



In hoeverre dragen de alarmsignalen uit de Jeugdgezondheidszorg-richtlijn Autismespectrumstoornissen bij aan de vroegsignalering van deze kinderen?

D. J. A. Bonnemaier-Kerckhoffs · S. I. Wins · P. van Dommelen · P. H. Verkerk

Published online: 18 December 2020

© Bohn Stafleu van Loghum is een imprint van Springer Media B.V., onderdeel van Springer Nature 2020

Samenvatting Inleiding: In de Jeugdgezondheidszorg (JGZ)-richtlijn Autismespectrumstoornissen (ASS) zijn op basis van *expert-opinion* zeven ontwikkelingskenmerken uit het Van Wiechen-onderzoek aangeduid als alarmsignalen voor ASS. Dit onderzoek had als doel de criteriumvaliditeit van deze kenmerken vast te stellen. Methode: In de periode 2009–2013 werden de zeven alarmsignalen verzameld uit de dossiers van de JGZ bij 197 kinderen met ASS (cases) en bij 197 controles, waarbij gematcht werd op geslacht. We gingen na wat de sensitiviteit, specificiteit en diagnostische oddsratio (DOR) van deze alarmsignalen zijn. De gegevensverzameling vond plaats voor de aanpassing van de JGZ-richtlijn in 2015 en daarom kon alleen de criteriumvaliditeit van de oorspronkelijke formulering van de alarmsignalen worden nagegaan.

Resultaten: Uitgaande van alle kinderen was de DOR niet statistisch significant bij drie van de zeven alarmsignalen. Dit betekent dat we van drie alarmsignalen niet konden aantonen dat ze in staat zijn een onderscheid te maken tussen cases en controles. Bij zes alarmsignalen was de specificiteit 96–100% en de sensitiviteit 0–27%. Bij één alarmsignaal was de sensitiviteit 42% en de specificiteit 85%.

Conclusie: Uitgaande van de oorspronkelijke formulering van de kenmerken zijn de alarmsignalen niet geschikt voor het opsporen van voldoende kinderen met ASS. Vervolgonderzoek is nodig om de nieuwe formulering van de alarmsignalen te valideren en na te

gaan of andere (combinaties van) kenmerken uit het Van Wiechen-onderzoek wel kunnen bijdragen aan de vroegsignalering van ASS.

Trefwoorden autismespectrumstoornis · criteriumvaliditeit · Van Wiechen-onderzoek · screening · ontwikkeling

Inleiding

De autismespectrumstoornis (ASS) is een neurobiologische ontwikkelingsstoornis die gekenmerkt wordt door een gebrek aan sociale communicatie en sociale interactie in uiteenlopende situaties, en repetitieve gedragspatronen, interesses en activiteiten [1]. Volgens de Gezondheidsraad is de prevalentie van ASS in Nederland naar schatting 1% [2]. Vroege herkenning van ASS kan een positieve bijdrage leveren aan de cognitieve en psychosociale ontwikkeling van het kind. Vroeg ingezette interventies verbeteren het cognitief vermogen en het adaptieve gedrag, en verminderen gedragsproblemen, ook op de lange termijn [3–5].

De eerste symptomen van autisme kunnen al waarneembaar zijn in het eerste en tweede levensjaar [6–8]. Daarnaast laat onderzoek zien dat de stabiliteit van de klinische diagnose op 2-jarige leeftijd hoog is [7, 8]. Ook onderzoek in Nederland geeft aan dat vroege opsporing voor het derde levensjaar mogelijk is [9, 10]. Desondanks worden veel kinderen pas opgespoord als ze al op school zitten, waardoor ze niet volledig gebruik kunnen maken van hun ontwikkelingspotentieel [11].

