sensorische informatieverwerking van deze kinderen bijgedragen kunnen hebben aan een verminderde respons op de standaardinstructies gedurende eerdere behandelingen, hetgeen ertoe zou kunnen leiden dat kinderen met ASS heftiger geobstipeerd raken daar deze behandeling niet het gewenste resultaat heeft. Ook zou het een rol kunnen spelen dat in het algemeen kinderartsen/plas-poepoli's niet de specifieke vaardigheden bezitten die nodig zijn in de communicatie met deze groep kinderen, wat erin zou kunnen resulteren dat minder effect wordt bereikt en de toevlucht gezocht wordt tot meer invasieve behandelmethodes. De aan- of afwezigheid van ASS was niet voorspellend voor de behandeluitkomst. Of de behandeling daadwerkelijk aanslaat wordt waarschijnlijk beïnvloed door factoren op zowel biomedisch, psychologisch als sociaal gebied. De combinatie van deze factoren geeft waarschijnlijk een betere voorspelling dan een enkele neuropsychologische test of psychiatrische classificatie.

**Klinische implicaties**

Dit onderzoek is klinisch van belang omdat het laat zien dat zowel urine-incontinentie als fecale incontinentie bij kinderen met neurobiologische ontwikkelingsstoornissen behandeld kan worden, indien er gebruikgemaakt wordt van een geïntegreerd en trans-disciplinair behandelplan. Onze ervaring laat zien dat een goede behandeluitkomst mogelijk is, zelfs als er sprake is van relevante medische comorbiditeit, beperkte naleving van de behandeling in een eerder traject en oudere leeftijd. Ondanks het feit dat vanuit medisch oogpunt intensieve gedragsmatige behandeling voor kinderen jonger dan 8 jaar vaak uitgesteld kan worden, raden wij aan eerder te interveniëren als opvoedingsonmacht een rol speelt bij de klachten. Opvoedingsonmacht is een belangrijke risicofactor voor problemen in de ouder-kind relatie en kan leiden tot kindermishandeling. Zowel de duur als de intensiteit van de behandeling en de pedagogische en somatische problematiek van de in dit artikel beschreven kinderen en hun gezinnen maken deze zorg duur en specialistisch. Monodisciplinaire behandeling is niet toereikend. Daarom zullen specialisten werkzaam op somatisch gebied en specialisten werkzaam in de jeugdhulpverlening de handen ineen moeten slaan om deze kinderen en hun gezinnen de behandeling te bieden die nodig is.

**Methodologische tekortkomingen en suggesties voor vervolgonderzoek**

Belangrijke beperkingen in dit onderzoek zijn de ongecontroleerde opzet, de kleine behandelgroepen en het ontbreken van standaard plas/poep-dagboeken, zoals geadviseerd door de International Children's Continence Society (ICCS). Incompleet of helemaal niet ingevulde dagboeken maakten het onmogelijk om met objectieve parameters de behandeling te evalueren. Zoals hiervoor beschreven is het helaas zo dat de ouders

aan de verwachtingen van de behandelaren. Verder vond er geen uitgebreid gestandaardiseerd neuropsychologisch onderzoek plaats bij alle patiënten. Om de belasting voor de kinderen zoveel mogelijk te beperken, werden eerdere testresultaten gebruikt als deze beschikbaar waren. Ons doel was de incontinentieklachten te verminderen en de resultaten uit (neuro)psychologisch onderzoek werden alleen gebruikt om de behandeling zoveel mogelijk af te stemmen op de patiënt.

Om te komen tot *evidence-based* interventies, is gerandomiseerd en gecontroleerd onderzoek nodig. Om uitspraken te kunnen doen over de effectiviteit van de behandeling en daarbij onderscheid te kunnen maken tussen verschillende types incontinentie en hun multifactoriële oorzaken, zal dit onderzoek door meerdere centra gelijktijdig uitgevoerd moeten worden.

### Dankbetuigingen

De auteurs danken de kinderen en ouders die participeerden in dit onderzoek. Ook speciale dank voor H.B.P.E. Gernaat, en M. Hekert, die adviseerden over de opzet van het onderzoek en G.A. van der Jagt en S. Kox, die een belangrijke rol speelden bij het verzamelen van de data en de eerste statistische analyses.

### Belangenverstrengeling

De auteurs geven aan dat er geen sprake is van belangenverstrengeling. Het onderzoek en het schrijven van dit artikel werden financieel mede mogelijk gemaakt door het Isala-Diaconessenhuis, Meppel en Yorneo, Papenvoort.

