

2017

Radboud Universiteit Nijmegen

[SPRAAK, TAAL EN KWALITEIT VAN LEVEN BIJ DOWNSYNDROOM]

Een onderzoek naar de spraak- en taalontwikkeling, de kwaliteit van leven en het eventuele verband hiertussen bij kinderen en adolescenten.

Lotte Wossink

s4152956

Masterscriptie Taal- en Spraakpathologie

29 augustus 2017

Begeleiders:

Prof. dr. Roeland van Hout

Prof. dr. Esther de Vries

Samenvatting

Het doel van deze masterscriptie was het in kaart brengen van de spraak- en taalontwikkeling, de kwaliteit van leven en het eventuele verband hiertussen bij kinderen en adolescenten met het syndroom van Down. De scriptie is geschreven in het kader van het DigiDown project opgezet door het Downteam OnderzoeksConsortium.

Uit de literatuurstudie bleek dat de ontwikkeling van kinderen met Downsyndroom anders en vertraagd verloopt. Het productief taalgebruik is bij Downsyndroom sterker vertraagd en aangedaan dan de receptieve vaardigheden. Voornamelijk de syntaxis en de morfologie zijn zwakker. De actieve woordenschat blijft relatief gezien gespaard. De problemen in de spraak worden veroorzaakt door een verminderde articulatie en spraakverstaanbaarheid, voor sommigen blijft dit levenslang een rol spelen. De beperkingen in de verbale communicatie worden deels ondervangen door een goed ontwikkelde non-verbale communicatie. De communicatiemogelijkheden worden op latere leeftijd uitgebreid door het leren lezen en schrijven waarbij de leesvaardigheid vaak beter is ontwikkeld.

Voor de digitale patiëntenregistratie DigiDown waren al eerder spraak- en taalvragenlijsten ontwikkeld. De resultaten uit deze vragenlijsten zijn geanalyseerd. Hieruit bleek dat het spreken zich later ontwikkelt en in enkele gevallen niet. Het inzetten van non-verbale communicatie is voornamelijk in de eerste levensjaren van groot belang. Het merendeel ondervindt problemen op gebied van spraakverstaanbaarheid en begrijpelijk vertellen. De personen produceren voor een lange periode voornamelijk een- en tweewoordzinnen. Op gebied van geletterdheid scoorden de personen opvallend lager dan resultaten uit eerder onderzoek. Als gevolg van de spraak- en taalproblemen wordt de kwaliteit van leven al op jonge leeftijd beïnvloed. De eerste problemen op gebied van communicatie en motorisch functioneren openbaren zich vanaf 1;6 jaar. Opmerkelijk is dat er zich geen problemen voordoen op het gebied van lichamelijke- en gezondheidsproblemen.

In deze scriptie zijn alleen de instapvragenlijsten geanalyseerd waarmee een globaal beeld van de taal- en spraakontwikkeling is geschetst. In de toekomst kunnen de vervolgvragenlijsten worden uitgezet en geanalyseerd om een longitudinaal beeld te schetsen. Ook kan er direct onderzoek gedaan worden door deskundigen om een nauwkeuriger en een meer objectief beeld te bewerkstelligen. Hopelijk wordt er in de komende jaren nog meer bekend over het verloop en de ontwikkeling bij Downsyndroom met behulp van deze digitale patiëntenregistratie.

Abstract

The purpose of this master thesis was to examine the language and speech development, the quality of life and the relation between those two for children and young adults with Down syndrome. This master thesis has been written in the context of the DigiDown project, developed by the Downteam OnderzoeksConsortium.

The literature review showed that the development of children with Down syndrome is different and delayed. With Down syndrome, productive language use is more delayed and affected than the receptive skills. Especially the syntax and the morphology are weaker. The active vocabulary is mostly spared. Speech problems are often caused by reduced articulation and speech intelligibility. For some people with Down syndrome this constitutes a lifelong problem. The impairments in the verbal communication are supported by a well-developed non-verbal communication. The communication possibilities are expanded at a later age by learning to read and write, where reading skills are often better developed.

For the digital patient registration DigiDown, speech- and language questionnaires were developed before. The results from these questionnaires were analysed and they showed that speech development is delayed or, in some cases, does not start. The use of non-verbal communication is very important, especially in the first years of life. The majority of the patients with Down syndrome is experiencing problems in the speech intelligibility and comprehensible telling. They produce especially one or two word sentences for a long time period. In the field of literacy, people with Down syndrome scored remarkably lower than the results from a previous research. As a result of the speech and language problems, quality of life is influenced from a young age. The first issues with communication and motor functioning reveal themselves from 1;6 years old. Remarkable are the non-deviant estimations for physical and health problems as assumed in the literature.

In this thesis, only the entry questionnaires are analysed to give an overall impression of the speech and language development of children and young adults with Down syndrome. In the future, follow-up questionnaires can be distributed and analysed to get a longitudinal image of the speech and language development. Also, direct research can be done to achieve a more accurate and a more objective image of the development. Hopefully, in the next few years, we will be more familiar with the progress and development of Down syndrome by using the digital patient registration DigiDown.

Voorwoord

Voor u ligt mijn scriptie ‘Spraaak, taal en kwaliteit van leven bij Downsyndroom’. Na mijn bachelorstudie Logopedie en deze masterstudie Taal- en Spraakpathologie is het einde daar en sluit ik mijn studieperiode af met deze scriptie. Na het behalen van mijn bachelordiploma Logopedie aan de Hogeschool van Arnhem en Nijmegen heb ik besloten de master Taal- en Spraakpathologie te gaan volgen. In deze thesis staat de spraak- en taalontwikkeling bij Downsyndroom centraal. Een onderwerp dat gedurende mijn bacheloropleiding vrijwel altijd in de schaduw heeft gestaan. Tijdens het schrijven van mijn thesis is mijn interesse hierin verder aangewakkerd en had ik de mogelijkheid om mij te verdiepen in dit onderwerp.

De scriptie is geschreven in het kader van mijn afstuderen en in opdracht van prof. dr. E. de Vries, werkzaam bij het Jeroen Bosch Ziekenhuis te 's-Hertogenbosch. Het onderzoek voor deze scriptie naar de spraak- en taalontwikkeling maar ook de kwaliteit van leven is uitgevoerd bij personen met Downsyndroom die vrijwillig hebben deelgenomen aan de patiëntenregistratie DigiDown. Deze patiëntenregistratie is opgezet door het Downteam OnderzoeksConsortium (DOC), een landelijk samenwerkingsverband dat onderzoek doet op het gebied van Downsyndroom geïnitieerd door prof. dr. E. de Vries. Van februari tot en met augustus 2017 ben ik bezig geweest met het verzamelen en analyseren van onderzoeksgegevens en het schrijven van de scriptie. Dankzij deze scriptie heb ik mijn zelfstandigheid, onderzoeksvaardigheden en mijn kennis over Downsyndroom in een korte periode verbeterd.

Afgelopen half jaar was een leerzame periode waar ik met plezier op terug kijk. Het resultaat van deze scriptie en de plezierige periode die ik heb ervaren is mede te danken aan een aantal personen. Via deze weg wil ik graag mijn persoonlijk begeleider Roeland bedanken voor de prettige begeleiding en de ondersteuning, maar ook voor het meedenken en zijn enthousiasme tijdens het schrijven van deze scriptie. Daarnaast wil ik prof. dr. E. de Vries hartelijk danken voor het beschikbaar stellen van de onderzoeksgegevens, haar tijd en waardevolle feedback tijdens dit traject. Ten slotte dank ik de mensen die dicht bij me staan: mijn familie, vriendinnen en studiegenoten voor de steun, het meedenken en het meelesen gedurende de gehele afstudeerperiode.

Ik wens u veel leesplezier.

Inhoudsopgave

Samenvatting	iii
Abstract	iv
Voorwoord	v
Inhoudsopgave	vi
Hoofdstuk 1 Inleiding.....	1
Hoofdstuk 2 Literatuurstudie naar de spraak- en taalontwikkeling bij Downsyndroom. 4	4
2.1 Inleiding.....	4
2.2 Algemene problematiek	4
2.2.1 Algehele gezondheid	4
2.2.2 Cognitieve ontwikkeling	6
2.2.3 Gehoorproblemen.....	7
2.2.4 Visusproblemen.....	8
2.2.5 Motoriek	9
2.3 Spraak.....	10
2.4 Taal	14
2.4.1 Interactie	16
2.4.2 Semantiek	17
2.4.3 Morfologie en syntaxis.....	20
2.5 Geletterdheid.....	22
2.5.1 Lezen	22
2.5.1.1 Leesonderwijs	24
2.5.1.2 Leren lezen om te leren spreken	25
2.5.2 Schrijven.....	26
2.6 Conclusie.....	28
Hoofdstuk 3 Analyse spraak- en taalvragenlijsten.....	29
3.1 Ontwikkeling spraak- en taalvragenlijsten	29
3.1.1 Downteam OnderzoeksConsortium	29
3.1.2 Taalscreeningvragenlijst bij aanvang	29
3.1.3 Downvragenlijsten	30
3.2 Resultaten spraak- en taalvragenlijsten	32
3.2.1 Onderzoeksgroep.....	32
3.2.3 Communicatie	33
3.2.4 Spraak.....	36

3.2.5	Spraakverstaanbaarheid en begripelijkheid.....	39
3.2.6	Syntaxis	40
3.2.4	Geletterdheid	43
3.2.5	Dag invulling.....	46
3.2.6	Spraak- en taalontwikkeling.....	47
3.3	Conclusie.....	48
Hoofdstuk 4	Analyse vragenlijst Quality of Life	50
4.1	Ontwikkeling vragenlijsten kwaliteit van leven.....	50
4.2	Analyse vragenlijsten kwaliteit van leven	51
4.2.1	Onderzoeksgroep.....	51
4.2.2	Methode.....	52
4.2.3	Resultaten	55
4.2.3	Vergelijking met de eerdere studie van Gameren-Oosterom e.a. (2011).....	65
4.2.4	Leeftijdsonwikkeling voor kwaliteit van leven.....	65
4.3	Conclusie.....	68
Hoofdstuk 5	De vergelijking tussen spraak, taal en kwaliteit van leven	69
5.1	Inleiding.....	69
5.2	Kinderen met Downsyndroom van 1 tot 6 jaar	70
5.2.1	Communicatie	70
5.2.2	Motorisch functioneren.....	72
5.3	Kinderen met Downsyndroom van 6 tot 15 jaar	73
5.3.1	Cognitief functioneren.....	74
5.3.2	Motorisch functioneren	76
5.4	Conclusie.....	77
Hoofdstuk 6	Discussie en conclusie.....	79
Referenties.....		85
Appendix A		90

Hoofdstuk 1 Inleiding

Downsyndroom is in 1866 voor het eerst beschreven door de Britse arts John Langdon Down (Down, 1866) en bijna een eeuw later legden Lejeune, Gautier en Turpin (1959) het verband tussen het syndroom van Down en trisomie 21. Het syndroom van Down is de meest voorkomende chromosomale afwijking bij pasgeborenen waarbij de prevalentie in Nederland wordt geschat op 10 tot 14 kinderen per 10.000 levendgeborenen (Weijerman, Van Furth, Vonk Noordegraaf, Van Wouwe & Broers, 2008). Chromosomen zitten in alle lichaamscellen en bevatten de erfelijke eigenschappen. In plaats van de gebruikelijke twee chromosomen, komt chromosoom 21 in drievoud voor bij een patiënt met Downsyndroom. Het komt voor dat niet alle lichaamscellen drie exemplaren bevatten maar alleen een deel van deze cellen. Dit wordt mozaïek Downsyndroom genoemd. Daarnaast kan het zijn dat alleen een stuk extra chromosoom 21 vastgeplakt is aan een ander chromosoom. Deze laatste vorm wordt translocatie genoemd.

Uiterlijke kenmerken zijn vaak direct na de geboorte zichtbaar. Pasgeborenen zijn vaak opvallend slap en hebben daarnaast een kenmerkende mongoloïde oogstand, kleinere oren, een relatief platte neusbrug en een huidplooi in de nek. Naast deze uiterlijke kenmerken hebben veel patiënten ook gezondheidsproblemen. Bijna de helft van de kinderen met Downsyndroom wordt geboren met een hartafwijking. Het merendeel van deze aandoeningen is vandaag de dag goed operabel. Daarnaast zijn afwijkingen aan het maagdarmkanaal, de urinewegen en aan de luchtwegen veel voorkomend. Hoe iemand met het syndroom van Down zich ontwikkelt verschilt per individu. De levensverwachting is mede door de betere medische zorg de laatste jaren enorm toegenomen tot 60 à 70 jaar. Patiënten met het mozaïek Downsyndroom ontwikkelen zich vaak beter dan patiënten met volledige trisomie 21.

Alle kinderen met Downsyndroom hebben een verstandelijke beperking. Dit kan zich in verschillende gradaties uiten. Een kind met Downsyndroom ontwikkelt zich langzamer dan een leeftijdsgenoot die een normale ontwikkeling doorloopt, zowel op lichamelijk als verstandelijk niveau. De verstandelijke beperking heeft als gevolg een achterblijvende ontwikkeling op diverse ontwikkelingsdomeinen, waarbij de spraak- en taalontwikkeling het meest zijn aangedaan (Witecy & Penke, 2017). Het meest opvallend is dat kinderen met Downsyndroom de mijlpalen in de spraak- en taalontwikkeling op latere leeftijd bereiken. De spraak- en taalproblemen kunnen kinderen en adolescenten met Downsyndroom belemmeren

in de communicatie, terwijl een goede communicatie belangrijk is voor een goede kwaliteit van leven. De beperkt ontwikkelde communicatieve vaardigheden zijn van invloed op het zelfstandig functioneren en de algemene zelfredzaamheid. Net als op de overige domeinen, is er ook op gebied van spraak en taal sprake van veel variatie binnen de groep kinderen met Downsyndroom.

Tegenwoordig profiteren patiënten met Downsyndroom meer van therapie en onderwijs waardoor de communicatieve vaardigheden, inclusief de schriftelijke vaardigheden, over het algemeen beter zijn ontwikkeld dan voorheen. Mede hierdoor wordt het zelfstandig functioneren in de maatschappij vergroot en hebben zij meer zeggenschap over hun eigen leven. Ondanks dat de bijkomende problemen zeer individueel bepaald zijn, is de kwaliteit van leven in het algemeen de afgelopen jaren aanzienlijk vooruitgegaan.

De focus in deze scriptie ligt op de spraak- en taalontwikkeling, de kwaliteit van leven en het eventuele verband hiertussen bij kinderen en adolescenten met Downsyndroom. Vorig jaar zijn er vragenlijsten ontwikkeld (Sonneveld, 2016) voor het in kaart brengen van de spraak- en taalontwikkeling in het kader van DigiDown. Dit betreft een landelijke patiëntenregistratie waarin allerlei gegevens over kinderen met Downsyndroom worden vastgelegd. Het project DigiDown wordt verder toegelicht in hoofdstuk 3. De ontwikkelde vragenlijsten zijn digitaal. Ouders van kinderen met Downsyndroom kunnen deze online invullen. Tevens zijn de kwaliteit van leven vragenlijsten uitgezet om de gezondheidsgelateerde kwaliteit van leven bij kinderen met Downsyndroom te onderzoeken. De scriptie bestaat uit vier delen, die in vier inhoudelijke hoofdstukken worden besproken.

In hoofdstuk 2 wordt op grond van een literatuurstudie de algemene problematiek en de spraak- en taalontwikkeling bij kinderen met Downsyndroom beschreven. De ontwikkeling op gebied van spraak, taal en geletterdheid wordt uitgewerkt aan de hand van eerdere studies. In hoofdstuk 3 wordt het tweede deel van de scriptie besproken. Vorig jaar zijn door Sonneveld (2016) in het kader van haar scriptieonderzoek spraak- en taalvragenlijsten ontwikkeld om de spraak- en taalontwikkeling bij kinderen en adolescenten met Downsyndroom in kaart te kunnen brengen, en al eerder is door Vaillant (2013) de taalscreeningvragenlijst ontworpen. Deze vragenlijsten zijn in het najaar van 2015 en 2016 uitgezet onder de ouders van kinderen met Downsyndroom die deelnemen aan de digitale patiëntenregistratie DigiDown. De verkregen responses worden in dit hoofdstuk beschreven en geanalyseerd en waar mogelijk in verband gebracht met eerdere studies. Waar mogelijk

zullen de gegevens ook in verband worden gebracht met de data afkomstig uit de enquête van de Stichting Downsyndroom, gecoördineerd door dhr. De Graaf. Vervolgens wordt in hoofdstuk 4 ingegaan op de kwaliteit van leven vragenlijsten die eveneens zijn opgenomen in de patiëntenregistratie DigiDown. De vragenlijsten die de gezondheidsgerelateerde kwaliteit van leven beschrijven bij kinderen worden besproken en geanalyseerd. Hoofdstuk 5 gaat in op een eventueel verband tussen de resultaten uit de spraak- en taalvragenlijsten en de resultaten afkomstig uit de kwaliteit van leven vragenlijsten. Afhankelijk van het aantal responses zullen diverse componenten met elkaar worden vergeleken waarbij de focus zal liggen op de communicatie en het motorisch functioneren. Na ieder hoofdstuk volgt een korte conclusie over het betreffende hoofdstuk. De scriptie wordt afgesloten in hoofdstuk 6 waar de resultaten van de verschillende hoofdstukken met elkaar worden verbonden waarop een korte discussie en een algehele conclusie volgt.