In 2015 verscheen de Jeugdgezondheidszorg (JGZ)-richtlijn ASS, signalering, begeleiding en toeleiding naar diagnostiek. Volgens deze richtlijn is het doel gedrags- en ontwikkelingskenmerken te signaleren die een indicatie kunnen zijn voor ASS [1]. Er bestaat een internationale lijst met alarmsignalen voor ASS

D. J. A. Bonnemaier-Kerckhoffs
Jeugdgezondheidszorg, GGD Limburg Noord, Roermond,
Nederland

S. I. Wins (✉) · P. van Dommelen · P. H. Verkerk
Child Health, Nederlandse Organisatie voor
toegepast-natuurwetenschappelijk onderzoek (TNO),
Leiden, Nederland
sophie.wins@tno.nl



Tabel 1 Criteria waaraan voldaan moet worden voor een positieve (goede) score van de alarmsignalen voor vroegsignalering van ASS, vóór de wijzigingen van de JGZ-richtlijn ASS in 2015 en vanaf 2015

| VWO-kenmerk | Positieve score vóór 2015 [19] | Positieve score vanaf 2015 (https://www.ncj.nl/van-wiechen/kenmerken/) |
|-----------------------------------------------------------------------------|--------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|---------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| Licht terug (2 maanden) ^a | Het kind licht terug als reactie op het toespreken door de onderzoeker, of de onderzoeker heeft de gewenste respons geobserveerd in de interactie tussen ouder en kind | Conform vóór 2015 |
| Brabbelt bij zijn spel (12 maanden) | Het kind maakt met tussenpozen melodieuze, niet monotone geluidjes (brabbelen) bij het spelen | Extra voorwaarde is nu dat er ook variatie in de geluiden moet zijn |
| Reageert op mondeling verzoek (12 maanden) | Op de vraag waar zich een bekend voorwerp of de genoemde persoon in de kamer bevindt, reageert het kind met zijn blik in die richting te wenden, en/of naar het voorwerp of de persoon te wijzen | Op de vraag waar zich het genoemde voorwerp of de genoemde persoon in de kamer bevindt, reageert het kind met zijn blik in die richting te wenden, en/of naar het voorwerp of de persoon te wijzen. Extra uitleg: het 'favoriete' speeltje moet buiten beschouwing gelaten worden |
| Maakt communicatieve gebaren (voorheen: Zwaait 'dag-dag') (12 maanden) | Het kind zwaait zelf, zonder hulp van de ouder, 'dag' terug naar de onderzoeker, of het kind vertoont een communicatief gebaar bij hoera of versjes | Het kind laat zelf, zonder hulp van de ouder, een communicatief gebaar zien. Het gaat niet alleen om letterlijk nadoen, maar ook om wederkerigheid. Of het kind wijst met de eigen wijsvinger het door hem gewenste voorwerp aan en kijkt de onderzoeker aan. Extra uitleg: er wordt nadruk gelegd op wederkerigheid en niet op letterlijk nadoen |
| Doet blokje in/uit doos (15 maanden) | Het kind voert de handelingen instoppen, loslaten en weer pakken ten minste één keer uit, zowel met de linker als met de rechter hand. De bewegingen verlopen soepel en goed gecoördineerd | Conform vóór 2015, maar een extra voorwaarde voor een positieve score is nu dat het kind ook reageert met aankijken en eventueel lachen, en wijzen naar de ouder/ onderzoeker |
| Zegt drie 'woorden' met begrip (voorheen: Zegt drie 'woorden') (18 maanden) | Het kind zegt drie voor hem betekenisvolle woorden, maar andere dan 'papa' en 'mama' | Conform vóór 2015 |
| Zegt 'zinnen' van twee woorden (24 maanden) | Het kind zegt zinnen van twee woorden, waarin een logische koppeling van twee begrippen tot stand wordt gebracht. De woordopbouw mag nog onvolledig zijn | Conform vóór 2015. Extra: het kenmerk wordt nu niet als positief gescoord wanneer er uitsluitend sprake is van echolalie |

^a Achter elk kenmerk staat aangegeven op welke leeftijd het kenmerk moet worden afgenomen.