### Auteursgegevens

Anka Wagenaar, MSc, klinisch psycholoog/psychotherapeut, afdeling Medische Psychologie Isala-Diaconessenhuis, Zwolle/Meppel, Yorneo jeugdhulpverlening Drenthe

Yvonne Groen, PhD, universitair hoofddocent, Rijksuniversiteit Groningen, afdeling Klinische en Ontwikkelingsneuropsychologie

Michel van Vliet, PhD, MD, kinderarts-sociale pediatrie, Beatrix kinderziekenhuis Universitair Medisch Centrum Groningen, Yorneo jeugdhulpverlening Drenthe

Francis J. Kloosterman-Eijgenraam, MD, kinderarts, Isala-Diaconessenhuis, Zwolle/Meppel  
Dr Annet Kingma, PhD, klinisch psycholoog, Beatrix kinderziekenhuis Universitair Medisch Centrum Groningen

Jan Willem van Capelle, MD, kinderuroloog, Amsterdam UMC, afdeling Urologie, Streekt ziekenhuis Koningin Beatrix Winterswijk

Prof. Oliver Tucha, Rijksuniversiteit Groningen, afdeling Klinische en Ontwikkelingsneuropsychologie,

Correspondentie: Anka K. Wagenaar, Yorneo jeugdhulpverlening, postbus 114, 9400 AC Assen, Nederland. Telefoonnummer: (+31)592367979. E-mailadres: anka.wagenaar@yorneo.nl.

### Referenties

American Psychiatric Association. (2000). *Diagnostic and statistical manual of mental dis-*

- Austin, P.B., Stuart, B., Wendy, C., Franco, J., Israel, H., Rittig, P., et al. (2014). The standardization of terminology of lower urinary tract function in children and adolescents: update report from the standardization committee of the international children's continence society. *The Journal of Urology*, 191, 1863-1865. doi:10.1016/j.juro.2014.01.110
- Bahrack, L.E. & Todd, J.T. (2012). Multisensory processing in autism spectrum disorders: intersensory processing disturbance as a basis for atypical development. In B.E. Stein (Ed.), *The new handbook of multisensory processing* (1st Ed., pp. 657-674) The MIT PRESS Cambridge, Massachusetts London England.
- Berument, S.K., Rutter, M., Lord, C., Pickles, A., & Bailey, A. (1999). Autism screening questionnaire: diagnostic validity. *The British Journal of Psychiatry: the Journal of Mental Science*, 175, 444-451.
- Buie, T., Campbell, D.B., Fuchs, G.J., Furuta, G.T., Levy, J., Vandewater, J., et al. (2010a). Evaluation, diagnosis, and treatment of gastrointestinal disorders in individuals with ASDs: A consensus report. *Pediatrics*, 125, Suppl 1, S1-S18. doi:10.1542/peds.2009-1878C
- Buie, T., Fuchs, G.J., Furuta, G.T., Kooros, K., Levy, J., Lewis, J.D., et al. (2010b). Recommendations for evaluation and treatment of common gastrointestinal problems in children with ASDs. *Pediatrics*, 125, Suppl 1, S19-S29. doi:10.1542/peds.2009-1878D
- Chandler, S., Carcani-Rathwell, I., Charman, T., Pickles, A., Loucas, T., Meldrum, D., et al. (2013). Parent-reported gastro-intestinal symptoms in children with autism spectrum disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 43, 2737-2747.
- Chandler, S., Charman, T., Baird, G., Simonoff, E., Loucas, T., Meldrum, D., et al. (2007). Validation of the social communication questionnaire in a population cohort of children with autism spectrum disorders. *Journal of the American Academy of Child and Adolescent Psychiatry*, 46, 1324-1332.
- Eigsti, I.M. (2011). Executive functions in ASD. In D.A. Fein (Ed.), *The neuropsychology of autism* (pp. 185-204). New York: Oxford University Press, Inc.
- Emslie, H., Wilson, F.C., Burden, V., Nimmo-Smith, I., & Wilson, B. (2006). *Behavioural assessment of the dysexecutive syndrom for children (BADS-C), dutch version* [Behavioural Assessment of the Dysexecutive Syndrome for children (BADS-C)] (A. Tjeenk-Kalff, L. Krabbendam Trans.). Enschede, Netherlands: Harcourt Assessment.
- Gioia, G.A., Isquith, P.K., Guy, S.C., & Kenworthy, L. (2009). *Handleiding van de BRIEF executieve functies vragenlijst* [Behavior Rating Inventory of Executive Function (BRIEF)] (D. Smidts, M. Huizinga Trans.). Amsterdam: Hogrefe Uitgevers B.V.
- Hanney, N.M., Jostad, C.M., LeBlanc, L.A., Carr, J.E., & Castile, A.J. (2013). Intensive behavioral treatment of urinary incontinence of children with autism spectrum disorders: an archival analysis of procedures and outcomes from an outpatient clinic. *Focus on Autism and Other Developmental Disabilities*, 28, 26-31. doi:10.1177/1088357612457987
- Horvath, K. & Perman, J.A. (2002). Autism and gastrointestinal symptoms. *Current Gastroenterology Reports*, 4, 251-258.
- Kaye, J.D. & Palmer, L.S. (2010). Characterization and management of voiding dysfunction in children with attention deficit hyperactivity disorder. *Urology*, 76, 220-224. doi:10.1016/j.urology.2010.01.026