Hoofdstuk 2 Literatuurstudie naar de spraak- en taalontwikkeling bij Downsyndroom

2.1 Inleiding

In dit hoofdstuk wordt een beeld geschetst van de spraak- en taalontwikkeling van kinderen met Downsyndroom aan de hand van eerdere studies. Voorafgaand aan deze beschrijving wordt eerst de algemene problematiek beschreven die negatief van invloed kan zijn op de spraak- en taalontwikkeling. Vervolgens wordt er aandacht geschonken aan de spraakontwikkeling waar stil wordt gestaan bij de problemen die zich voordoen in de articulatie en de oraal-motorische vaardigheden, maar ook op het gebied van de spraakverstaanbaarheid. Daaropvolgend wordt de taalontwikkeling besproken, waarbij in wordt gegaan op fonologie en semantiek, maar ook op morfologie en syntaxis. Tot slot wordt de geletterdheid bij Downsyndroom beschreven waarbij de deelvaardigheden lezen en schrijven worden toegelicht.

2.2 Algemene problematiek

In deze sectie wordt een algemeen beeld geschetst van de algehele gezondheid bij kinderen met Downsyndroom. Tevens wordt een aantal specifieke problemen die de spraak- en taalontwikkeling negatief kunnen beïnvloeden toegelicht. Dit betreft de cognitieve ontwikkeling en gehoorproblematiek, evenals visusproblemen en een verminderde motoriek.

2.2.1 Algehele gezondheid

Downsyndroom is één van de bekendste aangeboren chromosomale aandoeningen. Uiterlijke kenmerken van dit syndroom zijn vrijwel direct na de geboorte zichtbaar en vormen een kenmerkend beeld van het syndroom van Down (Roberts, Price & Malkin, 2007).

Pasgeborenen zijn vaak goed te herkennen aan de relatief platte neusbrug, kleine asymmetrische oren, een korte nek met dikke huidplooï en de karakteristieke amandelvormige en scheefstaande ogen met *Brushfield spots*. Dat zijn pigmentvlekjes in de iris (Borstlap, Nijenhuis, Siderius & Van Wouwe, 2000). Daarbij zijn de handen korter en breder (Roberts e.a., 2007) en staat de duim iets meer af. In de handlijnen wordt vaak een *simiaanlijn* waargenomen (Devlin & Morrison, 2004), een dwarse handplooï die de gehele handpalm bestrijkt. Ook zijn de armen en benen korter en worden de voeten gekenmerkt door een *sandal gap*, een ongewone grote ruimte tussen de eerste en de tweede teen (Devlin & Morrison, 2004). De meeste uiterlijke kenmerken hebben geen directe invloed op het algeheel functioneren.

Naast uiterlijke kenmerken hebben kinderen met Downsyndroom ook een verhoogde kans op diverse lichamelijke afwijkingen en gezondheidsproblemen. Nagenoeg de helft wordt geboren met een hartafwijking (Borstlap e.a., 2000; De Graaf, Borstlap & De Graaf, 2010; Weijerman e.a., 2010). Deze kinderen ondergaan vaak al op jonge leeftijd een hartoperatie. Veelal betreft het een vorm van atrioventriculair septumdefect (AVSD), waarbij er een gat is tussen de hartboezems en hartkamers. De afgelopen jaren is de overlevingskans na een operatie bij een AVSD gestegen naar bijna honderd procent. Ook is de kwaliteit van leven van kinderen met Downsyndroom die een operatie hebben ondergaan hetzelfde als bij een kind met Downsyndroom zonder hartoperatie (De Graaf & Borstlap, 2009). Afwijkingen in het maag- en darmkanaal en problemen met de luchtwegen komen ook frequent voor bij Downsyndroom, evenals gehoorproblemen, visusproblemen en problemen met betrekking tot de motoriek. Verder komen epilepsie, diabetes type I, een traag werkende schildklier, huidproblemen en een verminderde weerstand voor. Daarnaast hebben kinderen met Downsyndroom een verhoogde kans op leukemie en, later, en al op relatief jonge leeftijd, op de ziekte van Alzheimer (Goemans, Kollen, De Haas & Zwaan, 2016).

Zoals eerder beschreven wordt het syndroom van Down veroorzaakt doordat chromosoom 21, geheel of gedeeltelijk, driemaal voorkomt. Chromosoom 21 draagt het amyloïd precursor-protein (APP) gen bij zich dat verantwoordelijk is voor de productie van één van de belangrijkste eiwitten die betrokken zijn bij de veranderingen in de hersenen en de ziekte van Alzheimer kunnen veroorzaken. De ziekte van Alzheimer en het syndroom van Down zijn genetisch gekoppeld waardoor er een verhoogd risico bestaat op het ontwikkelen van dementie op vrij jonge leeftijd (Castro, Zaman & Holland, 2017).

De ziekte van Alzheimer is de meest voorkomende vorm van dementie die geleidelijk aan hersencellen vernietigt. Hierdoor wordt het geheugen, het vermogen om te leren, te oordelen en te communiceren maar ook het vermogen om dagelijkse activiteiten uit te voeren aangetast. In een vroeg stadium van de ziekte van Alzheimer kunnen al veranderingen in de expressieve taal optreden, naast de bekende problematiek zoals een verminderd kortetermijngeheugen en problemen met het leren en herinneren van nieuwe informatie. Op gebied van taalproductie kan er sprake zijn van woordvindingsproblemen met daarbij een kleinere actieve woordenschat, evenals het produceren van kortere zinnen en het minder frequent spontaan spreken. Receptief gezien zal het voornamelijk van invloed zijn op het taalbegrip en het begrijpen van verbale instructies. Daarnaast verslechtert de fijne motoriek die van belang is tijdens het schrijfproces (Castro e.a., 2017). Veranderingen die typerend zijn

voor de ziekte van Alzheimer ontwikkelen zich vaak voor het vijfde decennium (Roizen & Patterson, 2003). Het risico op de ziekte van Alzheimer bij Downsyndroom neemt toe met elke 10 levensjaren, maar de kans zal nooit 100 procent bedragen. Naar schatting komt de ziekte van Alzheimer bij driekwart van de patiënten met Downsyndroom van 60 jaar en ouder voor (Roberts e.a., 2007; Roizen & Patterson, 2003).

Kinderen die vandaag de dag geboren worden met Downsyndroom hebben een grotere kans op een goede gezondheid dan vroeger. De levensverwachting is gestegen, tegenwoordig bereikt ruim de helft van de patiënten met Downsyndroom de leeftijd van 60 jaar, waar kinderen in de jaren '40 slechts een leeftijd van 12 jaar bereikten (Bittles, Bower, Hussain & Glasson, 2006). Het stijgen van de levensverwachting zorgt eveneens voor een toename van leeftijdsgerelateerde ziektebeelden zoals dementie (Castro e.a., 2017). Hart- en vaatziekten, longontstekingen en overige infecties aan de luchtwegen blijven belangrijke en veelvoorkomende doodsoorzaken bij patiënten met Downsyndroom (Bittles e.a., 2006). De levensverwachting is mede hierdoor nog aanzienlijk lager dan de levensverwachting van mensen zonder Downsyndroom.

2.2.2 *Cognitieve ontwikkeling*

Hoe een kind met Downsyndroom zich verstandelijk ontwikkelt, verschilt per individu. Kinderen met mozaïek Downsyndroom ontwikkelen zich vaak beter dan patiënten met volledige trisomie 21. De cognitieve ontwikkeling bij kinderen met Downsyndroom stagneert na de eerste twee levensjaren en verloopt hierna trager en beperkter dan normaal. Uit studies naar het intelligentie coëfficiënt van kinderen met Downsyndroom blijkt dat de uiteindelijke IQ-scores uiteenlopen van 35 tot 70 (Laws & Hall, 2014; Weijerman, 2011). De verstandelijke beperking uit zich hierdoor in verschillende gradaties, van een lichte tot een matige verstandelijke beperking. Ernstige verstandelijke beperkingen komen zelden voor bij kinderen met Downsyndroom. De IQ-scores worden gemiddeld genomen lager met de leeftijd door een afnemend ontwikkelingstempo, maar op iedere leeftijd is er sprake van een grote individuele spreiding. Weijerman (2011) veronderstelt dat kinderen met Downsyndroom sneller een plafond bereiken dan zich normaal ontwikkelende kinderen. De intelligentie van kinderen en adolescenten met Downsyndroom hangt in beperkte mate samen met de alledaagse vaardigheden, de sociale integratie en de sociale vaardigheden, evenals de schoolse vaardigheden (De Graaf & Borstlap, 2009).

2.2.3 Gehoorproblemen

Een goed gehoor is essentieel voor de ontwikkeling van spraak en taal (Schaerlaekens, 2008). Bij benadering heeft 40 tot 80 procent van de kinderen met Downsyndroom een licht tot middelmatig gehoorverlies (Laws & Hall, 2014). Het betreft hier regelmatig een conductief gehoorverlies waarbij de geluidsgolven niet of minder sterk worden doorgegeven aan het binnenoor. Het wisselende gehoorverlies gedurende de eerste levensjaren, de kritieke periode in de spraak- en taalontwikkeling, kan in verband worden gebracht met een vertraging in de spraak- en taalontwikkeling. Het gehoorverlies wordt veelal veroorzaakt door een verstopte nauwe gehoorgang die kan leiden tot opgehoopt oorsmeer of middenoorproblematiek zoals vocht in het middenoor, ook wel *otitis media serosa* genoemd (De Graaf & Borstlap, 2009; Laws & Hall, 2014). Grofweg twee derde van de kinderen met Downsyndroom heeft last van overmatig oorsmeer. Ook hebben zij regelmatig last van eczeem in de gehoorgang. De huidschilders kunnen een verstopping veroorzaken waardoor de kans op een infectie toeneemt. Een dergelijke opeenhoping in de gehoorgang kan al gauw leiden tot gehoorverliezen van zo'n 20 decibel (De Graaf, 2005).

Kinderen met Downsyndroom hebben daarnaast vaak een nauwe neus- en keelholte en daarbij een nauwere luchtpijp. De luchtverversing is hierdoor minder efficiënt waardoor zij gemakkelijk bovenste luchtweginfecties, oorontstekingen en verkoudheden oplopen. Kinderen met Downsyndroom zijn gevoelig voor middenoorinfecties vanwege een niet goed werkende buis van Eustachius (De Graaf, Borstlap & De Graaf, 2010). Als gevolg van regelmatige middenoorontstekingen en vocht achter het trommelflies, kan het gehoor afnemen. Ook hebben de meeste kinderen een kleinere oorschelp waarmee zij minder trillingen op kunnen vangen vanuit de lucht, hierdoor wordt het geluid minder luid waargenomen. Dit zorgt ervoor dat kinderen, voornamelijk in het eerste levensjaar, onvoldoende auditieve input krijgen.

Tijdens de periode van de spraak- en taalontwikkeling, vrijwel direct vanaf de geboorte, is regelmatige controle door een KNO-arts noodzakelijk. Vroegtijdige behandeling van de zich voordoende problemen is belangrijk vanwege de mogelijke ernstige nadelige consequenties (Cleland, Wood, Hardcastle, Wishart & Timmins, 2010). Het merendeel van de taal wordt verworven voor het zevende levensjaar en gehoorverliezen in deze kritieke periode kunnen van direct negatieve invloed zijn op de taalverwerving (Laws & Hall, 2014).

Afhankelijk van de aard van het gehoorverlies kunnen er zich diverse problemen voordoen. Een voorbeeld is het niet correct kunnen articuleren van klanken doordat zij de klanken niet

goed hebben kunnen aanleren. Bij vrijwel alle jonge kinderen met Downsyndroom kan, vaak met behulp van gehoorapparaten, een normaal gehoor worden bewerkstelligd. Dit zou betekenen dat betere KNO-zorg de prevalentie van gehoorproblemen zeer zou kunnen doen verminderen (De Graaf, Borstlap & De Graaf, 2010). Op latere leeftijd kan bij volwassenen met Downsyndroom eventuele ouderdomsslechthorendheid optreden, de kans hierop neemt toe met de leeftijd en vindt doorgaans eerder plaats dan bij volwassenen zonder het syndroom van Down.

2.2.4 Visusproblemen

Kinderen met Downsyndroom krijgen vaak te maken met visusproblemen. Bij benadering krijgt 38 tot 80 procent te maken met oogafwijkingen (Weijerman, 2013). Zij hebben tien keer meer de kans om een bril te moeten dragen tegen de tijd dat ze naar school gaan ten opzichte van zich normaal ontwikkelende kinderen (De Graaf, 2013). Pasgeborenen kunnen soms minder goed zien door een *cataract*, een vertroebeling van de ooglens, of door een *nystagmus*, het onwillekeurig ritmisch bewegen van de oogbollen. Van de oogafwijkingen die in de loop van het leven optreden komt verminderd scherp zien het meest voor, dit is gemakkelijk te corrigeren met een bril. In volgorde van afnemende frequentie komen de volgende visusproblemen voor: het verminderd waarnemen van details, verminderde contrast-gevoeligheid, verminderd accommodatievermogen, refractie- of brilafwijkingen, scheelzien, lui oog, nystagmus, blepharitis, cataract, verstopte traanbuis, keratoconus en glaucoom (Coppus & Wagenmans, 2014; De Graaf & Borstlap, 2009).

Uit onderzoek van Roizen, Mets & Blondis (1994) bleek dat bijna de helft van de kinderen met Downsyndroom tussen de 2 maanden en 19 jaar een oogafwijking had. Het percentage kinderen met oogafwijkingen nam toe met de leeftijd, van 38 procent in de groep van 2 tot 12 maanden naar 80 procent in de groep van 5 tot 12 jaar (Weijerman, 2011). Het is belangrijk dat de visus van deze kinderen regelmatig wordt gecontroleerd door een orthoptist of oogarts. Uit de enquête van De Graaf e.a. (2010) onder Nederlandse kinderen bleek dat het merendeel van de kinderen met Downsyndroom brildragend is. Naarmate de leeftijd toenam werd het percentage kinderen die een bril droeg groter. In de leeftijd van 5 tot 13 jaar droeg bijna de helft van de kinderen een bril en vanaf 13 jaar en ouder was dit percentage zelfs meer dan de helft (De Graaf e.a., 2010). Een visusprobleem hoeft niet direct gevolgen te hebben voor de spraak- en taalontwikkeling, maar kan de communicatie wel bemoeilijken. Essentiële communicatieve voorwaarden als het maken van oogcontact of het richten van de aandacht

kunnen hierdoor verminderd aanwezig zijn. Tevens kunnen visusproblemen een belemmerende rol spelen bij het lezen en schrijven of bij het gebruik van gebaren.

2.2.5 Motoriek

Een goed functionerende spraakmotoriek is van belang voor het correct articuleren van de klanken, op de juiste articulatiwijze en articulatieplaats. De fijn-motorische ontwikkeling is vooral van belang voor de fonologie en met name de articulatie. Bij de productie van spraak worden gemiddeld genomen een honderdtal spieren gebruikt. De leeftijd waarop kinderen controle hebben over hun grove en fijne motoriek verschilt. Kinderen met blijvende motorische beperkingen zullen ook blijvende moeilijkheden hebben om de spraakklanken duidelijk te articuleren. Zij zijn voor hun omgeving vaak moeilijk te begrijpen en kunnen daardoor ontmoedigd raken om veel te spreken (Schaerlaekens, 2008).

De motorische ontwikkeling bij kinderen met Downsyndroom verloopt trager dan bij zich normaal ontwikkelende kinderen (Weijerman, 2013). Zij bereiken de mijlpalen in de motorische ontwikkeling gemiddeld genomen later. De gemiddelde leeftijd waarop kinderen met Downsyndroom zitten zonder ondersteuning is volgens de gegevens uit de SDS enquête van De Graaf op 22 maanden, voor kinderen zonder beperking is dit op 7 maanden. Ook de leeftijd waarop een kind met Downsyndroom 15 losse pasjes kan zetten ligt hoger met 30 maanden, voor kinderen zonder beperkingen is dit aanzienlijk eerder met 13 maanden (De Graaf & De Graaf, 2011a). De motorische ontwikkeling is niet alleen vertraagd, maar verloopt ook anders. Op de voorgrond staan problemen met de houdingscontrole en balans. Het motorisch gedrag van kinderen met Downsyndroom wordt gekarakteriseerd door statische symmetrische bewegingspatronen, weinig variatie en tragere bewegingen. Er is sprake van een beperkte ontwikkeling van evenwichtsreacties en een verminderde doelmatigheid van motoriek. Daarnaast speelt hypotonie en hyperflexibiliteit een rol. De spieren zijn slapper en de gewrichten zijn buitengewoon flexibel vergeleken met zich normaal ontwikkelende kinderen (De Graaf & Borstlap, 2009; Weijerman, 2011). Ondanks dat kinderen met Downsyndroom de elementaire grove en fijne motorische vaardigheden uiteindelijk nagenoeg altijd onder de knie krijgen, blijkt het aanleren van meer complexe motorische vaardigheden zoals tekenen en schrijven een moeizaam proces.

Er kunnen zich ook problemen voordoen in de verschillende fasen van het eet- en drinkproces. Deze problemen zijn toe te schrijven aan de vertraagde ontwikkeling wat betreft de bewegingen van de tong en de hypotonie. Ook speelt *tongprotrusie* een rol, het ver naar

buiten komen van de tong bij activiteit. Er zijn twee aspecten die problemen veroorzaken met het kauwen bij kinderen met Downsyndroom, namelijk de bewegingen van de tong (meer voor-achterwaartse bewegingen dan de laterale bewegingen die nodig zijn om het voedsel naar de kauwvlakken te sturen) en de hypotonie van lip- en wangspieren. De slappe mondmotoriek, de aanleg van de spieren in het mondgebied en de relatief kleine mondholte zijn ook van invloed op de articulatorische bewegingen en daarmee op de spraakverstaanbaarheid.