[12–14], die grotendeels overeenkomen met enkele kenmerken uit het Van Wiechen-onderzoek (VWO) [15]. Het VWO is het instrument waarmee de JGZ de ontwikkeling volgt. De overeenkomstige kenmerken uit het VWO kunnen mogelijk anderszins aanwijzingen voor ASS geven. Het gaat in totaal om zeven Van Wiechen-kenmerken, die worden aangeduid als alarmsignalen voor ASS (tab. 1). Om de overeenkomst tussen de Van Wiechen-kenmerken en de internationale lijst met signalen voor ASS zo groot mogelijk te maken, zijn in 2015 enkele Van Wiechen-kenmerken aangescherpt. De zeven alarmsignalen van het VWO behoren primair tot de ontwikkelingsvelden fijne motoriek/adaptatie/persoonlijkheid/sociaal gedrag en communicatie, en worden tijdens een contactmoment bij een kind geobserveerd. Tevens worden de alarmsignalen bij ouders/verzorgers uitgevraagd. Bij kinderen die voldoen aan een of meer alarmsignalen is het advies verder onderzoek te doen met behulp van de Early Screening of Autistic Traits (ESAT) [1, 12, 15]. Om ouders niet in zo'n vroeg stadium al te confronteren met een test waar het woord 'autisme' in voorkomt is besloten tot een naamswijziging: CoSoS (Communicatieve en Sociale ontwikkelingsSignalen).

Voor zover wij konden nagaan is er weinig bekend over de opbrengst van deze afzonderlijke alarmsignalen van het VWO. Het doel van ons onderzoek is daarom om de criteriumvaliditeit vast te stellen van de alarmsignalen uit de JGZ-richtlijn ASS. Aangezien

de gegevensverzameling plaatsvond voor het verschijnen van de JGZ-richtlijn ASS en voor de aanpassing van de alarmsignalen voor ASS, konden we alleen de criteriumvaliditeit nagaan van de oorspronkelijke formulering van de alarmsignalen binnen het VWO.

Methode

Populatiegroep

We voerden een case-controleonderzoek uit en verzamelden tussen 2009 en 2013 gegevens van kinderen met ASS (cases) en zonder ASS (controles). De data van zowel cases als controles waren afkomstige van de afdeling JGZ van de GGD Zuid Limburg. Kinderen met ASS werden geïnccludeerd indien zij een leeftijd van 7–18 jaar hadden en speciaal onderwijs volgden, en als er bij een instelling voor geestelijke gezondheidszorg een officiële diagnose ASS was gesteld, ten minste op basis van de classificatie van de tekstrevisie van de vierde editie van de *Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders* (DSM-IV-TR). De kinderen met ASS volgden ten tijde van de dataverzameling allen cluster 4-onderwijs. Op grond van de toelatingscriteria geldt dat alleen kinderen met een totaal intelligentiequotiënt (IQ) ≥ 70 voor dit type onderwijs in aanmerking komen. De gegevens over de kinderen werden verkregen vanuit de toelatingsonderzoeken speciaal onderwijs die waren verricht door de

JGZ en vanuit de commissie van begeleiding cluster 4-onderwijs.

De controlegroep bestond uit kinderen met dezelfde leeftijdsspreiding als de cases, die binnen dezelfde regio woonden, regulier onderwijs volgden en niet gediagnosticeerd of bekend waren met vermoedens van ASS, dan wel andere ontwikkelingsstoornissen. Zij werden gematched voor geslacht, omdat naar verhouding meer jongens dan meisjes ASS hebben. Alle kinderen met een VWO daterend van voor 1996 werden geëxcludeerd.

De GGD Zuid Limburg gaf schriftelijk toestemming voor het verzamelen van de data. Informed consent van ouders voor anoniem gebruik van de kindgegevens werd verkregen bij het eerste contact met de JGZ.

Dataverzameling

Tijdens de GGD-contactmomenten werd de volgende informatie in papieren JGZ-dossiers opgeslagen en voor dit onderzoek gebruikt: geslacht, opleidingsniveau van de ouders, en voor de cases de diagnose volgens de DSM-IV, het intelligentieniveau op basis van het totaal IQ volgens de Snijders-Oomen niet-verbale intelligentietest (SON-test), Wechsler Intelligence Scale for Children II/III (WISC II/III), Revisie Amsterdamse Kinder Intelligentie Test (RAKIT), Wechsler Preschool and Primary Scale of Intelligence (WPPSI) of Leidse Diagnostische Test (LDT). Alle scores op het VWO voor de cases en controles werden verzameld. Voor dit onderzoek richtten we ons op de zeven alarmsignalen die in de JGZ-richtlijn ASS vermeld zijn. Tabel 1 geeft uitleg over de alarmsignalen die zijn afgenomen voor de wijziging in 2015 en welke toevoegingen er in 2015 hebben plaatsgevonden. De grootste aanpassingen betreffen de toevoeging van wederkerigheid in het kenmerk 'Maakt communicatieve gebaren' (voorheen aangeduid met 'Zwaait "dagdag")' en de toevoeging van *joint attention* (de vaardigheid om oogcontact, affect of gebaren te gebruiken om sociale ervaringen met anderen te delen) aan het kenmerk 'Doet blokje in/uit doos'. Joint attention is een belangrijk signaal van ASS – kinderen die hier niet aan voldoen worden afhankelijk van de score op andere kenmerken in de gaten gehouden of verder onderzocht.