- Kingma, A. & Van den Burg, W. (2008). *Drie parallelversies van de 15-woordentest voor kinderen, handleiding en normering*. Groningen, the Netherlands: University Medical Centre Groningen.
- Kroeger, K.A. & Sorensen-Burnworth, R. (2009). Toilet training individuals with autism and other developmental disabilities: a critical review. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 3, 607-618. doi:10.1016/j.rasd.2009.01.005
- Mundy, P., Gwaltney, M., & Henderson, H. (2010). Self-referenced processing, neurodevelopment and joint attention in autism. *Autism: The International Journal of Research and Practice*, 14, 408-429.
- Peeters, B., Noens, I., Kuppens, S., & Benninga, M.A. (2016). Toilet training in children with a functional defecation disorder and concomitant symptoms of autism spectrum disorder. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 26, 91-98. doi:10.1016/j.rasd.2016.02.009
- Rajindrajith, S., Devanarayana, N.M., & Benninga, M.A. (2013). Review article: faecal incontinence in children. Epidemiology, pathophysiology, clinical evaluation and management. *Alimentary Pharmacology and Therapeutics*, 37, 37-48. doi:10.1111/apt.12103
- Simonoff, E., Pickles, A., Charman, T., Chandler, S., Loucas, T., & Baird, G. (2008). Psychiatric disorders in children with autism spectrum disorders: prevalence, comorbidity, and associated factors in a population-derived sample. *Journal of the American Academy of Child and Adolescent Psychiatry*, 47, 921-929.
- Swithbank, L.V., Heron, J., von Gontard, A., & Abrams, P. (2010). The natural history of daytime urinary incontinence in children: a large british cohort. *Acta Paediatrica (Oslo, Norway: 1992)*, 99, 1031-1036. doi:10.1111/j.1651-2227.2010.01739.x
- Travers, B.G., Klinger, M.R., & Klinger, L.G. (2011). Attention and working memory in ASD. In D.A. Fein (Ed.), *The neuropsychology of autism* (pp. 161-184). New York: Oxford University Press, Inc.
- Tsai, L., Stewart, M.A., & August, G. (1981). Implication of sex differences in the familial transmission of infantile autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 11, 165-173.
- Van Everdingen-Faasen, E.Q., Gerritsen, B.J., Mulder, P.G.H., Fliers, E.A., & Groeneweg, M. (2008). Psychosocial co-morbidity affects treatment outcome in children with fecal incontinence. *European Journal of Pediatrics*, 167, 985-989.
- Von Gontard, A., Baeyens, D., Van Hoecke, E., Warzak, W.J., & Bachmann, C. (2011). Psychological and psychiatric issues in urinary and fecal incontinence. *The Journal of Urology*, 185, 1432-1436.
- Von Gontard, A., Pirrung, M., Niemczyk, J., & Equit, M. (2015). Incontinence in children with autism spectrum disorder. *Journal of Pediatric Urology*, 11, UNSP 264.e1. doi:10.1016/j.jpuro.2015.04.015
- Vos, P.G. (1989). *Bourdon-Vos test voor kinderen*. Lisse, Belgium: Swets en Zeitlinger.
- Wechsler, D. (2005). *Wechsler Intelligence Scale for Children (derde editie - WISC-III- NL). Handleiding en verantwoording*, (W. Kort, M. Schittekatte, P.H. Dekker, P. Verhaege, E.L. Compaan, M. Bosmans, & G. Vermeir, Translators). London, United Kingdom: Harcourt Assessment.

## Predictoren leeftijd van volwassene in Nederland

BEN POORT

### SAMENVATTING

Een vroege diagnose van autisme en de juiste zorg te kunnen bieden. Bij ASS voorspeld kan worden hoe vroeg de diagnose komt, ernst van de ASS, huidige leeftijd van ouders, mate van verstedelijking, huidige leeftijd en de leeftijd van een kind met lagere intelligentie en een lagere huidige leeftijd. De tijd tot diagnose bleek korter te zijn bij mildere symptomen van ASS bij de moeder. De leeftijd van een kind met lagere huidige leeftijd. De tijd tot diagnose door de persoons- of omgeving is langer bij hoger intelligentieniveau lijkt te worden, waardoor het diagnose noodzakelijk. Daarnaast is het in Nederland de toegankelijkheid van de bevindingen uit deze studie