In een studie van Alcock (2006) werd aangetoond dat de oraal-motorische vaardigheden verantwoordelijk zijn voor het verkrijgen van voldoende taalkennis. Ook werd het vermogen om te communiceren op een meer gevorderd niveau hierdoor beïnvloed. Kinderen die moeite ondervinden met hun spraak lieten verminderde oraal-motorische vaardigheden zien, het realiseren van complex oraal-motorische vaardigheden was eveneens moeilijk. Gernsbacher, Sauer, Geye, Schweigert & Hill Goldsmith (2008) onderzochten de invloed van de fijn-motorische vaardigheden op de spraak- en taalontwikkeling van kinderen. Deze motorische vaardigheden dragen eraan bij dat kinderen nieuwe ervaringen op doen in hun omgeving die helpen bij het leren van een taal. Zowel de oraal-motorische vaardigheden als de fijn-motorische vaardigheden zijn een goede voorspeller van de taalvaardigheid van kinderen. Logopedische begeleiding voor kinderen met Downsyndroom dient vroegtijdig gestart te worden om de mondmotoriek optimaal te ontwikkelen en om de spraak en het eten en drinken te stimuleren (Borstlap e.a., 2011).

2.3 Sprak

Er is sprake van een goede spraakverstaanbaarheid wanneer de luisteraar de akoestische signalen van de spreker begrijpt zonder enige ondersteunende non-verbale informatie, zoals mimiek of het toepassen van gebaren (Kumin, 2006).

Bij kinderen met Downsyndroom treden problemen in de spraakverstaanbaarheid al in een vroeg stadium van de spraakontwikkeling op (Laws & Hall, 2014). Het gecombineerde effect van het spreken in telegramstijl zinnen en de verminderde articulatie zorgt ervoor dat kinderen met Downsyndroom moeilijk worden begrepen, met name wanneer zij spreken met onbekenden (Kazemi, Shojaei & Sadighi, 2016). De spraakverstaanbaarheid van kinderen met Downsyndroom is lager in vergelijking met hun mentale leeftijd. Op het moment dat de spraakverstaanbaarheid onder niveau is, neemt de effectiviteit van de communicatie met de directe en indirecte omgeving af. Ouders erkennen dat de spraakverstaanbaarheid een groot

probleem is voor hun kinderen. Uit een eerdere studie van Kumin (1994) blijkt dat 95 procent van de ouders aangeeft dat hun kinderen moeite hebben om verstaan te worden door mensen in hun indirecte omgeving. De spraakverstaanbaarheid bij zich normaal ontwikkelende kinderen is vaak bij 48 maanden al ruim voldoende en wordt zelfs als goed bestempeld (Kumin, 2006; Roberts e.a., 2007). Voor kinderen met Downsyndroom blijft het echter een probleem dat levenslang een rol zal spelen. Het is onwaarschijnlijk dat kinderen met Downsyndroom volledig verstaanbaar zullen worden (Kumin, 2006). De verminderde spraakverstaanbaarheid kan ontstaan door uiteenlopende aspecten, namelijk: fonologische processen, reductie van woorden, apraxie of dysartrie. Tevens kunnen aspecten als spreek snelheid, stemkwaliteit en plaatsing van klemtoon een belangrijke rol spelen. Ook dragen anatomische afwijkingen en moeilijkheden in de oraal-motorische planning bij aan articulatieproblemen en daarmee aan een sterk verminderde spraakverstaanbaarheid (Laws & Hall, 2014).

De spraakproductie bij kinderen met Downsyndroom wordt geassocieerd met uiteenlopende beperkingen op het terrein van gehoor- en auditieve verwerkingsproblemen, een gestoorde fijne en grove motoriek of anatomische en fysiologische afwijkingen van het spraakkanaal (Kent & Vorperian, 2013). Vaak betreft het een combinatie van factoren. Pasgeborenen met Downsyndroom hebben al enkele karakteristieke uiterlijke kenmerken. Opvallende uiterlijke kenmerken die betrekking hebben op de spraak zijn de smalle neusbrug en de relatief grote tong waarbij sprake is van *protrusie*. Daarnaast is bij kinderen met Downsyndroom het aangezicht vaak vlak en onvoldoende ontwikkeld. Ook hebben zij dikwijls een nauwe neus-keelholte, een kleinere mondholte, een smal en hoog gehemelte, onderontwikkeling van de bovenkaak, een onregelmatig gebit, nauwe gehoorgangen en een andere aanleg van de buis van Eustachius (Roberts e.a., 2007). Deze afwijkende anatomie en fysiologie in combinatie met hypotonie kunnen verantwoordelijk zijn voor de verminderde verstaanbaarheid (Toğram, 2015).

Twee factoren die van invloed zijn op de spraakverstaanbaarheid zijn de oraal-motorische vaardigheden en de oraal-motorische planning. De oraal-motorische vaardigheden hebben betrekking op de kracht en de bewegingen van de gezichtsspieren (Kumin, 2006). Het is bekend dat Downsyndroom frequent gepaard gaat met hypotonie, een te lage spierspanning. In dit geval gaat het om een te lage spanning van de spieren die betrokken zijn bij het aansturen van de kaak, de mond, de tong en de lippen. Deze spierafwijkingen en een gestoorde innervatie zouden verantwoordelijk zijn voor de verminderde snelheid, beperkte

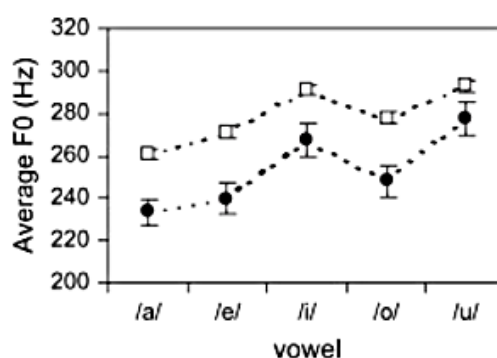
bewegingen en coördinatieproblemen van de articulatoren bij Downsyndroom (Cleland e.a., 2010; Roberts e.a., 2007). Moeilijkheden in het maken van de precieze bewegingen, omdat de tong moeilijk kan bewegen in de kleine mondholte of omdat de tong uitsteekt, kan bijvoorbeeld leiden tot onnauwkeurige articulatiebewegingen.

De moeilijkheden in de oraal-motorische planning bij kinderen met Downsyndroom worden ook wel aangeduid als verbale dyspraxie, een stoornis in de planning en organisatie van complexe bewegingen in de mondmotoriek. Verbale dyspraxie wordt als belangrijkste oorzaak van de slechte articulatie en spraakverstaanbaarheid gezien. Kumin & Adams (2000) hebben aangetoond dat kinderen met Downsyndroom alle kenmerken vertonen van een ernstige orale en verbale dyspraxie. De verminderde coördinatie van lip-, kaak- en tongspieren kan ervoor zorgen dat de uitspraak moeizaam op gang komt (Buma & Roost-van Steen, 2008). Door de forse coördinatie- en planningsproblemen in de spraak komen deze kinderen volgens Kumin & Adams (2000) niet verder dan een matige verstaanbaarheid in drie- tot vierwoordszinnen. Kinderen met Downsyndroom hebben de neiging om te spreken in korte uitingen. Dit kan mogelijk beïnvloed zijn doordat de langere uitingen minder goed worden begrepen door hun omgeving. Wanneer zij in korte uitingen spreken, is de uitspraak en daarmee de spraakverstaanbaarheid beter (Buckley & Bird, 1993).

Problemen in de fonologische ontwikkeling uiteten zich voornamelijk in klankfouten. Fonologie verwijst naar de spraakklanken, ook wel fonemen, en het combineren van deze klanken tot woorden. Een aantal studies veronderstellen dat de aanvang van het brabbelen bij baby's met Downsyndroom niet afwijkt ten opzichte van een normale spraak- en taalontwikkeling maar dat de eerste verschillen zich voordoen bij de productie van de eerste woorden. De vocale taalproductie van de klanken ma-ma/pa-pa bij kinderen met Downsyndroom vindt gemiddeld genomen plaats op een leeftijd van 11 maanden. Kinderen zonder een beperking produceren deze klanken veelal drie maanden eerder (De Graaf & De Graaf, 2011a). Verschillen in de fonologische ontwikkeling tussen kinderen met Downsyndroom en zich normaal ontwikkelende kinderen ontstaan gedurende de overgang van het brabbelen naar de eerste woorden. Kinderen met Downsyndroom produceren hun eerste woordje veelal op een latere leeftijd dan kinderen die een normale ontwikkeling doorlopen (Kazemi e.a., 2016). De gemiddelde leeftijd voor deze mijlpaal wordt geschat op 21 maanden (Roberts e.a. 2007; Zampini & D'Odorico, 2013), waarbij de gemiddelde leeftijd voor zich normaal ontwikkelende kinderen ligt rondom hun eerste verjaardag, tussen de 10 en 15 maanden (Schaerlaekens, 2008).

In de periode van december 2008 tot en met augustus 2009 heeft de Stichting Downsyndroom (SDS) een grote online enquête uitgezet. De enquêtes zijn opgezet en uitgevoerd door De Graaf en in verschillende jaren afgenomen, namelijk in 2006 en 2007 (follow up) waarna een uitgebreide enquête in 2009 volgde. Uit deze SDS enquête bleek dat de helft van de kinderen met Downsyndroom rond de 20 maanden het eerste woordje sprak en 90 procent bij 50 maanden (De Graaf & De Graaf, 2011b). Klankfouten komen veelvuldig voor bij kinderen met Downsyndroom. Vaak betreft het een inconsistent, onregelmatig foutenpatroon (Cleland e.a., 2010). De ontwikkeling is veelal vertraagd maar de fonologische processen die zich voordoen zijn vergelijkbaar met jongere zich normaal ontwikkelende kinderen. De fonologische processen worden alleen in een trager tempo geëlimineerd (Roberts e.a., 2007). Deze processen worden zelfs nog bij volwassenen met Downsyndroom gerapporteerd. Jongens met Downsyndroom laten over het algemeen vaker *telescopie*, het in elkaar schuiven van lettergrepen, maar ook reductie van consonantclusters en consonantdeletie zien. Als gevolg hiervan is de verstaanbaarheid vaak verminderd en kan dit een belangrijke belemmering worden in dagelijkse activiteiten (Roberts e.a., 2007).

De stemkwaliteit bij Downsyndroom is eveneens vaak aangedaan. De stemkwaliteit wordt op basis van diverse studies veelal als hees en schor beschreven (Kent & Vorperian, 2013). Het is niet duidelijk of de stemkwaliteit met de leeftijd verandert. In figuur 2.1 blijkt op basis van het onderzoek van Moura e.a. (2008) dat de stem van een kind met Downsyndroom gemiddeld genomen een lagere grondfrequentie (F0) heeft. Hierdoor klinkt de stem veelal monotoon, nasaal, hees en schor. De verschillen zijn voor alle vijf vocalen, met uitzondering van /u/ significant tussen de kinderen met Downsyndroom en zich normaal ontwikkelende kinderen. De resultaten kunnen toegeschreven worden aan de verminderde controle over de stembanden, de tonus, die het trillen kan beïnvloeden.



Figuur 2.1 Gemiddelde F0 voor kinderen met Downsyndroom (●) en zich normaal ontwikkelende kinderen (□) gemeten voor vijf vocalen (Moura e.a., 2008).

De verschillen in anatomie kunnen ook verantwoordelijk zijn voor een verminderde stemkwaliteit. De smalle neusbrug, waardoor de neus omhoog wipt, kan bijvoorbeeld de oorzaak zijn van het nasale stemgeluid. De verminderde stemkwaliteit kan de spraakverstaanbaarheid negatief beïnvloeden. Het kost patiënten met Downsyndroom twee keer zo veel moeite om de fonatie te starten doordat de bovenste luchtwegen minder efficiënt werken. Hierdoor kan er sprake zijn van dysfonie of heesheid. De afwijkende anatomie en fysiologie van de bij spraak betrokken structuren en spieren zouden ook een rol kunnen spelen bij een verminderde stemkwaliteit (Roberts e.a., 2007).

Tot slot kunnen niet-vloeiendheden en gehoorproblemen van invloed zijn op de spraak en verstaanbaarheid. Een niet-vloeiendheid wordt gezien als een herhaling van een klank, syllabe of woord. Daarnaast kan er sprake zijn van verlengingen van geluiden of van stiltes en gespannen pauzes. Het is echter onbekend of niet-vloeiendheid bij Downsyndroom geclassificeerd mag worden als stotteren. Niet-vloeiendheid komt bij bijna de helft van de kinderen met Downsyndroom voor en kan zorgen voor een gebrek aan verstaanbaarheid en bemoeilijkt de spraakproductie bij kinderen met Downsyndroom (Bray, 2007). Daarentegen spreken alle kinderen af en toe niet vloeiend, voornamelijk wanneer zij meer complexe taal gebruiken of zeer emotioneel zijn. Het kan dus een normale maar vertraagde ontwikkeling betreffen (De Graaf, 2005). Zoals eerder beschreven zouden ook gehoorproblemen van invloed kunnen zijn op de spraak. Conductief gehoorverlies en de problemen in de auditieve discriminatie maken het moeilijk om subtiele verschillen waar te nemen tussen geluiden en klanken. Het niet goed kunnen discrimineren van deze minimale verschillen kan resulteren in problemen tijdens het produceren van spraakklanken (Kumin, 2006).

2.4 Taal

Tijdens de taalverwerving moeten kinderen de regels omtrent geluiden, grammatica, betekenissen en taalgebruik leren. Deze regels worden vaak weergegeven in vier hoofdcomponenten, namelijk: fonologie, semantiek, (morfo)syntaxis en pragmatiek. Daarbij wordt in de literatuur onderscheid gemaakt tussen receptieve en productieve taal in deze vier hoofdcomponenten. Hierbij slaat receptieve taal terug op het taalbegrip en productieve taal op de taalproductie. In deze sectie zullen de interactie, de semantiek (woordenschat), morfologie en syntaxis bij kinderen met Downsyndroom worden besproken (Roberts e.a., 2007). De fonologische ontwikkeling is al eerder besproken in paragraaf 2.3, waarin de spraak bij kinderen bij Downsyndroom is toegelicht.

In tabel 2.1 is de productieve taalontwikkeling bij kinderen met Downsyndroom samengevat. De mijlpalen die hier zijn gepresenteerd zijn overgenomen uit Vaillant (2013) gebaseerd op Buckley (2000). Uit de tabel is op te maken dat de productieve taalontwikkeling is vertraagd in vergelijking met zich normaal ontwikkelende kinderen. De bevindingen representeren de gemiddelde ontwikkeling van een kind met Downsyndroom. De groep kinderen met Downsyndroom kent een grote variabiliteit op diverse niveaus. Er zullen dus kinderen zijn die afwijkend presteren ten opzichte van het beschreven gemiddelde. De mijlpalen met betrekking tot *speech* zijn al eerder besproken in paragraaf 2.3 en zullen niet opnieuw aan bod komen.

Tabel 2.1 Taalproductie mijlpalen van kinderen met Downsyndroom beschreven in Vaillant (2013) gebaseerd op de eerder beschreven mijlpalen van Buckley (2000).

Age	Interaction	Vocabulary	Grammar	Speech
0-12 months	- Crying - Eye-contact - Smiling - Listening/looking - Vocalising - coos - Turn taking	- Understanding words		- Babble - Babble tuned to native language
12-24 months	- Joint attention - Gestures - Conveying an increasing number of meanings in gestures and some words	- Beginning to sign - Beginning to say words - First 10 words		- Initial consonants and vowels developing as single sounds
24-36 months	- Initiating conversations - pointing, requesting	- First 30 words - Comprehension ahead of production	- Two words together	- Words not very clear/intelligible
36-60 months	- Repairing conversations when not understood - by trying again	- First 100 words - Rate of word learning increases - At 5 years about 300 words	- Two and three key words together - Early grammar begins	- Consonant, vowel and word production improve in accuracy
5-7 years	- Learning to tell short narratives	- Vocabulary learning continues to accelerate - At 7 years about 400 words	- 'Telegraphic' sentences - keywords - Increasingly correct short sentences	- Consonant and vowel production continue to improve in accuracy
7-16 years	- Taking part in longer topic related conversations - Requesting clarifications using - What?, Where - Telling stories - Developing social use of language further - social small talk - Taking account of listener's knowledge knowing how to provide appropriate amounts of information for person or social situation - Giving longer explanations or instructions - Telling jokes - Recounting experiences	- More new words are learned each year - Typical vocabulary size of older children and teenagers not known	- Correct syntax being mastered slowly - More difficult prepositions ('above', 'below'), conjunctions ('and', 'then', 'because'), comparatives ('longer than') - Grammar steadily extended to include passives in comprehension - Many of these features are learned and used in reading and writing and then in speaking	- Blends improve - Speech becomes steadily more intelligible - Speech rate and speech clarity continue to improve, influenced by reading

2.4.1 Interactie

Voordat kinderen een taal leren, communiceren zij voornamelijk door middel van gebaren, vocaliseren en ander gedrag. De communicatie start veelal symbolisch tussen de 12 en 18 maanden met gebaren en eenwoordzinnen. Bij kinderen met Downsyndroom vindt deze manier van communiceren pas plaats tussen 24 en 36 maanden. Er zijn ook casussen bekend waarbij kinderen met een leeftijd van 3 jaar nog niet spreken. Bij zich normaal ontwikkelende kinderen breidt het vocabulaire zich uit naar 50 woorden tussen de 18 en 36 maanden en combineert het kind woorden tot tweewoordzinnen (Roberts e.a., 2007). Het vocabulaire van kinderen met Downsyndroom is eenvoudiger dan die van zich normaal ontwikkelende kinderen met eenzelfde lexicale grootte (Zampini & D'Odorico, 2011).