Statistische analyses

Om te bepalen in hoeverre met de zeven alarmsignalen onderscheid kan worden gemaakt tussen kinderen met en kinderen zonder ASS, zijn voor elk van de VWO-kenmerken de sensitiviteit, specificiteit en diagnostische oddsratio (DOR) berekend [16]. Een DOR van 1 houdt in dat het kenmerk geen onderscheid kan maken tussen de ASS-groep en de controles. Met andere woorden: bij een DOR van 1 kan men net zo goed een dobbelsteen laten beslissen wie een case en wie een controle is. Indien de DOR groter dan 1 is,

dan is de odds op het krijgen van een afwijkende uitslag groter voor de ASS-groep dan voor de controles. Oftewel hoe hoger de DOR, hoe beter het onderscheidend vermogen en daarmee de criteriumvaliditeit van een kenmerk is. Een matige test met bijvoorbeeld een sensitiviteit van slechts 50% en een specificiteit van 95% heeft een DOR van 19. Beter tests hebben een aanzienlijk hogere DOR. Deze berekeningen zijn zowel uitgevoerd voor de totale ASS-groep, als voor de groep van ASS-kinderen met een IQ van 70 tot 85. Hierbij nemen we aan dat alle IQ-tests exact hetzelfde meten. Indien de DOR vanwege de lage aantallen in een bepaalde subcategorie niet berekend kon worden, is de haldane-anscombecorrectie gebruikt. Alle statistische analyses werden uitgevoerd in SPSS, versie 25.

Resultaten

Er zijn in totaal 394 deelnemers geïncludeerd, van wie 197 kinderen met ASS en 197 controles. Tabel 2 toont de achtergrondkenmerken van beide groepen. Het merendeel van de kinderen bestond uit jongens (82,7%). De leeftijd binnen de ASS-groep lag tussen de 8 en 18 jaar, en bij de controlegroep tussen de 7 en 17 jaar. De gemiddelde leeftijden van beide groepen waren nagenoeg gelijk. Er waren meer laagopgeleide vaders (41,3%) en moeders (50,7%) in de groep met ASS, dan in de controlegroep (respectievelijk 27,4% en 30,5%). Van de groep kinderen met ASS van wie het IQ bekend was, hadden drie op de tien kinderen een IQ-score van 70 tot 85. Daarnaast hebben we de gemiddelde leeftijd van beide groepen bij de verschillende contactmomenten met elkaar vergeleken. Daarbij vonden we geen statistisch significante verschillen.

Tabel 3 geeft de sensitiviteit, specificiteit en DOR weer van de zeven alarmsignalen, uitgesplitst naar de totale groep van kinderen met ASS en de groep van kinderen met een IQ van 70 tot 85. Het contactmoment op 18 maanden was geen regulier contact-

Tabel 2 Achtergrondkenmerken van de groep met ASS ($n = 197$) en de controlegroep ($n = 197$)

| Achtergrondkenmerken | | ASS n (%) | Controles n (%) |
|---------------------------|-----------------|----------------|----------------------|
| Geslacht, n (%) | Jongen | 163 (82,7) | 163 (82,7) |
| | Meisje | 34 (17,3) | 34 (17,3) |
| Leeftijd | Gemiddelde (SD) | 13,0 (2,1) | 12,8 (2,1) |
| Opleiding vader, n (%) | Laag | 57 (41,3) | 40 (27,4) |
| | Midden | 50 (36,2) | 59 (40,4) |
| | Hoog | 31 (22,4) | 47 (32,2) |
| Opleiding moeder, n (%) | Laag | 75 (50,7) | 47 (30,5) |
| | Midden | 51 (34,5) | 69 (44,8) |
| | Hoog | 22 (14,9) | 38 (24,7) |
| Totaal IQ, n (%) | 70–84 | 47 (29,4) | |
| | ≥ 85 | 113 (70,6) | |
| Totaal IQ | Gemiddelde (sd) | 91,9 (12,5) | |
| Performale schaal | Gemiddelde (sd) | 92,4 (16,3) | |
| Redeneerschaal | Gemiddelde (sd) | 92,0 (15,4) | |

Tabel 3 Sensitiviteit, specificiteit en diagnostische oddsratio (DOR) van de oorspronkelijke definitie van de alarmsignalen van het Van Wiechen-onderzoek voor de vroegsignalering van ASS

| Alarmsignalen | Sensitiviteit Totaal % (n/M) (95%-BI) | Sensitiviteit IQ 70–84 % (n/M) (95%-BI) | Specificiteit Totaal % (n/M) (95%-BI) | DOR (95%-BI) Totaal | DOR (95%-BI) IQ 70–84 |
|------------------------------------------------|---------------------------------------------|-----------------------------------------------|---------------------------------------------|------------------------|--------------------------|
| Licht terug (2 maanden) | 1,7% (3/174) (0,4–5,0%) | 3% (1/40) (0,1–13%) | 100% (177/177) (97,9–100%) | 7,2 (0,4–141,3) | 13,5 (0,5–337,1) |
| Brabbelt bij zijn spel (12 maanden) | 0% (0/146) (0–2,5%) | 0% (0/34) (0–10%) | 99,3% (142/143) (96,2–99,98%) | 0,3 (0,01–8,0) | 1,4 (0,1–34,5) |
| Reageert op mondeling verzoek (12 maanden) | 9,1% (12/132) (4,8–15,3%) | 12% (4/33) (3–28%) | 98,6% (139/141) (95,0–99,8%) | 7,0 (1,5–31,7) | 9,6 (1,7–54,8) |
| Zwaait 'dag-dag' (12 maanden) | 14,9% (21/141) (9,5–21,9%) | 12% (4/33) (3–28%) | 96,6% (141/146) (92,2–98,9%) | 4,9 (1,8–13,5) | 3,9 (0,9–15,4) |
| Doet blokje in/uit doos (15 maanden) | 4,0% (7/174) (1,6–8,1%) | 13% (5/40) (4–27%) | 96,0% (169/176) (92,0–98,4%) | 1,0 (0,4–2,8) | 3,4 (1,0–11,5) |
| Zegt drie 'woorden' (18 maanden) | 26,8% (11/41) (14,2–42,9%) | 25% (3/12) (5–57%) | 100% (28/28) (87,7–100%) | 21,5 (1,2–381,8) | 21,0 (0,99–444,7) |
| Zegt 'zinnen' van twee woorden (24 maanden) | 42,1% (69/164) (34,4–50,0%) | 47% (18/38) (31–64%) | 85,1% (149/175) (79,0–90,1%) | 4,2 (2,5–7,0) | 5,2 (2,4–11,0) |

95%-BI 95%-betrouwbaarheidsinterval, IQ intelligentiequotiënt

moment, waardoor de aantallen lager uitvielen voor het alarmsignaal 'Zegt drie "woorden"'. Voor de totale groep van kinderen met ASS was de DOR van zes van de zeven alarmsignalen kleiner dan 8 en bij drie van de zeven alarmsignalen week de DOR niet statistisch significant af van 1. Bij zes alarmsignalen was de specificiteit zeer hoog (96–100%), maar de sensitiviteit laag (0–27%). Bij één alarmsignaal, 'Zegt "zinnen" van twee woorden', was de sensitiviteit hoger (42,1%), maar de specificiteit lager (85,1%). Voor de groep kinderen met ASS en een IQ van 70 tot 85 was de DOR bij zes van de zeven alarmsignalen kleiner dan 14 en bij vier van de zeven alarmsignalen week de DOR niet significant af van 1.