In paragraaf 2.3 is eerder beschreven dat kinderen met Downsyndroom licht vertraagd starten met brabbelen waarna een moeizame overgang naar het spreken van woorden volgt. Ook lijken kinderen met Downsyndroom het moeilijk te vinden om een ander te imiteren. Imitatie is belangrijk tijdens sociaal spel met zich normaal ontwikkelende kinderen maar ook in therapiesituaties is het een noodzakelijke vaardigheid. Imitatie wordt juist op latere leeftijd in sommige gevallen toegepast als een hulpmiddel wanneer het kind niet weet hoe te reageren of als een ineffectieve leerstrategie waarbij klakkeloos de ander wordt overgenomen.

Uit een studie van Beuker, Rommelse, Donders & Buitelaar (2013) bleek dat de vaardigheden voor gedeelde aandacht bij zich normaal ontwikkelende kinderen doorgaans ontstaan tussen 8 en 15 maanden. De gedeelde aandacht, m.a.w. *joint attention*, is een vorm van communicatief gedrag met een verwijzingsfunctie naar een derde punt. Het gedrag bevat veelal componenten als het maken van oogcontact en gebaren. Bij joint attention gaat het om het rekening houden met zowel datgene waar de eigen aandacht op gericht is, als met datgene waar de ander zijn aandacht op richt, met als doel gezamenlijk een bepaald object of gebeurtenis waar te nemen. Het passief volgen van aandacht ontwikkelt zich vlotter dan het actief sturen en richten van andermans aandacht. Daarnaast kwam naar voren dat het actief richten van andermans aandacht een positief effect heeft op de woordenschatontwikkeling tussen 10 en 18 maanden. De passieve aandacht waarbij het kind volgt hangt vooral samen met het taalbegrip en de actieve aandacht waarbij het kind stuurt hangt samen met zowel het taalbegrip als taalproductie. De ontwikkeling van de gedeelde aandacht is belangrijk voor het verder ontwikkelen van diverse communicatieve functies. Ondanks dat kinderen met Downsyndroom sociaal zijn ingesteld ondervinden zij moeite met het verwerven van de vaardigheden voor gedeelde aandacht. Kinderen met Downsyndroom die een vertraagde

ontwikkeling van gedeelde aandacht doorlopen, zijn wel in staat om een ander te volgen of de aandacht te richten van zich normaal ontwikkelende kinderen met hetzelfde ontwikkelingsniveau (Abbeduto e.a., 2007).

Het gebruik van gebaren is een belangrijk onderdeel van de communicatie bij jonge kinderen met Downsyndroom. Uit een eerdere studie (Franco & Wishart, in Abbeduto e.a., 2007) bleek dat kinderen met Downsyndroom in de pre-linguïstische fase bijna twee keer zo veel gebaren gebruikten in vergelijking met zich normaal ontwikkelende kinderen. Tevens bleek dat deze kinderen een groter repertoire aan gebaren gebruikten (Singer-Harris e.a., in Abbeduto e.a., 2007). Gezien deze resultaten wordt het gebruik van gebaren bij kinderen met Downsyndroom al op jonge leeftijd aangemoedigd.

2.4.2 Semantiek

Semantiek verwijst naar de betekenis van woorden waarin kennis wordt opgedaan over de woordenschat en concepten van voorwerpen en gebeurtenissen (Roberts e.a., 2007). Kinderen met Downsyndroom starten veelal later met praten dan zich normaal ontwikkelende kinderen (Buckley, 2000). De eerste verschillen doen zich voor tijdens het spreken van het eerste woord. Zoals eerder besproken in paragraaf 2.3 wordt de gemiddelde leeftijd voor deze mijlpaal bij kinderen met Downsyndroom geschat op 21 maanden (Roberts e.a., 2007; Zampini & D'Odorico, 2013) waarbij de gemiddelde leeftijd voor zich normaal ontwikkelde kinderen ligt rondom hun eerste verjaardag (Schaerlaekens, 2008). Het reageren op bekende woorden ligt voor kinderen zonder een beperking rond de 8 maanden, uit de SDS enquête blijkt dat kinderen met Downsyndroom pas rond de 13 maanden adequaat reageren op de woorden door er bijvoorbeeld naar te kijken (De Graaf & De Graaf, 2011a).

De aanvang van het eerste woordje is vaak vertraagd en de vroegtijdige expressieve woordenschatgroei is langzaam (Zampini & D'Odorico, 2011). In een onderzoek van Berglund, Eriksson & Johansson (2001) bij kinderen met Downsyndroom tussen de één en vijf jaar kwam naar voren dat 12 procent van de kinderen tussen 12 tot 23 maanden oud eenwoordzinnen produceerden. In de leeftijd van 26 tot 47 maanden oud was dit percentage gegroeid naar 90 procent. Op het moment dat kinderen met Downsyndroom beginnen met het produceren van de eerste woorden zet deze ontwikkeling zich gestaag voort. Deze vroegtijdige vertraging lijkt grotendeels samen te hangen met de vertraagde cognitieve ontwikkeling. De verminderde cognitieve ontwikkeling maar ook de omvang van de auditieve mogelijkheden vormen een beperking voor de woordenschatgroei. De vertraging in de

expressieve woordenschat zet zich langer voort, mogelijk zelfs tot in de adolescentie. De spreekvaardigheid neemt af bij volwassenen met Downsyndroom tussen de 50 en 70 jaar oud, tevens zijn hier dalingen in de woordenschat gerapporteerd (Roberts, Price & Malkin, 2007).

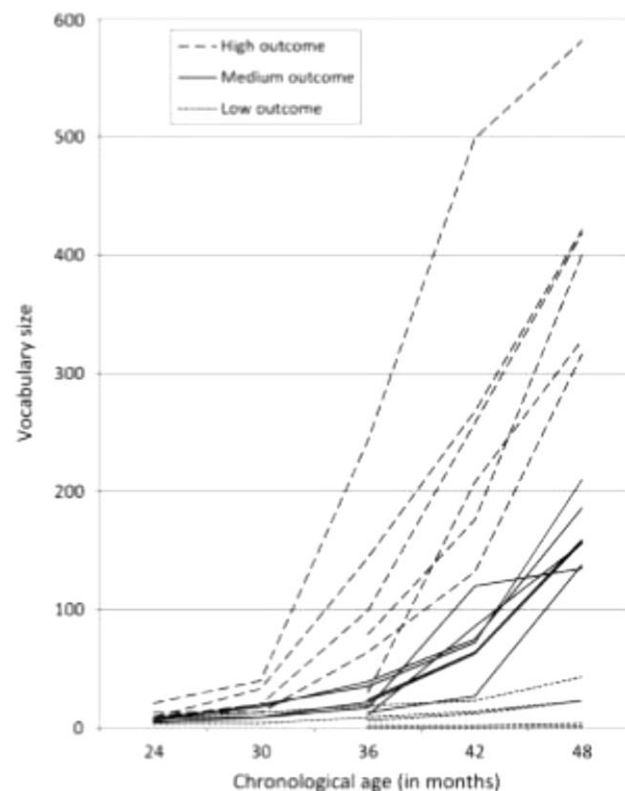
Uit het onderzoek van Berglund e.a. (2001) kwam eveneens naar voren dat de woordenschatspurt die kinderen met Downsyndroom laten zien anders is. Bij zich normaal ontwikkelende kinderen zou deze woordenschatspurt liggen rond de 18 maanden (Roberts e.a., 2007), terwijl dit bij kinderen met Downsyndroom ligt rond de 30 maanden (Zampini & D'Odorico, 2011) of soms helemaal uit blijft (Berglund e.a., 2001). Toch blijkt een exacte schatting van de leeftijd waarop deze spurt plaatsvindt lastig te maken, sommige onderzoekers veronderstellen zelfs dat de spurt pas plaatsvindt na het vijfde levensjaar. Op het moment van de spurt hebben de kinderen met Downsyndroom een woordenschat ter grootte van 50 woorden. De beschreven ontwikkelingen verschillen per individu, de groep kinderen met Downsyndroom kent een grote variabiliteit op diverse niveaus in de ontwikkeling.

De actieve woordenschatontwikkeling bij kinderen met Downsyndroom is onderzocht door Zampini & D'Odorico (2013). Zij deden onderzoek bij achttien Italiaanse kinderen met Downsyndroom van twee en drie jaar oud door hen voor een periode van twee jaar ($n=10$) en een periode van één jaar ($n=8$) te volgen. Iedere zes maanden is de woordenschat van deze achttien kinderen in kaart gebracht met behulp van de Italiaanse versie van de MacArthur-Bates Communicative Development Inventories (PVB). In tabel 2.2 is terug te zien dat de grootte van de woordenschat (PVB) toeneemt naarmate de kinderen ouder worden, maar ook dat de spreiding rondom het gemiddelde toeneemt (standaarddeviatie bij PVB). Uit het onderzoek bleek geen significante relatie tussen de grootte van de woordenschat en de chronologische leeftijd. Wel bleek er sprake van een samenhang tussen de grootte van de woordenschat en de mentale leeftijd. In vergelijking met kinderen die een normale spraak- en taalontwikkeling doorlopen met eenzelfde mentale leeftijd, blijken kinderen met Downsyndroom een minder grote actieve woordenschat te hebben.

De grootte van het lexicon wordt beschouwd als een betrouwbare voorspeller voor de latere morfosyntactische vaardigheden. De ontwikkeling van de werkwoordkennis staat bekend als een belangrijke voorspeller voor de latere syntactische ontwikkeling (Loveall, Channell, Phillips, Abbeduto & Conners, 2016). Echter worden er in de literatuur tegenstrijdige beelden gerapporteerd, zo wordt door Zampini & D'Odorico (2011) aangegeven dat het lexicon geen duidelijke voorspeller is voor de eerste morfosyntactische ontwikkeling bij kinderen met Downsyndroom.

Tabel 2.2 De actieve woordenschatgrootte (PVB) en de mentale leeftijd (DA) van kinderen met Downsyndroom gepresenteerd bij chronologische leeftijd (CA) in maanden (Zampini & D’Odorico, 2013).

			<i>M</i>	<i>SD</i>	Range
24 months	(n = 10)	CA	25.00	0.82	24–26
		DA	15.90	1.52	13–18
		PVB	9.30	4.83	4–21
30 months	(n = 10)	CA	31.10	0.99	30–32
		DA	18.90	1.37	17–21
		PVB	17.90	11.18	4–40
36 months	(n = 18)	CA	36.94	0.87	36–39
		DA	20.29	3.41	12–25
		PVB	47.56	61.83	0–243
42 months	(n = 18)	CA	43.33	0.84	42–45
		DA	22.94	3.24	16–28
		PVB	116.61	127.55	0–499
48 months	(n = 18)	CA	49.00	0.84	48–50
		DA	25.28	4.24	17–30
		PVB	205.50	169.78	1–581



Figuur 2.2 De actieve woordenschatomvang in relatie tot de chronologische leeftijd van kinderen met Downsyndroom in maanden (Zampini & D’Odorico, 2013).

In figuur 2.2 zijn op basis van de woordenschatomvang van de achttien deelnemende kinderen met Downsyndroom drie groepen gevormd (Zampini & D’Odorico, 2013). De groepen zijn opgebouwd van lage naar hoge uitkomsten. Kinderen met een woordenschat kleiner dan 50 woorden vielen in de groep met lage uitkomsten, een woordenschat tussen de 100 en 250 woorden zijn gecategoriseerd als midden uitkomsten en tot slot werd de groep met hoge

uitkomsten gevormd door kinderen met een woordenschat groter dan 300 woorden. De resultaten voor elk individu zijn gepresenteerd in figuur 2.2 (Zampini & D’Odorico, 2013). Uit het figuur is op te maken dat de variatie in de woordenschatomvang toeneemt met de leeftijd, bij 48 maanden blijkt er een grote individuele variatie te zijn. De grote spreiding lijkt tot 30 maanden uit te blijven, bij kinderen met een chronologische leeftijd van 36, 42 en 48 maanden doen de grote individuele verschillen zich voor. De eerder beschreven woordenschatspurt rond de 30 maanden (Zampini & D’Odorico, 2011) is eveneens terug te zien in figuur 2.2, hier wordt de eerste spreiding in de vroege ontwikkeling van kinderen met Downsyndroom al zichtbaar. Een aantal kinderen laten een spurt zien rondom de 30 maanden, bij een aantal kinderen komt deze later op gang of lijkt soms helemaal uit te blijven.

Loveall en collegae (2016) onderzochten de receptieve woordenschat van kinderen en adolescenten met Downsyndroom en zich normaal ontwikkelende kinderen. Zij hebben de kennis getoetst wat betreft zelfstandig naamwoorden, werkwoorden en adjectieven met behulp van de vierde editie Peabody Picture Vocabulary Test (PPVT-4). Hierbij werden vier tekeningen gepresenteerd waarbij aan de deelnemers werd gevraagd om de tekening aan te wijzen die correspondeerde met het door de testleider gesproken woord. Beide groepen participanten bleken niet significant van elkaar te verschillen. Over het algemeen is de expressieve taal bij Downsyndroom sterker vertraagd dan de receptieve taal en non-verbale cognitieve vaardigheden. De receptieve woordenschat ontwikkelt zich meestal in lijn met de non-verbale mentale leeftijd (Laws & Hall, 2014). De taal is voornamelijk aangetast op gebied van spraakverstaanbaarheid, syntaxis en morfologie (Loveall e.a., 2016).

2.4.3 Morfologie en syntaxis

In de pre-linguale periode, die plaatsvindt in het eerste levensjaar, beginnen zich normaal ontwikkelende kinderen doorgaans met huilen en daaropvolgend met vocaliseren, vocaal spel en brabbelen. Over het algemeen vangt de brabbelperiode aan tussen de 7 en 9 maanden. Het ontwikkelen van twee- en meerwoordzinnen gebeurt op een gemiddelde leeftijd van 18 maanden tot 30 maanden, deze fase in de zinsontwikkeling wordt ook wel beschreven als de telegramstijlfase. De ontwikkeling van telegramstijl naar grammaticale zinnen gaat snel, op een leeftijd tussen 3 en 5 jaar worden zinnen niet alleen beter opgebouwd, ze worden ook langer, en kinderen komen tot samengestelde zinnen. In de eenvoudigste variant kunnen deze samengestelde zinnen al zeer vroeg in de ontwikkeling voorkomen met voegwoorden als *en* of *dan* (Schaerlaekens, 2008).

Syntaxis is een van de zwakste taalgebieden bij kinderen met Downsyndroom. Daarbij is de productie van syntaxis minder ontwikkeld en daarmee zwakker dan de perceptie van de syntaxis (Abbeduto e.a., 2007; Chapman e.a., 1998; Laws & Hall, 2014). Het leren van een taal vereist meer dan enkel woordenkennis. Iedere taal kent regels waarmee woorden gecombineerd kunnen worden tot zinnen om zichzelf uit te kunnen drukken. In het Nederlands komen lidwoorden en bijvoeglijk naamwoorden voor het zelfstandig naamwoord en hebben we bepaalde gebonden morfemen om de verleden tijd te markeren, er zijn echter wel uitzonderingen op deze regels.

In vergelijking met de woordenschatontwikkeling is de syntactische ontwikkeling een grotere uitdaging voor kinderen met Downsyndroom, hierbij is de expressieve ontwikkeling sterker vertraagd dan de receptieve ontwikkeling (Witecy & Penke, 2017). De verwerving van de expressieve taal gedurende de kindertijd en de adolescentie verloopt trager dan de non-verbale mentale leeftijd (Laws & Hall, 2014). Dit wordt al vroegtijdig zichtbaar bij de overgang van eenwoordzinnen naar tweewoordzinnen (Roberts e.a., 2007). Het combineren van woorden tot zinnen gebeurt bij 5 tot 10 procent van de kinderen met Downsyndroom in de leeftijd van twee tot tweeënhalf jaar. Van de kinderen die vijfeneenhalf jaar oud zijn doet 70 procent dit (Berglund e.a., 2001). Nadat de zinsproductie eenmaal op gang is gekomen produceren kinderen met Downsyndroom veelal kortere zinnen dan zich normaal ontwikkelende kinderen. In het onderzoek van Abbeduto e.a. (2007) werd gekeken naar de mean length of utterance (MLU) waaruit bleek dat de zinnen in de spontane spraak van kinderen met Downsyndroom significant eenvoudiger waren in vergelijking met de zinnen van zich normaal ontwikkelende kinderen. Tevens schrapten kinderen met Downsyndroom significant vaker functiewoorden en gebonden morfemen.

Kinderen met Downsyndroom produceren minder frequent multi-words uitingen, ze zijn in staat om woorden te combineren maar ze produceren vaak incomplete morfosyntactische zinnen. Een multi-word uiting wordt gekenmerkt door de aanwezigheid van meer dan één woord, verbonden door een semantische betekenis. Kinderen met Downsyndroom ondervinden grote moeilijkheden wanneer zij zich willen uitdrukken in correcte grammaticale zinnen. Het gemiddelde aantal multi-words uitingen is significant lager bij kinderen met Downsyndroom dan in de controlegroep in de studie van Zampini & D'Odorico (2011). Er bestaat een significante relatie tussen de ontwikkeling van het lexicon en de productie van multi-words uitingen (Zampini & D'Odorico, 2011).