Beschouwing

Dit onderzoek toont aan dat de zeven alarmsignalen zoals oorspronkelijk geformuleerd niet geschikt zijn voor de vroegsignalering van kinderen met ASS in de JGZ. Zelfs wanneer we ons beperken tot kinderen met ASS met een IQ van 70 tot 85 zal slechts een beperkt deel gesignaleerd kunnen worden. De hoogste sensitiviteit (42,1%) werd bereikt met het alarmsignaal, 'Zegt "zinnen" van twee woorden' op 24 maanden. Met alleen dit kenmerk wordt daarmee 57,9% van de kinderen met ASS gemist. Met een specificiteit van 85,1% en een prevalentie van ASS van 1% is de kans op ASS gegeven een negatieve (afwijkende) score op 'Zegt "zinnen" van twee woorden' slechts 2,8%. Mogelijk kunnen taalkenmerken op 36 maanden, maar ook andere (combinaties van) kenmerken uit het VWO een grotere bijdrage leveren aan de vroegsignalering van ASS, maar hier is nog geen onderzoek naar gedaan.

Van de zeven kenmerken zijn er twee na ons onderzoek wezenlijk gewijzigd en wel 'Doet blokje in/uit doos' en 'Zwaait "dag-dag"'. De toevoeging van wederkerigheid aan het kenmerk 'Zwaait "dag-dag"' en joint attention aan het kenmerk 'Doet blokje in/uit

doos' zal waarschijnlijk resulteren in een gewijzigde criteriumvaliditeit ten opzichte van de resultaten in dit onderzoek. Verder onderzoek naar het effect van deze wijzigingen op de criteriumvaliditeit is wenselijk.

De JGZ-richtlijn ASS adviseert om bij kinderen met een vermoeden van ASS op grond van de zeven alarmsignalen in het VWO verder onderzoek te doen met behulp van de CoSoS. Uit het onderzoek van Dietz et al. in de JGZ kwam echter naar voren dat slechts weinig kinderen met ASS worden opgespoord met de CoSoS [12]. In dit onderzoek werd eerst een prescreeningstest verricht met vier vragen uit de CoSoS binnen de algemene JGZ-populatie. Indien ten minste een van de vier vragen afweek werd de volledige CoSoS afgenomen. Met deze aanpak werden achttien kinderen met ASS opgespoord uit een populatie van 31.724 kinderen (detectiecijfer: 0,057%). Uitgaande van een prevalentie van 1% zal met de CoSoS slechts 5,7% (0,057%/1%) van de kinderen met ASS worden opgespoord. Dit percentage zal mogelijk lager uitvallen als er eerst een selectie plaatsvindt op basis van de zeven alarmsignalen in het VWO.

Bij het invoeren van een screeningsprogramma is het belangrijk dat er voldoende bewijs is dat de voordelen op groepsniveau opwegen tegen de nadelen. Degene die de screening invoert heeft een resultaatverplichting. Voor ons is het niet duidelijk wie bij de JGZ verantwoordelijk is voor het invoeren van een screeningsprogramma. Zijn dat de opstellers van een richtlijn, het NCJ, de afzonderlijke JGZ-instellingen of is het de Rijksoverheid? Indien er zorgen bij de ouders zijn, kan ervan uitgegaan worden dat de JGZ-professional zijn best zal doen na te gaan of de zorgen terecht zijn. Hij heeft echter geen resultaatverplichting, maar slechts een inspanningsverplichting. Bij de screening op ASS bestaat twijfel of de voordelen wel opwegen tegen de nadelen. De U.S. Preventive Services Task Force (USPSTF) geeft aan dat er onvoldoende bewijs is om te screenen op ASS in een

groep kinderen van wie de ouders en/of de arts zich geen zorgen maken over de aanwezigheid van ASS [17]. Een nadeel van de screening die de JGZ-richtlijn voorstelt is dat deze waarschijnlijk tot zeer veel fout-negatieven zal leiden, gezien onze bevindingen, en omdat uit het onderzoek van Dietz et al. bleek dat slechts zeer weinig kinderen met ASS worden opgespoord [12]. Hierdoor kan de screening professionals en ouders ten onrechte de indruk geven dat er geen sprake is van ASS, terwijl dat in werkelijkheid wel het geval is. De screening kan daardoor weleens als onbedoeld gevolg hebben dat kinderen met ASS juist later opgespoord gaan worden dan zonder screening het geval was. Een ander nadeel van de huidige richtlijn is dat de JGZ nu tijd moet steken in een activiteit die vermoedelijk niet doelmatig is. In de JGZ-richtlijn ASS worden naast de alarmsignalen het niet-pluisgevoel, signalen bij ouders, school en/of JGZ genoemd als ingang voor verder onderzoek. Aangezien er volgens ons geen overtuigende evidence is voor screenen op ASS valt te overwegen alleen het niet-pluisgevoel bij de JGZ-professional en zorgen bij ouders of de school als ingang te gebruiken voor verder onderzoek. De JGZ-professional kent de ontwikkelingshistorie en kan de kinderopvang of de school raadplegen. De JGZ-professional kan na een niet-pluisgevoel adviseren en mogelijk nader onderzoek inzetten, bijvoorbeeld met de Modified Checklist for Autism in Toddlers, Revised, with Follow-Up (M-CHAT-R/F), gevolgd door eventueel een verwijzing naar een specialist. De M-CHAT-R/F is een lijst met twintig vragen over het gedrag van het kind (16–30 maanden) met een redelijke sensitiviteit en specificiteit [17, 18].

Een sterk punt van ons onderzoek is dat de gegevens van deze kinderen in het JGZ-dossier zijn geregistreerd voordat de meeste kinderen waren gediagnosticeerd, waardoor er geen of weinig bias geïntroduceerd is in de wijze waarop de kenmerken werden beoordeeld. Er is gebruikgemaakt van een case-control-onderzoeksontwerp omdat dit efficiënt is. Onze steekproef bestond uit bijna tweehonderd kinderen met ASS. Dit aantal maakt het mogelijk met een hoge mate van precisie schattingen te maken van de sensitiviteit van de alarmsignalen. Een cohortonderzoek zou impliceren dat we bijna 20.000 kinderen over meerdere jaren zouden moeten volgen om dezelfde aantallen in de steekproef te bereiken.

Daarnaast heeft ons onderzoek ook enkele beperkingen. Zo zijn de gegevens verzameld in de periode 2009–2013. In 2015 zijn de VWO-kenmerken voor de vroegsignalering van ASS echter aangepast op basis van de alarmsignalen uit het onderzoek van Dietz et al. [15]. Verder zijn niet alle kinderen op alle contactmomenten gemeten. Aangezien dit zowel binnen de ASS-groep als in de controlegroep is gebeurd, verwachten we dat de groepen onderling goed te vergelijken zijn. Ten slotte is een beperking dat het onderzoeksmoment op de leeftijd van 18 maanden geen regulier onderzoeksmoment is. Deze beperking heeft

ertoe geleid dat we op dit onderzoeksmoment kleinere aantallen hebben dan op de andere onderzoeksmomenten. Ook is het mogelijk dat op deze leeftijd bias is opgetreden, omdat het een risicogroep kan betreffen.

Besluit

De oorspronkelijke formulering van de alarmsignalen van het VWO is niet geschikt voor het opsporen van voldoende kinderen met ASS. Er is meer onderzoek nodig naar de kenmerken ‘Maakt communicatieve gebaren’ (voorheen ‘Zwaait “dag-dag”’) en ‘Doet blokje in/uit doos’, alsmede andere (combinaties van) kenmerken uit het VWO. Op dit moment valt te overwegen alleen het niet-pluisgevoel bij de JGZ-professional en zorgen bij ouders, kinderopvang of school als ingang te gebruiken voor advisering en ondersteuning en mogelijk nader onderzoek. Maar ook hiervoor geldt dat meer onderzoek wenselijk is.