De grammaticale morfemen worden in dezelfde volgorde als zich normaal ontwikkelende kinderen verworven maar kinderen met Downsyndroom ondervinden moeite met het toepassen hiervan in de spontane spraak. Het betreft hier veelal de grammaticale functiewoorden en gebonden morfemen. Kinderen met Downsyndroom produceren over het algemeen minder grammaticale werkwoorden in een uiting. Ondanks deze morfosyntactische beperkingen bereiken adolescenten met Downsyndroom niet direct een “syntactisch plafond” maar blijft de zinslengte en complexiteit tot 20 jaar doorgroeien.

2.5 Geletterdheid

2.5.1 Lezen

Vroeger werd verondersteld dat mensen met een verstandelijke beperking niet in staat waren om te leren lezen. Meer recente studies hebben uitgewezen dat deze mensen hier wel degelijk toe in staat zijn. Grofweg 80 procent van de kinderen met Downsyndroom zou in staat zijn om deze vaardigheid te ontwikkelen (De Graaf & Borstlap, 2009). De ontwikkeling van de geletterdheid is wel beperkt voor de meeste kinderen met Downsyndroom (Abbeduto e.a., 2007). Het vroegtijdig leren lezen, ongeacht het type onderwijs dat het kind volgt, kan de spraak- en taalontwikkeling stimuleren. Naast de positieve effecten van leren lezen op de spraak- en taalontwikkeling is het ook een belangrijke vaardigheid in onze huidige cultuur. Bij kinderen met Downsyndroom die op jonge leeftijd hebben leren lezen blijft de leesleeftijd dicht in de buurt van hun kalenderleeftijd. De leesvaardigheid kan zich door ontwikkelen tot in de jongvolwassenheid, er zijn ook casussen bekend die pas op die leeftijd beginnen met lezen. De uiteindelijke leesvaardigheid bij Downsyndroom varieert van vaardige lezers tot lezers met een beperkte leeswoordenschat, een leesleeftijd van groep 4 of hoger is voor veel kinderen met Downsyndroom haalbaar (De Graaf, 2001).

In tabel 2.3 wordt de leesvaardigheid van kinderen met Downsyndroom in het regulier en speciaal onderwijs weergegeven. Integratie van kinderen met het syndroom van Down in het regulier onderwijs blijkt een positief effect te hebben op het leren lezen. Uit een Engels onderzoek van Buckley, Bird, Sacks & Archer (2002) bleek dat van de 46 ondervraagde tieners, 18 regulier onderwijs hadden gevolgd. Van de 18 tieners die regulier onderwijs hadden genoten, kende iedereen de letters van het alfabet, kon 94 procent een eenvoudig boek lezen en 78 procent een stuk in de krant. Voor de tieners die speciaal onderwijs hadden gevolgd waren deze percentages aanzienlijk lager. Ongeveer 83 procent kon hun eigen naam lezen en een aantal praktische woorden die veelal in de omgeving gezien worden zoals:

dames, heren, uitgang en politie. Kijkend naar de letterkennis, kende de helft van de kinderen alle letters van het alfabet en beheerste ongeveer 41 procent daarbij de correcte klank-letterkoppeling (Buckley e.a., 2002). Het percentage voor de correcte klank-letterkoppeling voor tieners in het regulier onderwijs was aanzienlijk hoger met 94 procent. De resultaten uit het onderzoek van Buckley e.a. (2002) bevestigen dat het integreren in het regulier onderwijs wel degelijk een positief effect heeft op het leren lezen. Deze kinderen beheersen verschillende deelvaardigheden van het lezen beter dan kinderen met Downsyndroom in het speciaal onderwijs. Echter is integratie in het regulier onderwijs alleen mogelijk als ook het cognitief functioneren dit toelaat.

Tabel 2.3 Leesvaardigheid in het regulier en speciaal onderwijs van Engelstalige tieners met Downsyndroom (Buckley e.a., 2002).

Leerlingen met Downsyndroom van 11-20 jaar (N=46)	regulier geplaatst (N=18)	speciaal geplaatst (N=28)
kent de letters van het alfabet	100%	50%
Kan <i>minstens</i> eenvoudige boekjes lezen	94%	30%
Kan stukken in de krant lezen	78%	17%

In een Nederlandse studie bij 350 kinderen en adolescenten met Downsyndroom (5 tot 19 jaar) vond De Graaf (2007) op grond van een vragenlijst vergelijkbare verschillen tussen leerlingen met Downsyndroom in het regulier en speciaal onderwijs. In tabel 2.4 is zichtbaar dat van de kinderen met Downsyndroom van 10 jaar en ouder 38 procent vijf jaar of langer regulier basisonderwijs had genoten. Van deze kinderen kon 87 procent op zijn minst eenvoudige boeken lezen, 94 procent kon nieuwe woorden spellend lezen en 94 procent kende alle letters van het alfabet. De leerlingen die alle jaren in het speciaal onderwijs hadden gezeten, of voor groep 4 naar het speciaal onderwijs waren gegaan lieten lagere percentages met betrekking tot de leesvaardigheid zien. De percentages komen grotendeels overeen met de Engelstalige studie van Buckley e.a. (2002).

Tabel 2.4 Leesvaardigheid in het regulier en speciaal onderwijs van Nederlandstalige kinderen en adolescenten met Downsyndroom (De Graaf, 2007).

Leerlingen met Downsyndroom van 10 -19 jaar	minstens tot in groep vier in het regulier onderwijs gezeten (N=71; 38%)	voor groep vier op ZML geplaatst (N=112; 62%)
kent alle of vrijwel alle letters van het alfabet	94%	55%
Kan spellend nieuwe woorden lezen	94%	44%
Kan <i>minstens</i> boekjes van avi 1 lezen	87%	36%
Kan boeken van avi 5 en hoger lezen	56%	9%

In de uitgebreide SDS enquête die is uitgezet in 2009 is ook gevraagd of de kinderen en adolescenten de ondertiteling op de televisie enigszins of zelfs goed kunnen volgen. Uit het artikel van De Graaf & De Graaf (2011b) blijkt dat van de 13 tot 21 jarigen, 33 procent de ondertiteling een beetje kan volgen en 14 procent goed. Boven de 21 jaar wordt dit een respectievelijke 33 en 19 procent. Hierbij is het niveau van onderwijs zeer zeker van invloed, 13 tot 21 jarigen die regulier onderwijs hebben genoten scoren hier respectievelijk 77 en 41 procent en boven de 21 jaar iets lager, namelijk 60 en 40 procent. Kinderen in de leeftijd van 13 tot 21 jaar die overwegend speciaal onderwijs hebben genoten scoren aanzienlijk lager met 14 en 3 procent, dit stijgt boven de 21 jaar naar 29 en 16 procent. Een groot deel van de volwassenen met Downsyndroom kan de ondertiteling op televisie in het geheel niet, of maar deels volgen. Daarnaast blijkt uit onderzoek dat de leesvaardigheid bij kinderen met Downsyndroom toeneemt tot een jaar of dertien à veertien. Hierna lijkt de leesvaardigheid weer af te nemen. Tevens maken kinderen in het regulier onderwijs een snelle spurt in de leesontwikkeling tussen de zes en negen jaar. Leesvaardige volwassenen lijken het plezier van lezen te verliezen met de jaren als gevolg van een te gering aanbod van verhalen die passen bij hun denk- en leefwereld en daarbij niet te kinderachtig zijn (De Graaf & De Graaf, 2011b).

2.5.1.1 Leesonderwijs

Sinds de jaren tachtig starten kinderen met Downsyndroom steeds vaker in het regulier onderwijs. Ouders verwachten verschillende voordelen voor de ontwikkeling van hun kind naast de bijkomende ethische en sociale redenen. Ouders nemen aan dat regulier onderwijs leidt tot een betere ontwikkeling van taal en schoolse vaardigheden. Uit onderzoek van De Graaf, Van Hove & Haveman (2013) blijkt dat kinderen die 3,5 of 4,5 jaar regulier onderwijs

hebben gevolgd meer vooruit zijn gegaan op gebied van leesvaardigheid dan kinderen die in diezelfde periode korter of helemaal niet op een reguliere school hebben gezeten. Regulier geplaatste kinderen met Downsyndroom leren meer op gebied van lezen dan kinderen die in het speciaal onderwijs zijn geplaatst. De ontwikkeling van de leesvaardigheid is niet een direct gevolg van de schoolplaatsing. De leesvaardigheid wordt ook beïnvloed door onder andere het cognitief functioneren en de taalvaardigheden. Toch konden de meer ontwikkelde leesvaardigheden uit het onderzoek van De Graaf, Van Hove & Haveman (2013) in 2010 in vergelijking met de vaardigheden in 2006, niet alleen verklaard worden door de verschillen in het cognitief functioneren. Er is dus wel degelijk sprake van een gunstig effect van regulier onderwijs op de leesontwikkeling bij kinderen met Downsyndroom. Aanvullend onderzoek toonde aan dat kinderen met een hoger IQ meer kans hadden om langer regulier onderwijs te volgen. Het onderzoek liet tevens zien dat de kinderen die zijn doorverwezen naar het speciaal onderwijs minder snel vooruitgingen op het gebied van leesvaardigheid dan de kinderen die nog in het regulier onderwijs zaten.

2.5.1.2 *Leren lezen om te leren spreken*

Ondanks verminderde fonologische vaardigheden zijn kinderen met Downsyndroom relatief goed in woordherkenning. Zij vertrouwen meer op de hele woordherkenning of visuele orthografische processen tijdens het lezen van woorden. Kinderen met Downsyndroom profiteren hiervan door te lezen op basis van hele woordherkenning maar zouden meer generaliseerbare vaardigheden ontwikkelen op basis van analytische instructies (Abbeduto e.a., 2007). Een studie van Buckley & Bird (1993) toonde aan dat leren lezen een positief effect heeft op de spraakontwikkeling. Het onderzoek bestond uit twee identieke condities, waarbij fotokaarten werden voorgelegd aan de kinderen. In een conditie werd deze foto ondersteund door het toevoegen van een zin. Uit de studie bleek dat kinderen twee keer zo snel leerden in de conditie waaraan de zin was toegevoegd. Mogelijke verklaring hiervoor was dat kinderen niet in staat zijn om de zinnen te onthouden en te herhalen wanneer ze het alleen auditief aangeboden krijgen. Dit zou komen door een zeer slecht auditief geheugen.

De spraak van kinderen met Downsyndroom gaat door middel van leren lezen op jonge leeftijd enorm vooruit. De grootste reden voor deze vooruitgang lijkt te liggen in het gegeven dat kinderen met Downsyndroom opvallend goed ontwikkelde visuele vaardigheden hebben, terwijl de auditieve vaardigheden juist zwak zijn (Buckley & Bird, 1993). Visuele vaardigheden zijn deelvaardigheden die het kind in staat stellen om visueel aangeboden informatie te herkennen. Wanneer het lezen wordt ingezet op vrij jonge leeftijd, verbetert de

articulatie en daarmee de verstaanbaarheid. De actieve woordenschat wordt vergroot en de auditieve vaardigheden verbeteren. Tot slot neemt ook het kortetermijngeheugen toe. De meeste kinderen met Downsyndroom ontwikkelen uiteindelijk een leesvaardigheid die vergelijkbaar is met zich normaal ontwikkelende kinderen in groep 4. Bij benadering zou 60 tot 80 procent dit leesniveau halen (Buma & Beesems, 2005). Op latere leeftijd blijkt de leesvaardigheid van grote waarde te zijn voor de cognitieve ontwikkeling. Kinderen die al op jonge leeftijd hebben leren lezen scoren beter dan niet lezende leeftijdsgenoten. Zij hebben een grotere woordenschat, een betere grammatica en een groter werkgeheugen.

In Nederland wordt veelal de, door Hedianne Bosch ontwikkelde, methodiek *Leespraat* gehanteerd, hierbij gaat de ontwikkeling van praten en lezen hand in hand. Het visueel aanbieden van letters, woorddelen en woorden staat hierbij centraal. In het programma wordt rekening gehouden met de problemen die zich voordoen in de auditieve verwerking bij kinderen met Downsyndroom. Het is niet belangrijk om auditief sterk te zijn, een kind hoeft niet te kunnen ‘hakken en plakken’ (auditieve synthese) of te kunnen horen of een woord rijmt. Het is belangrijk dat het kind in staat is om het woord visueel te analyseren in woorddelen, en de bekende stukjes te herkennen in nieuwe woorden. Volwassenen passen deze strategie ook toe, het verklanken van letters gebeurt zelden en alleen bij onbekende lettercombinaties (Bosch, 2012). Uit een grote enquête blijkt dat van de 430 ondervraagde ouders van kinderen van twee jaar of ouder, 20 procent veel gebruik heeft gemaakt van het principe ‘leren lezen om te praten’ (De Graaf & De Graaf, 2011b). Daartegenover staat een percentage van 47 procent die hier geheel geen gebruik van heeft gemaakt. Kinderen die al vroegtijdig met deze methodiek gestart zijn, starten vaker in het regulier onderwijs. Ook hebben deze kinderen een grotere kans om na plaatsing in het regulier onderwijs meer jaren onderwijs aldaar te blijven volgen. Dit kan mede veroorzaakt worden door de actieve inzet van de ouders. In Nederland doorloopt grofweg een kwart van alle kinderen met Downsyndroom de gehele reguliere basisschool (De Graaf & De Graaf, 2011b). Een langere reguliere schoolloopbaan blijkt samen te gaan met een veel betere leesontwikkeling, en in mindere mate ook een betere spraakontwikkeling.

2.5.2 Schrijven

Schrijven is een complexe taak waarbij cognitieve, linguïstische en motorische vaardigheden samen komen. Cognitieve vaardigheden zijn vereist op gebied van planning en revisie van de schrijfbewegingen. Binnen het schrijfproces zijn drie linguïstische niveaus te onderscheiden namelijk: grafeemniveau, woordniveau en zinsniveau. In de bestaande literatuur wordt weinig

over het schrijven bij kinderen met Downsyndroom gerapporteerd. De schrijfvaardigheid zou iets lager liggen dan de leesvaardigheid bij kinderen met Downsyndroom en nagenoeg overeenkomen met de mentale leeftijd. Er bestaat een significant positief verband tussen fonologisch bewustzijn en de schrijfvaardigheid. Fonemisch bewustzijn lijkt alleen aanwezig wanneer de schrijfvaardigheid is ontwikkeld (Varuzza, De Rose, Vicari & Menghini, 2015). De schriftelijke taalverwerving is een proces dat secundair loopt aan de mondelinge taalverwerving. Het kind leert eerst spreken en pas later lezen en schrijven, niet helemaal toevallig dat men hiermee begint rond het zesde levensjaar op een moment dat de gesproken taal als basis voldoende ontwikkeld is (Schaerlaekens, 2008).

Kinderen moeten aangemoedigd worden om al op jonge leeftijd te leren schrijven. Zij starten met het volgen van woorden en zinnen met oogbewegingen ondersteund door de vinger die de beweging volgt. Vervolgens zullen zij deze woorden en zinnen gaan kopiëren. Tot slot zal er een start gemaakt worden met het vrijuit schrijven. Op het moment dat kinderen woorden kunnen lezen, is het ook mogelijk om een zin te schrijven. Bij aanvang zal voornamelijk het schriftbeeld van een ander geïmiteerd worden. Uit een studie van Buckley e.a. (2002) bleek dat 90 procent letters en woorden kon kopiëren en nagenoeg iedereen kon zijn of haar naam schrijven. Van de leerlingen in het regulier onderwijs kon 94 procent hun achternaam schrijven, 83 procent een simpele zin en 61 procent kon het eigen adres, een korte boodschap, eenvoudig verhaal en een korte brief schrijven. De leerlingen in het speciaal onderwijs ondervonden meer moeite met deze deelvaardigheden. Hier kon 48 procent hun achternaam noteren, 30 procent een simpele zin en het eigen adres, 17 procent een korte boodschap, 4 procent een eenvoudig verhaal en bijna een kwart een korte brief. Over het geheel genomen was de schrijfvaardigheid van deze kinderen minder ontwikkeld. Het verschilt per kind waar de voorkeur aangegeven wordt.

Ondanks de mogelijkheden om te leren schrijven zijn er vragen over de kwaliteit van het (hand)schrift die kinderen met Downsyndroom kunnen bewerkstelligen. De motorische vaardigheden spelen een belangrijke rol in het schrijfproces. Deze vaardigheden zijn minder ontwikkeld dan bij normaal ontwikkelende kinderen. De verminderde controle over de betrokken spieren is van invloed op het ontwikkelen van een goed en leesbaar handschrift (Varuzza e.a., 2015). Schrijven kan veel energie vragen van deze kinderen, als alternatief wordt vaak het schrijven op een computer aangeraden. Naast lezen, is schrijven een belangrijke vaardigheid in de huidige maatschappij. Kinderen met Downsyndroom worden

minder afhankelijk van hun omgeving wanneer zij hun naam of een kleine boodschap kunnen schrijven en daarmee met hun directe en indirecte omgeving kunnen communiceren.

2.6 Conclusie

Kinderen met Downsyndroom hebben een verhoogde kans op diverse lichamelijke afwijkingen en gezondheidsproblemen waarvan hartproblematiek het meest voorkomend is. Andere afwijkingen zoals gehoorproblemen, visusproblemen en problemen met betrekking tot de motoriek kunnen negatief van invloed zijn op de spraak- en taalontwikkeling.

De spraak- en taalontwikkeling verloopt over het algemeen vertraagd in vergelijking met zich normaal ontwikkelende kinderen. Kinderen met Downsyndroom bereiken vaak eerder een eindniveau, maar meestal ook een lager eindniveau op verschillende taalgebieden. Het eerste levensjaar lijkt de spraak- en taalontwikkeling te overlappen met die van zich normaal ontwikkelende kinderen, maar naarmate de kinderen met Downsyndroom ouder worden wordt de achterstand meer zichtbaar. De eerste duidelijke verschillen lijken te ontstaan rondom de aanvang van het eerste woord. De productieve taalvaardigheden blijven sterker achter ten opzichte van de receptieve taalvaardigheden en de non-verbale cognitieve ontwikkeling. Kinderen met Downsyndroom produceren veelal kortere en eenvoudiger zinnen. Ook de verminderde articulatie en de spraakverstaanbaarheid vormen een groot probleem in de communicatie, die voor sommigen levenslang een rol zal spelen. De beperkingen worden deels ondervangen door een goed ontwikkelde non-verbale communicatie. Kinderen met Downsyndroom maken voornamelijk de eerste levensjaren veelvuldig gebruik van aangeleerde en natuurlijke gebaren. De communicatiemogelijkheden worden op een latere leeftijd uitgebreid door het leren lezen en schrijven. Hierbij zijn de leesvaardigheden vaak beter ontwikkeld.

Op diverse gebieden van de spraak- en taalontwikkeling bij kinderen en adolescenten met Downsyndroom is nog onvoldoende bekend over het verloop en worden er veel tegenstrijdigheden gerapporteerd in de literatuur. De bevindingen variëren sterk per individu. De groep kinderen met Downsyndroom kent een grote variabiliteit op diverse niveaus in de ontwikkeling.

Hoofdstuk 3 Analyse spraak- en taalvragenlijsten

3.1 Ontwikkeling spraak- en taalvragenlijsten

3.1.1 *Downteam OnderzoeksConsortium*

Het Downteam OnderzoeksConsortium (DOC) is een landelijk samenwerkingsverband dat onderzoek doet op gebied van Downsyndroom geïnitieerd door prof. dr. Esther de Vries, voormalig kinderarts in het Jeroen Bosch Ziekenhuis (JBZ) in 's-Hertogenbosch. In het DOC zijn de ouderorganisatie Stichting Downsyndroom (SDS), kinderartsen van de landelijke Downteams, AVG-artsen van Downpoli's 18+, overige (para)medische hulpverleners en onderzoekers verenigd.

Het DOC is bezig om een landelijke patiëntenregistratie op te zetten onder de naam DigiDown. Het betreft een project waarbij allerlei gegevens over de medische situatie van kinderen en volwassenen met Downsyndroom worden verzameld door zorgverleners, ouders en/of verzorgers en zo mogelijk door de mensen met Downsyndroom zelf. Het is bekend dat kinderen en volwassenen met Downsyndroom een andere ontwikkeling doorlopen dan zich normaal ontwikkelende kinderen. Daarnaast hebben zij veel bijkomende, op zich goed behandelbare aandoeningen zoals aangeboren hartafwijkingen, luchtwegproblemen en problemen met de schildklier. Er is echter over deze problematiek bij kinderen met Downsyndroom nog te weinig bekend. Het doel van het DigiDown project is om door kennisvermeerdering de kwaliteit van zorg voor kinderen en volwassenen met Downsyndroom te verbeteren. Er zijn verscheidene specialisaties ondergebracht in de landelijke patiëntenregistratie zoals kindergeneeskunde, cardiologie maar ook taal- en spraakpathologie. De bedoeling is dat jaarlijks vragenlijsten online worden uitgezet die door de ouders en/of verzorgers van kinderen met Downsyndroom worden ingevuld. Deelname aan deze landelijke patiëntenregistratie is op vrijwillige basis, ouders en/of verzorgers zullen benaderd worden via de Stichting Downsyndroom en door de downteams, die verspreid zitten door Nederland en onderzoek uitvoeren bij kinderen met Downsyndroom in de leeftijd van 0 tot 18 jaar.

3.1.2 *Taalscreeningvragenlijst bij aanvang*

In het kader van de masterscriptie van Vaillant (2013) zijn er twee digitale vragenlijsten ontwikkeld gericht op de ontwikkeling van communicatie, taal, spraak, lezen en schrijven van kinderen met Downsyndroom van 0 tot 18 jaar. Beide vragenlijsten zijn opgenomen en terug te vinden in deze masterscriptie. De vragenlijsten bestaan uit een korte en een aanvullende

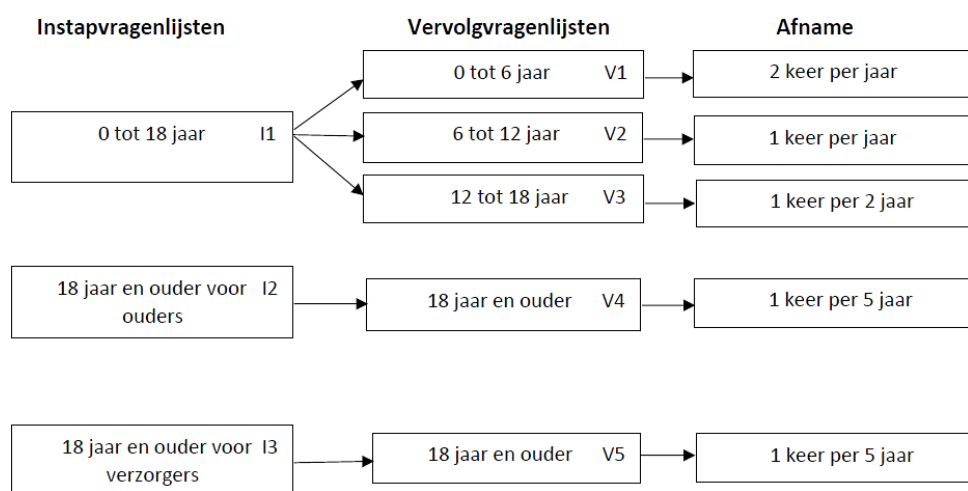
vragenlijst die de taal-, spraak-, en communicatieve ontwikkeling op een bondige manier samenvatten. In de korte vragenlijst zijn tien vragen opgenomen gericht op de volgende elementen: communicatie, luisteren, spreken, lezen en schrijven. De aanvullende vragenlijst bevat dezelfde elementen, maar hier zijn ook vragen over het geheugen aan toegevoegd. De aanvullende vragen worden toegelicht in een informatieblok, waarna de vraag volgt. De vragenlijsten zijn opgedeeld in secties, zodat de productie en de perceptie in gesproken en geschreven taal goed van elkaar onderscheiden kunnen worden. Het doel van beide vragenlijsten is het in kaart brengen van de verwerving van vaardigheden in de spraak-, taal-, en communicatieve ontwikkeling. Het geeft een beknopt overzicht van de ontwikkeling van de kinderen met Downsyndroom. Vaillant (2013) veronderstelt dat wanneer de vragenlijsten ieder jaar worden ingevuld, dit een adequaat, longitudinaal beeld van de ontwikkeling oplevert. Beide vragenlijsten sluiten aan op de literatuur betreffende de ontwikkeling in communicatie, taal, spraak, lezen en schrijven van kinderen met Downsyndroom. De vragenlijsten zijn in het najaar van 2015 voor het eerst uitgezet onder de ouders van kinderen met Downsyndroom.

3.1.3 Downvragenlijsten

Op de taalscreeningvragenlijst van Vaillant (2013) zijn destijds aanbevelingen gedaan vanuit de projectleider van DigiDown en door de ouders van de kinderen met Downsyndroom die deze vragenlijst hebben ingevuld (Sonneveld, 2016). De aanbevelingen kwamen voornamelijk van ouders van wie het kind niet of nauwelijks communiceert. Zij gaven aan dat de vragenlijst voor hen niet goed in te vullen was, waardoor er negatieve emoties bij hen werden opgeroepen. Daarnaast is de taalscreeningvragenlijst een korte vragenlijst, waardoor specifieke informatie over de spraak- en taalontwikkeling soms ontbrak. Op basis van deze aanbevelingen heeft Sonneveld (2016) drie instap- en vijf vervolgvragenlijsten ontwikkeld. In figuur 3.1 is een schematisch overzicht opgenomen van de structuur van deze Downvragenlijsten. De vragenlijsten zijn opgenomen in de masterscriptie van Sonneveld (2016). Op grond van de chronologische leeftijd van het kind/de volwassene krijgen de ouders en/of verzorgers een instapvragenlijst (I-lijst) toegestuurd. De vragenlijsten die zijn opgesteld door Sonneveld zijn gebaseerd op de bestaande literatuur, de enquêtes van De Graaf en De Graaf (2011) en op de eerdere analyses van Vaillant in haar scriptieonderzoek (2013).

De eerste instapvragenlijst (I1) richt zich op de ouders van kinderen met Downsyndroom van 0 tot 18 jaar en bestaat uit 19 vragen. De tweede instapvragenlijst (I2) van 18 jaar en ouder voor ouders bestaat uit 24 vragen. De derde instapvragenlijst (I3) voor

18 jaar en ouder voor verzorgers bestaat uit 21 vragen. De instapvragenlijsten ontwikkeld door Sonneveld bevatten meer vragen dan de oorspronkelijke vragenlijst. De instapvragenlijsten zijn ingebouwd in Research Manager. Dit softwareprogramma zorgt ervoor dat de ouder en/of verzorger naar de juiste vragen wordt doorverwezen op basis van de gekozen antwoorden. In de instapvragenlijsten zijn, net als in de eerdere twee digitale vragenlijsten van Vaillant (2013), vragen opgenomen op gebied van communicatie, spraak, taal en geletterdheid. De instapvragenlijsten inventariseren de spraak-, taal-, en communicatieve ontwikkeling van kinderen en volwassenen met Downsyndroom.



Figuur 3.1 De Downvragenlijsten opgesplitst in drie instap- (I1 t/m I3) en vijf vervolgvragenlijsten (V1 t/m V5) met de periode van toetsing (Sonneveld, 2016).

Op grond van de chronologische leeftijd van het kind/de volwassene wordt voor ouders en/of verzorgers een vervolgvragenlijst (V-lijst) geselecteerd. De vervolgvragenlijsten zijn onderverdeeld in vier leeftijdscategorieën: 0 tot 6 jaar (V1), 6 tot 12 jaar (V2), 12 tot 18 jaar (V3) en 18 jaar en ouder (V4 en V5). Net als in de instapvragenlijsten zijn de vragen gericht op de communicatie, spraak, taal en geletterdheid. Sonneveld (2016) beschrijft dat de progressie bij personen met Downsyndroom op latere leeftijd zal afnemen. Daarom worden de vervolgvragenlijsten met verschillende tijdsintervallen afgenomen. De vervolgvragenlijst van 0 tot 6 jaar wordt twee keer per jaar afgenomen omdat de meest ingrijpende periode om een taal te leren tussen de 0 en 5 jaar ligt. Vanaf 6 jaar worden de vervolgvragenlijsten minder frequent afgenomen. De vervolgvragenlijsten sluiten aan op de instapvragenlijsten maar gaan dieper in op de mijlpalen die in de taal-, spraak- en communicatieve ontwikkeling bereikt

worden. De vervolgvragenlijsten maken het mogelijk specifieke en leeftijdsgerichte vragen te stellen aan de ouders en/of verzorgers. De instapvragenlijsten van 0 tot 18 jaar en van 18 jaar en ouder voor ouders zijn voor het eerst uitgezet onder de ouders van kinderen en/of volwassenen met Downsyndroom in het najaar van 2016. Aangezien het DigiDown onderzoek pas recent van start is gegaan zijn alleen bovengenoemde instapvragenlijsten in de analyses betrokken.

3.2 Resultaten spraak- en taalvragenlijsten

3.2.1 Onderzoeksgroep

De analyses zijn gebaseerd op de resultaten afkomstig uit de taalscreeningvragenlijst (Vaillant, 2013) en uit de instapvragenlijsten ontwikkeld voor kinderen van 0 tot 18 jaar en adolescenten van 18 jaar en ouder (Sonneveld, 2016). De instapvragenlijsten vormen de basis voor de analyse. De resultaten afkomstig uit de taalscreeningvragenlijst zijn enkel verwerkt en toegevoegd voor de kinderen en adolescenten die niet hebben deelgenomen aan de instapvragenlijsten.

De instapvragenlijst van 0 tot 18 jaar is uitgezet onder 97 ouders van kinderen met Downsyndroom. Hiervan hebben 29 ouders de vragenlijst niet ingevuld. De resterende 68 kinderen (39 man) bevinden zich in een leeftijdsrange van 0 – 207 maanden ($M=71.29$, $SD=63.6$). De instapvragenlijst voor adolescenten van 18 jaar en ouder is uitgezet onder 16 ouders. In deze groep is voor twee adolescenten de vragenlijsten niet ingevuld en zijn twee adolescenten geëxcludeerd op grond van leeftijd (>40 jaar). Zij zijn geëxcludeerd omdat de kans op vroegtijdige dementie, ofwel de ziekte van Alzheimer, vanaf hier aanzienlijk toeneemt. De ziekte van Alzheimer ontwikkelt zich doorgaans voor het vijfde decennium (Roizen & Patterson, 2003). De resterende 12 adolescenten (6 man) bevinden zich in een leeftijdsrange van 223 – 387 maanden ($M=289$, $SD=57.5$).

De taalscreeningvragenlijst bij aanvang is uitgezet onder 116 ouders van kinderen met Downsyndroom. Hiervan hebben 39 ouders geen gehoor gegeven. Van de resterende 77 kinderen is voor 49 kinderen ook de instapvragenlijst van 0 tot 18 jaar ingevuld. Zoals eerder beschreven worden enkel de resultaten van de instapvragenlijst voor deze kinderen verwerkt. De resultaten van de overgebleven 28 kinderen (18 man) die enkel de taalscreeningvragenlijst bij aanvang hebben ingevuld worden meegenomen als aanvulling op de resultaten afkomstig uit de instapvragenlijsten. De 28 kinderen bevinden zich in een leeftijdsrange van 3 – 389 maanden ($M=184.61$, $SD=113.15$).

In tabel 3.1 zijn de achtergrondvariabelen samengevat van de deelnemende kinderen aan de DigiDown patiëntenregistratie ($n=108$). De achtergrondvariabelen zijn opgesplitst in twee groepen gebaseerd op de taalscreeningvragenlijst en de instapvragenlijsten. Er zijn vier leeftijdsgroepen gevormd op basis van de leeftijdsgroepen die zijn gehanteerd voor de vervolgvragenlijsten. De groep kinderen tot 2 jaar is apart genomen omdat een kind met Downsyndroom pas rond zijn tweede levensjaar begint met spreken. Hiervoor vindt de communicatie voornamelijk non-verbaal plaats. De resultaten van de vragenlijsten zijn samengevoegd in de analyses. De vier leeftijdsgroepen worden wel gehanteerd.

Tabel 3.1 Achtergrondvariabelen van de kinderen met Downsyndroom gepresenteerd voor de drie vragenlijsten ($n=108$): taalscreeningvragenlijst, instapvragenlijst 0 tot 18 jaar en de instapvragenlijst 18 jaar en ouder.

Taalscreeningvragenlijst bij aanvang (<i>n</i> =28)				Instapvragenlijst 0 tot 18 jaar (<i>n</i> =68) en 18 jaar en ouder (<i>n</i> =12)			
Leeftijdscategorie	Geslacht		Totaal	Leeftijdscategorie	Geslacht		Totaal
	Man	Vrouw			Man	Vrouw	
0 – 2 jaar	1	0	1	0 – 2 jaar	15	10	25
2;1 – 6 jaar	3	2	5	2;1 – 6 jaar	6	6	12
6;1 – 12 jaar	4	0	4	6;1 – 12 jaar	9	12	21
12;1 – 18 jaar	4	2	6	12;1 – 18 jaar	9	1	10
18 jaar en ouder	6	6	12	18 jaar en ouder	6	6	12
Totaal	18	10	28	Totaal	45	35	80

3.2.3 Communicatie

De wijze van communiceren van het kind met de ouder en omgekeerd vormt een belangrijk aspect in de drie spraak- en taalvragenlijsten. De vragen gericht op de communicatie betreft twee vragen met meerdere keuzemogelijkheden waardoor de totaalscores groter zijn dan het totaal aantal respondenten. De resultaten opgenomen in tabel 3.2 en 3.3 zijn afkomstig uit de drie vragenlijsten. Het aantal keuzemogelijkheden was niet voor iedere vragenlijst gelijk, hierdoor kan het aantal respondenten per keuzemogelijkheid variëren. In de analyses wordt het aantal gegeven antwoorden aangeduid worden met k .

De antwoorden op de vragen over communicatie zijn in drie tabellen samengevat. In tabel 3.2 wordt de communicatiewijze van het kind met de ouder gepresenteerd. In tabel 3.3 de communicatiewijze van de ouder met het kind en in tabel 3.4 wordt het gedrag in kaart gebracht dat het kind toont op het moment dat er sprake is van miscommunicatie. In tabel 3.2 is het totaal aantal antwoorden $k=108$. De optie voor het maken van oogcontact was enkel beschikbaar in de instapvragenlijst 0 tot 18 jaar ($k=68$), de keuzemogelijkheid voor geen

communicatie was alleen mogelijk in beide instapvragenlijsten ($k=80$) en tot slot was de optie houding/aanraking enkel beschikbaar in de taalscreeningvragenlijst en in de instapvragenlijst 0 tot 18 jaar ($k=96$).