Literatuur

- Berckelaer-Onnes IA, Anzion P van, Sinnema H, Glind G van de. JGZ-richtlijn autismespectrumstoornissen. Utrecht: Nederland Centrum Jeugdgezondheid; 2015. <https://www.ncj.nl/richtlijnen/alle-richtlijnen/richtlijn/autismespectrumstoornissen>. Geraadpleegd op 14 mei 2020.
- Gezondheidsraad. Autismespectrumstoornissen: een leven lang anders. Publicatienummer. 2009/09. Den Haag: Gezondheidsraad; 2009.
- Dawson G, Rogers S, Munson J, et al. Randomized, controlled trial of an intervention for toddlers with autism: the Early Start Denver Model. *Pediatrics*. 2010;125(1):e17–e23.
- Dawson G, Jones EJ, Merkle K, et al. Early behavioral intervention is associated with normalized brain activity in young children with autism. *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry*. 2012;51(11):1150–9.
- Estes A, Munson J, Rogers SJ, Greenon J, Winter J, Dawson G. Long-term outcomes of early intervention in 6-year-old children with autism spectrum disorder. *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry*. 2015;54(7):580–7.
- Werner E, Dawson G, Osterling J, Dinno N. Brief report: recognition of autism spectrum disorder before one year of age: a retrospective study based on home videotapes. *J Autism Dev Disord*. 2000;30(2):157–62.
- Chawarska K, Paul R, Klin A, Hannigen S, Dichtel LE, Volkmar F. Parental recognition of developmental problems in toddlers with autism spectrum disorders. *J Autism Dev Disord*. 2007;37(1):62–72.
- Guthrie W, Swineford LB, Nottke C, Wetherby AM. Early diagnosis of autism spectrum disorder: stability and change in clinical diagnosis and symptom presentation. *J Child Psychol Psychiatry*. 2013;54(5):582–90.
- Oosterling IJ, Wensing M, Swinkels SH, et al. Advancing early detection of autism spectrum disorder by applying an integrated two-stage screening approach. *J Child Psychol Psychiatry*. 2010;51(3):250–8.
- Daalen E van, Kemner C, Dietz C, Swinkels SH, Buitelaar JK, Engeland H van. Inter-rater reliability and stability of diagnoses of autism spectrum disorder in children identified through screening at a very young age. *Eur Child Adolesc Psychiatry*. 2009;18(11):663–74.

11. Sheldrick RC, Maye MP, Carter AS. Age at first identification of autism spectrum disorder: an analysis of two US surveys. *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry*. 2017;56(4):313–20.
12. Dietz C, Swinkels S, Daalen E van, Engeland H van, Buitelaar JK. Screening for autistic spectrum disorder in children aged 14–15 months. II: population screening with the Early Screening of Autistic Traits Questionnaire (ESAT). Design and general findings. *J Autism Dev Disord*. 2006;36:713–22.
13. Filipek PA, Accardo PJ, Baranek GT, et al. The screening and diagnosis of autistic spectrum disorders. *J Autism Dev Disord*. 1999;29:439–84.
14. Le Couteur A. National autism plan for children. London: National Autistic Society; 2003.
15. Dietz C. The early screening of autistic spectrum disorders. Proefschrift. Utrecht: Universiteit Utrecht; 2007.
16. Glas AS, Lijmer JG, Prins MH, Bonsel GJ, Bossuyt PMM. The diagnostic odds ratio: a single indicator of test performance. *J Clin Epidemiol*. 2003;56(11):1129–35.
17. Siu AL and the US Preventive Services Task Force. Screening for autism spectrum disorder in young children. US Preventive Services Task Force Recommendation Statement. *JAMA*. 2016;315:691–6.
18. Robins DL, Casagrande K, Barton M, Chen CM, Dumont-Mathieu T, Fein D. Validation of the modified checklist for autism in toddlers, revised with follow-up (M-CHAT-R/F). *Pediatrics*. 2014;133:37–45.
19. Laurent de Angulo MS, Brouwers-de JEA, Bijlsma Schlösser JFM, et al. *Ontwikkelingsonderzoek in de Jeugdgezondheidszorg*. Assen: Van Gorcum; 2008.

D.J.A. Bonnemaier-Kerckhoffs, arts Maatschappij en Gezondheid, jeugdarts

S.I. Wins, junior onderzoeker

P. van Dommelen, statisticus/onderzoeker

P.H. Verkerk, arts Maatschappij en Gezondheid, epidemioloog