In tabel 3.2 is te zien dat non-verbale communicatie voornamelijk plaatsvindt in de leeftijd van 0 tot 2 jaar. De communicatie verloopt door het inzetten van natuurlijke maar ook aangeleerde gebaren (53.8%), lichaamshouding/aanraking (76.9%) en het maken van oogcontact (76.9%). Ruim 40 procent van deze kinderen gebruikt gesproken taal tijdens de communicatie. Bij een kind is er (nog) geen sprake van communicatie, het gaat hier om een meisje van 5 maanden oud. Haar ouders zetten tijdens de communicatie veelal natuurlijke gebaren in en maken oogcontact met hun dochter. Het kind maakt zelf kenbaar contact te willen leggen door aanhankelijk te worden of te huilen. Deze ouders hebben de rest van de instapvragenlijst 0 tot 18 jaar niet ingevuld, het totaal voor de verdere analyses wordt hierdoor $k=107$.

Naarmate de kinderen ouder worden neemt het belang van gesproken taal toe tot een leeftijd van 12 jaar, tot in de adolescentie neemt de communicatie via gesproken taal geleidelijk aan weer enigermate af. Voor zeven personen van 12 jaar en ouder is aangegeven dat zij niet spreken (leeftijdssrange 14;6 tot 32;4 jaar). Zij communiceren door het inzetten van aangeleerde en natuurlijke gebaren, houding en aanrakingen. Daarentegen zetten de ouders van deze zeven kinderen allemaal gesproken taal in tijdens de communicatie met ondersteunende non-verbale communicatie.

Tabel 3.2 Wijze van communiceren door het kind met Downsyndroom met zijn/haar ouder op basis van de drie spraak- en taalvragenlijsten in percentages ($k=108$).

Type communicatie	Leeftijdscategorieën				
	0 tot 2 jaar	2;1 tot 6 jaar	6;1 tot 12 jaar	12;1 tot 18 jaar	18 jaar en ouder
Gesproken taal	42.3	70.6	96.0	87.5	83.3
Aangeleerde gebaren	53.8	82.4	44.0	18.8	4.2
Natuurlijke gebaren	53.8	58.8	44.0	31.2	25.0
Plaatjes/pictogrammen	7.7	5.9	8.0	6.3	8.3
Geschreven taal	-	-	4.0	-	16.7
Houding/aanraking ($k=96$)	76.9	58.8	44.0	37.5	41.7
Geen communicatie ($k=80$)	8.0	-	-	-	-
Oogcontact ($k=68$)	76.9	58.3	52.4	20.0	-

Opvallend is het hoge percentage voor aangeleerde gebaren in de leeftijd van 0 tot 6 jaar oud. De kinderen lijken voor een korte periode veelvuldig gebruik te maken van deze gebaren. In de groep van 2 tot 6 jaar is het gebruik van aangeleerde gebaren zelfs gestegen tot ruim tachtig procent. De hoge percentages zijn ook, in diezelfde leeftijdsgroep, zichtbaar in de communicatie van de ouders met het kind (zie tabel 3.3). Het starten van logopedische therapie op jonge leeftijd zou hier een verklaring voor kunnen zijn. Naarmate de kinderen ouder worden nemen de percentages van de aangeleerde gebaren af. Dit verloop is voor zowel het kind als voor de ouder nagenoeg hetzelfde. Ondanks dat het lees- en schrijfonderwijs in Nederland doorgaans vanaf 6 jaar wordt aangeboden, zetten kinderen deze manier van communiceren nauwelijks en pas op latere leeftijd in. Opvallend is dat onder de kinderen tussen de 12 tot 18 jaar geen enkele keer de schriftelijke vaardigheden worden ingezet.

De communicatie van de ouder richting het kind met Downsyndroom is eveneens in kaart gebracht. De resultaten zijn samengevat in tabel 3.3. Nagenoeg alle ouders zetten gesproken taal in tijdens de communicatie. Voor vier kinderen, waarvan één >18 jaar, wordt er een ander communicatiekanaal ingezet. Deze ouders ($k=4$) communiceren met behulp van natuurlijke (75%) en aangeleerde gebaren (100%), pictogrammen (50%) maar ook houding/aanraking (75%) en oogcontact (75%). Geschreven taal wordt door ouders eerder ingezet maar niet frequent. Een kwart van de ouders zet schriftbeeld in tijdens de communicatie met een kind tussen de 12 en 18 jaar oud. Dit percentage neemt echter in de adolescentie weer af. Het inzetten van non-verbale communicatie is bij jonge kinderen hoog maar neemt geleidelijk weer af naarmate de kinderen ouder worden. Het maken van oogcontact wordt niet gebruikt tijdens de communicatie met adolescenten en ook het inzetten van aangeleerde gebaren is nihil (4.2%).

Tabel 3.3 Wijze van communiceren door de ouder met zijn/haar kind met Downsyndroom op basis van de drie spraak- en taalvragenlijsten in percentages ($k=108$).

Type communicatie	Leeftijdscategorieën				
	0 tot 2 jaar	2;1 tot 6 jaar	6;1 tot 12 jaar	12;1 tot 18 jaar	18 jaar en ouder
Gesproken taal	96.2	88.2	100.0	100.0	95.8
Aangeleerde gebaren	80.7	82.4	32.0	12.5	4.2
Natuurlijke gebaren	80.7	52.9	44.0	20.0	29.2
Plaatjes/pictogrammen	3.8	17.6	12.0	12.5	16.7
Geschreven taal	7.7	5.9	8.0	25.0	16.7
Houding/aanraking	88.5	58.8	40.0	43.8	33.3
($k=96$)					
Oogcontact ($k=68$)	88.0	66.7	57.14	30.0	-

Aansluitend is aan de ouders ($n=95$) gevraagd het gedrag te karakteriseren dat het kind laat zien op het moment dat er sprake is van miscommunicatie. Het betreft een vraag met meerdere antwoordmogelijkheden ($k=126$). In tabel 3.4 is af te lezen dat kinderen en adolescenten met Downsyndroom zeer divers gedrag tonen op het moment dat zij niet begrepen worden. Ruim de helft van de kinderen probeert de boodschap op een andere manier duidelijk te maken wanneer er sprake is van miscommunicatie en ruim 40 procent van de kinderen wordt boos.

Tabel 3.4 Overzicht gedragsverschijnselen van kinderen met Downsyndroom op het moment van miscommunicatie ($k=126$).

	Aantal kinderen
Geen communicatieproblemen	8
Geeft geen reactie	6
Boodschap op een andere manier duidelijk maken	50
Trekt zich terug	7
Wordt boos	40
Wordt verdrietig	15

Opmerkelijk zijn de acht kinderen waarvoor is aangegeven dat zij geen problemen ondervinden. Deze acht kinderen bevinden zich in een leeftijdsrange van 2 – 308 maanden ($M=82.7$, $SD=134.8$). De helft van deze kinderen spreekt (nog) niet, zij communiceren non-verbaal door het inzetten van natuurlijke en aangeleerde gebaren, houding en aanrakingen. De andere vier kinderen zetten naast non-verbale communicatie ook gesproken taal in. De beheersing van de gesproken taal en de non-verbale vaardigheden zal zodanig zijn dat zij op dit moment geen communicatieproblemen ondervinden.

3.2.4 *Spraak*

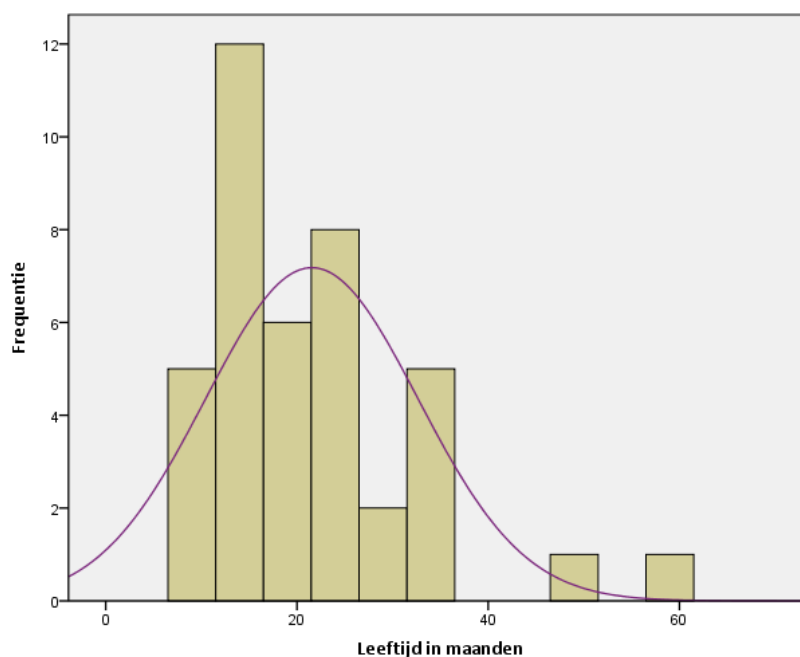
Het al dan niet spreken door de kinderen met Downsyndroom is weergegeven in tabel 3.5. Hieruit is op te maken dat 28 kinderen (nog) niet spreken. Ruim driekwart van de niet-sprekende kinderen bevindt zich in de leeftijd van 0 tot 6 jaar. De ouders van twee kinderen hebben de vraag niet ingevuld en voor een kind was de vraag niet van toepassing omdat dit kind, zoals in de vorige paragraaf beschreven, (nog) niet communiceert. In de taalscreeningvragenlijst ($k=28$) konden ouders alleen kiezen uit ja of nee, in de vernieuwde instapvragenlijst is ook de keuze voor beperkt spreken opgenomen.

Tabel 3.5 Overzicht van het al dan niet spreken van kinderen met Downsyndroom ($k=93$).

Leeftijdscategorie	Praten		
	Ja	Ja, maar beperkt	Nee
0 tot 2 jaar	-	9	15
2;1 tot 6 jaar	2	8	7
6;1 tot 12 jaar	15	8	1
12;1 tot 18 jaar	10	4	2
18 jaar en ouder	9	-	3
Totaal	36	29	28

Opvallend is dat er in iedere leeftijdsgroep kinderen zijn die niet of maar beperkt spreken. Een kwart van de adolescenten spreekt niet maar communiceert non-verbaal met zijn/haar omgeving. Ook is op te maken dat ouders in de vernieuwde vragenlijst veelal voor de optie ‘ja, maar beperkt’ hebben gekozen, het gaat hier om ruim 40 procent. Hiermee lijkt het een belangrijke toevoeging aan de vraag waardoor ouders beter de communicatie van hun kind kunnen beschrijven.

De leeftijd waarop het kind met Downsyndroom begint met spreken is onder alle ondervraagden ($k=107$) gemiddeld hoger en zeer divers ten opzichte van zich normaal ontwikkelende kinderen. Van de ondervraagden waren 40 ouders in staat de leeftijd te benoemen waarop het kind begon met spreken. Opvallend is de grote leeftijdsrange van 9 tot 60 maanden ($M=21.6$, $SD=11.1$). In de literatuur worden zeer uiteenlopende leeftijden voor het eerst woord vermeld bij zich normaal ontwikkelende kinderen, ongeveer van acht maanden tot 18 maanden (Schaerlaekens, 2008). Gemiddeld genomen spreken zich normaal ontwikkelende kinderen hun eerste woordje rondom het eerste levensjaar en is dit bij kinderen met Downsyndroom later met een gemiddelde leeftijd van 21 maanden (Roberts e.a., 2007). Uit de eerder besproken online SDS enquête van De Graaf & De Graaf (2011b) bleek dat de helft van de kinderen rond de 20 maanden het eerste woordje zegt en 90 procent bij 50 maanden. De bevindingen van de Graaf & De Graaf komen overeen met de gegevens gepresenteerd in figuur 3.2, waarin te zien is dat ruim de helft van de kinderen het eerste woordje rond de 20 maanden spreekt en 97.5 procent bij 50 maanden. Woorden als mama, papa, opa, oma en namen van (huis)dieren zijn volgens de ouders veelal de woorden die als eerst worden gezegd.



Figuur 3.2 Verdeling van de kinderen met Downsyndroom voor de leeftijd (in maanden) waarop zij het eerste woord spraken ($k=40$).

In alle drie de spraak- en taalvragenlijsten is aandacht geschonken aan het taalbegrip van een kind met Downsyndroom voor uitingen gesproken door zowel de ouders als door derden. De resultaten zijn met elkaar vergeleken met behulp van paired samples t-tests. Op de taalscreeningvragenlijst bij aanvang zijn de categorieën van zeer moeizaam tot uitstekend genummerd van één tot vijf: zeer moeizaam (1), moeizaam (2), redelijk (3), goed (4) en uitstekend (5). Op de instapvragenlijsten zijn andere categorieën gehanteerd, deze zijn eveneens genummerd van één tot vijf: niet (1), slecht (2), redelijk (3), goed (4) en uitstekend (5). De uitkomsten van de paired samples t-test waarin ouders met derden vergeleken worden zijn samengevat in tabel 3.6.

Tabel 3.6 Overzicht uitkomsten paired samples t-tests op gebied van taalbegrip van het kind met Downsyndroom van de uitingen gesproken door ouders en derden.

Taalbegrip van het kind bij een uiting van de gesprekspartner	Ouders		Derden		t	p
	M	SD	M	SD		
Taalscreeningvragenlijst bij aanvang ($k=20$)	3.6	0.95	3.1	0.99	2.127	0.047
Instapvragenlijst 0 tot 18 jaar ($k=62$)	3.7	0.7	3.4	0.88	4.274	<0.001
Instapvragenlijst 18 jaar en ouder ($k=11$)	3.7	0.65	3.3	0.79	2.887	0.016

In tabel 3.6 is af te lezen dat het taalbegrip van het kind met Downsyndroom van de uitingen gesproken door ouders en derden over het algemeen als redelijk wordt gekarakteriseerd. Uit

de paired samples t-test blijkt dat kinderen met Downsyndroom de uitingen van een ouder gemiddeld genomen beter begrijpen dan de uitingen van derden. Deze gevonden verschillen zijn voor alle drie de spraak- en taalvragenlijsten significant. Ouders karakteriseren het taalbegrip van het kind vaker als uitstekend en minder frequent als (zeer) moeizaam bij een uiting van zichzelf, in vergelijking met een uiting van derden.

3.2.5 *Spraakverstaanbaarheid en begrijpelijkheid*

Op gebied van spraakverstaanbaarheid zijn twee vragen gesteld. Hierin is gevraagd naar de spraakverstaanbaarheid van het kind voor de ouders en voor derden. De resultaten zijn samengevat en worden gegeven in tabel 3.7. Kinderen en adolescenten met Downsyndroom zijn gemiddeld genomen redelijk te verstaan voor zowel de ouders als de indirecte omgeving. Ouders karakteriseren de verstaanbaarheid vaker als goed wat hen zelf betreft. Daarentegen bestempelen zij de verstaanbaarheid van hun kinderen minder vaak als moeizaam en geen enkele keer als zeer moeizaam. Dat wordt vaker gerapporteerd voor personen van buiten het gezin die wellicht het kind onvoldoende kennen om de spraak goed te kunnen verstaan. Uit de uitgevoerde paired samples t-tests (zie tabel 3.7) blijkt dat de verstaanbaarheid van het kind voor ouders gemiddeld genomen beter is dan de verstaanbaarheid voor derden.

Tabel 3.7 Overzicht uitkomsten paired samples t-tests op het gebied van de spraakverstaanbaarheid van het kind met Downsyndroom voor ouders en derden.

Spraakverstaanbaarheid van het kind voor de gesprekspartner	Ouders		Derden		t	p
	M	SD	M	SD		
Taalscreeningvragenlijst bij aanvang (k=20)	3.2	0.59	2.6	0.83	4.485	<0.001
Instapvragenlijst 0 tot 18 jaar (k=62)	3.6	0.62	2.8	0.69	8.324	<0.001
Instapvragenlijst 18 jaar en ouder (k=11)	3.7	0.65	2.8	0.75	5.590	<0.001

Het is bekend dat problemen in de spraakverstaanbaarheid al vroegtijdig optreden bij kinderen met Downsyndroom. De spraakverstaanbaarheid is veelal onder niveau waardoor de effectiviteit van de communicatie met directe en indirecte omgeving afneemt. Uit een studie van Kumin (1994) werd door ouders aangegeven dat kinderen meer moeite hebben om verstaan te worden door mensen uit hun indirecte omgeving. Waar de spraakverstaanbaarheid bij zich normaal ontwikkelende kinderen bij 48 maanden veelal als goed wordt bestempeld (Roberts e.a., 2007), blijkt uit de resultaten afkomstig uit de drie spraak- en taalvragenlijsten dat dit nog grotendeels als redelijk wordt ervaren bij kinderen en adolescenten met Downsyndroom. Zoals eerder beschreven in hoofdstuk 2 kan de spraakverstaanbaarheid

beïnvloed worden door diverse factoren als fonologische processen, moeilijkheden in de oraal-motorische planning maar ook in de stemkwaliteit.

Het is aannemelijk dat wanneer de spraakverstaanbaarheid beperkt is de effectiviteit van de communicatie afneemt. Aan de ouders is ook gevraagd de begrijpelijkheid van de boodschap van hun kind met Downsyndroom te karakteriseren. De resultaten zijn samengevat in tabel 3.8. Alle leeftijdscategorieën samen genomen laten zien dat een ouder de uiting van het kind met Downsyndroom gemiddeld genomen beter begrijpt dan een derde ($p < 0.001$). Onbekend is of hier de begrijpelijkheid van de uiting beoordeeld is op enkel de gesproken taal of dat daarnaast ook de (ondersteunende) non-verbale communicatie is meegenomen. De scores voor zowel de spraakverstaanbaarheid als de begrijpelijkheid van een kind met Downsyndroom liggen dicht bij elkaar. Dit geldt voor zowel de ouder(s) als voor derden. Zoals eerder weergegeven in tabel 3.2 blijkt dat voor alle leeftijdscategorieën ruim de helft van de communicatie non-verbaal verloopt tussen het kind met Downsyndroom en zijn/haar ouder. Naarmate het kind ouder wordt betreft de non-verbale communicatie een meer ondersteunende functie van de gesproken taal.

Tabel 3.8 Overzicht uitkomsten paired samples t-tests op het gebied van de begrijpelijkheid van het kind met Downsyndroom voor ouders en derden.

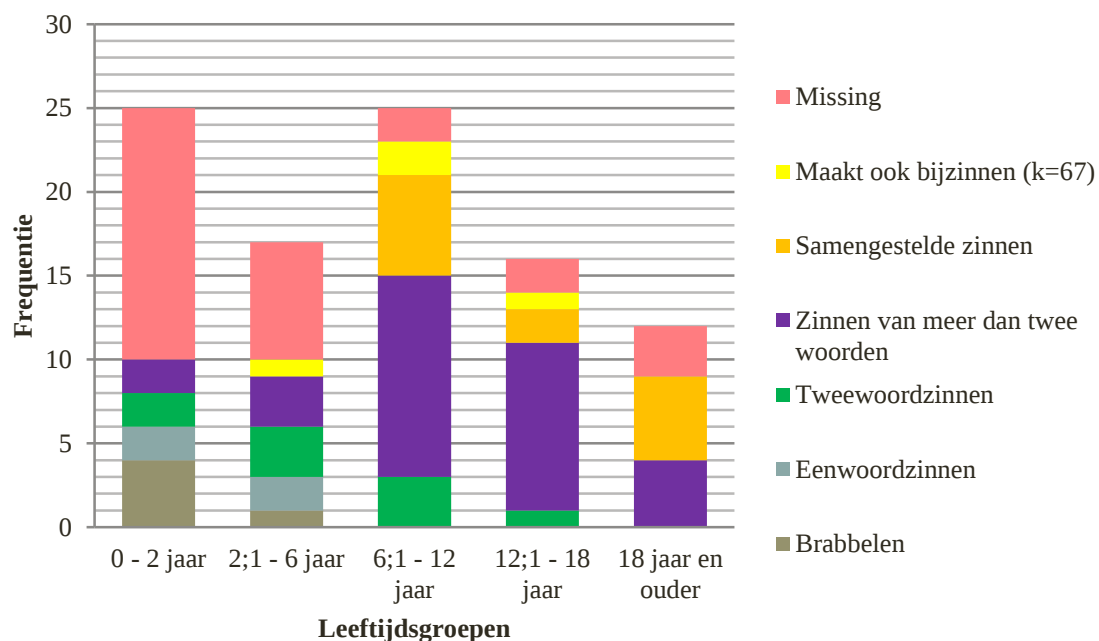
Begrijpelijkheid van het kind voor de gesprekspartner	Ouders		Derden		t	p
	M	SD	M	SD		
Taalscreeningvragenlijst bij aanvang ($k=20$)	3.6	0.60	2.7	0.81	7.025	<0.001
Instapvragenlijst 0 tot 18 jaar ($k=62$)	3.8	0.59	2.8	0.68	11.242	<0.001
Instapvragenlijst 18 jaar en ouder ($k=11$)	3.6	0.67	2.7	0.65	5.590	<0.001

3.2.6 *Syntaxis*

De zinsontwikkeling is in kaart gebracht door aan ouders te vragen wat voor een soort zinnen het kind formuleert. In figuur 3.3 en tabel 3.9 wordt een indicatie van de zinsontwikkeling van de kinderen met Downsyndroom die deel hebben genomen aan de taalscreeningvragenlijst en de instapvragenlijst van 0 tot 18 jaar weergegeven ($k=95$). De resultaten voor adolescenten op de instapvragenlijst 18 jaar en ouder ($k=12$) zijn apart gepresenteerd in figuur 3.4 omdat de ouders hier andere keuzemogelijkheden hadden om de zinsontwikkeling te karakteriseren.

In figuur 3.3 is te zien dat in de eerste levensfase tot 2 jaar voornamelijk het brabbelen en een- en tweewoordzinnen naar voren komen. Twee kinderen lijken al een zin van meer dan twee woorden te produceren. Dit lijkt overeen te komen met de eerder beschreven literatuur. Kinderen die vijfeneenhalf jaar oud zijn zouden ongeveer in 70 procent van de gevallen

woorden combineren tot zinnen, dat wil zeggen tot tweewoordzinnen of wellicht samengestelde zinnen (Roberts e.a., 2007). Uit figuur 3.3 kunnen we opmaken dat een tiende van de kinderen tot 6 jaar in zinnen van minstens twee woorden lang spreekt. Dit zou betekenen dat kinderen met Downsyndroom hier een tragere ontwikkeling doorlopen. Uit de SDS enquête van De Graaf & De Graaf (2011b) blijkt dat de helft van de kinderen op een leeftijd van 4 jaar en 8 maanden zinnen maakt van meer dan twee woorden. Uit de resultaten verkregen uit de taalscreeningvragenlijst bij aanvang en de instapvragenlijst van 0 tot 18 jaar blijkt dat de kinderen met Downsyndroom dit gemiddeld later verwerven, namelijk op een leeftijd van 6 jaar en ouder. Het produceren van zinnen van meer dan twee woorden blijft tot 18 jaar de belangrijkste zinsconstructie. In tabel 3.9 is te zien dat vanaf 18 jaar en ouder het produceren van zinnen van meer dan twee woorden afneemt naar 33.3 procent. Vanaf dat moment wordt er vaker gesproken in een samengestelde zin (41.7%). Tot slot valt op dat er in alle leeftijdsgroepen tot 18 jaar nog kinderen zijn die in eenwoordzinnen spreken. Bij adolescenten vindt dit niet meer plaats. Hier spreekt een derde in zinnen van meer dan twee woorden en de overige personen spreken in samengestelde zinnen (zie figuur 3.3). Deze gegevens komen overeen met de resultaten uit de instapvragenlijst voor 18 jaar en ouder (zie figuur 3.4).

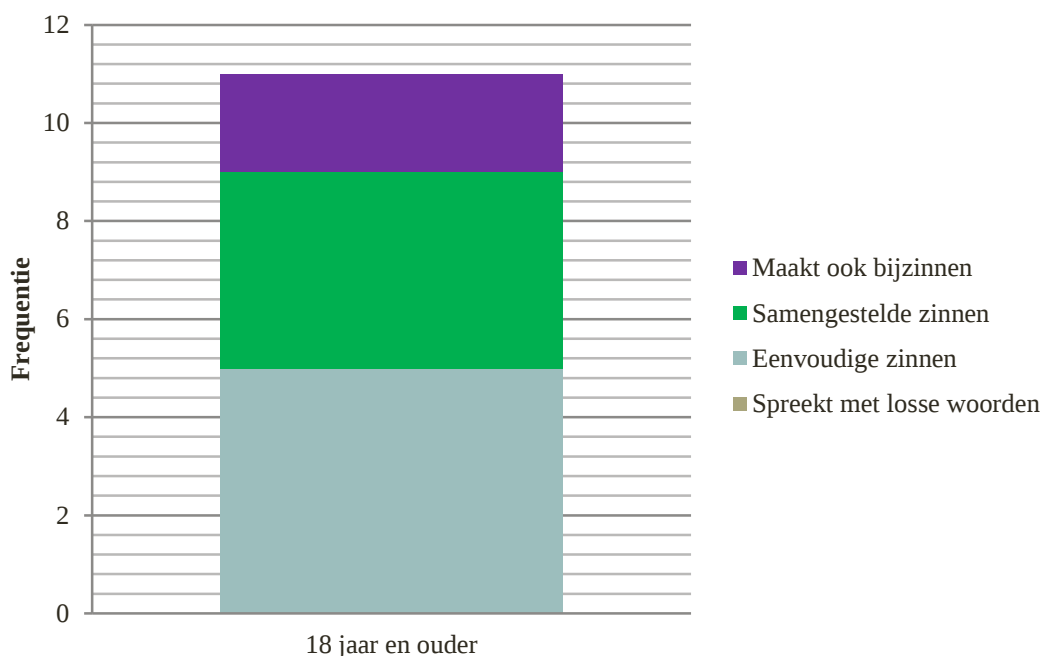


Figuur 3.3 Indicatie zinsontwikkeling per leeftijdsgroep uitgesplitst bij kinderen en adolescenten met Downsyndroom (k=95).

Naarmate de kinderen ouder worden neemt de productie van tweewoordzinnen langzaam af. Dit proces duurt langer dan bij zich normaal ontwikkelende kinderen (Abbeduto e.a., 2007). Kinderen met Downsyndroom spreken doorgaans in zinnen van meer dan twee woorden al dan niet gecombineerd tot een samengestelde zin. Ruim 40 procent van de adolescenten communiceert met behulp van samengestelde zinnen. Over de eventuele morfosyntactische beperkingen die zich voor kunnen doen bij kinderen met Downsyndroom kan op basis van deze resultaten geen uitspraak over worden gedaan.

Tabel 3.9 Indicatie zinsontwikkeling per leeftijdsgroep bij deelnemende kinderen en adolescenten met Downsyndroom aan de taalscreeningvragenlijst en de instapvragenlijst 0 tot 18 jaar ($k=95$) in percentages.

Zinsconstructies	Leeftijdscategorieën				
	0 tot 2 jaar	2;1 tot 6 jaar	6;1 tot 12 jaar	12;1 tot 18 jaar	18 jaar en ouder
Brabbelen	16.0	5.9	-	-	-
Eenwoordzinnen	8.0	11.8	-	-	-
Tweewoordzinnen	8.0	17.6	12.0	6.3	-
Zinnen van meer dan twee woorden	8.0	17.6	48.0	62.5	33.3
Samengestelde zinnen	-	-	24.0	12.5	41.7
Maakt ook bijzinnen ($k=67$)	-	5.9	8.0	6.3	-



Figuur 3.4 Indicatie zinsontwikkeling van adolescenten met Downsyndroom op de instapvragenlijst 18 jaar en ouder ($k=12$).

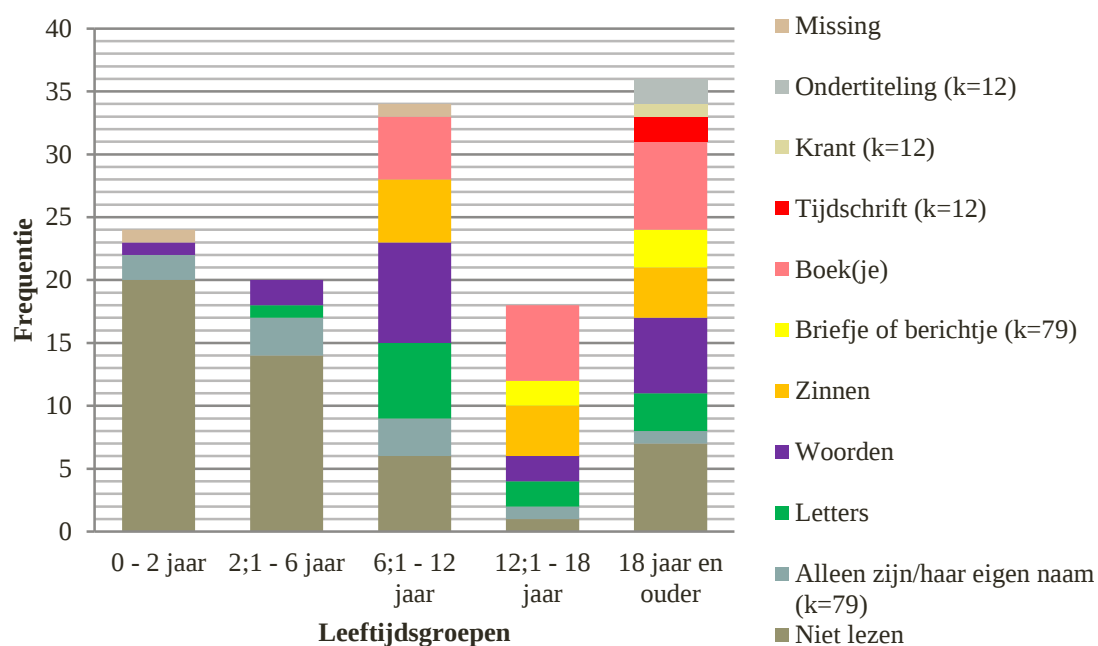
3.2.4 Geletterdheid

De geletterdheid is voor 107 kinderen en adolescenten in kaart gebracht. De ouders hebben aangegeven tot welke deelvaardigheid het kind het lezen en het schrijven beheerst. Zowel in figuur 3.6 en als in figuur 3.7 is af te lezen dat kinderen tot zes jaar oud het lezen en schrijven nagenoeg niet beheersen. Hierbij moet rekening gehouden worden met het feit dat zij nog geen lees- en schrijfonderwijs hebben gevolgd. Lees- en schrijfonderwijs start in Nederlands officieel in groep drie van het basisonderwijs, maar hiervoor maken kinderen al wel kennis met geschreven taal door alledaagse activiteiten bijvoorbeeld tijdens het voorlezen of het kijken van een televisieprogramma met ondertiteling.

3.2.4.1 Lezen

Dat de leesvaardigheid bij kinderen met Downsyndroom toeneemt tot een jaar of dertien à veertien en dat deze hierna iets lager lijken te liggen (De Graaf & De Graaf, 2011b), komt overeen met de gevonden resultaten op basis van de drie spraak- taalvragenlijsten die zijn voorgelegd aan de ouders van kinderen en adolescenten met Downsyndroom. Het merendeel van de kinderen vanaf 6 jaar kan in enige vorm lezen. In tegenstelling tot eerdere studies waarin werd verondersteld dat mensen met een verstandelijke beperking niet in staat waren om te leren lezen ontkrachten de resultaten deze bewering. De bevindingen lijken overeen te komen met een meer recente bewering van De Graaf & Borstlap (2009) die veronderstellen dat grofweg 80 procent van de kinderen en adolescenten met Downsyndroom deze vaardigheid zou kunnen ontwikkelen.

In figuur 3.5 valt op dat een aantal kinderen op een leeftijd tot 2 jaar al in staat zijn om woorden of zijn/haar eigen naam te lezen. Ook tot 6 jaar vallen een aantal kinderen op die deze vaardigheid al klaarblijkelijk hebben ontwikkeld. Wellicht dat het hier enkel gaat om het herkennen van de letters van zijn/haar eigen naam of die van familieleden.

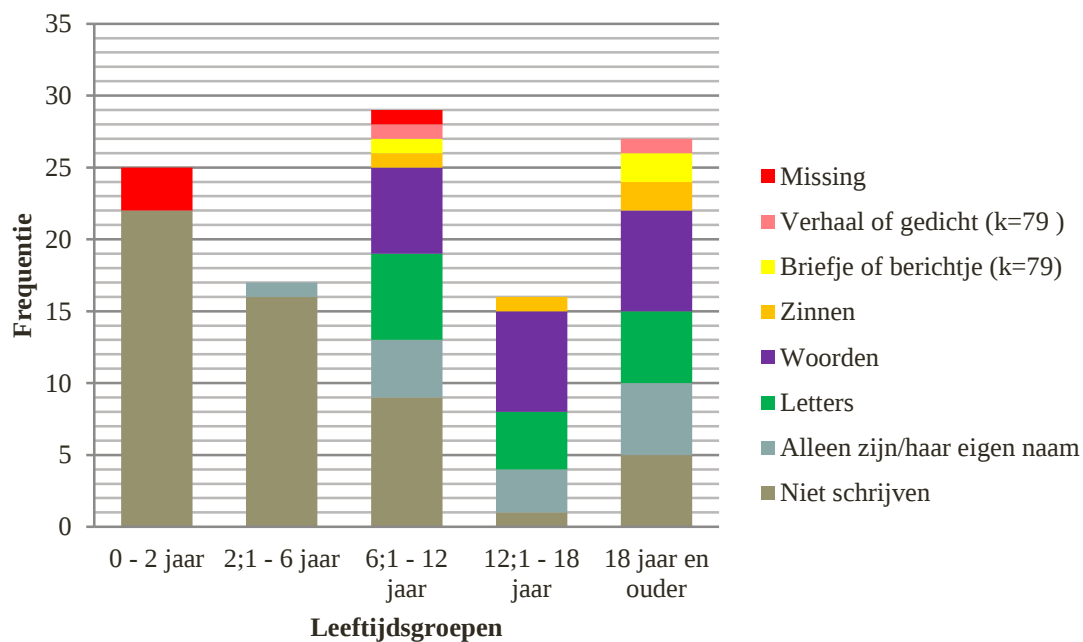


Figuur 3.5 Beheersing deelvaardigheden lezen door kinderen met Downsyndroom (k=107).

3.2.4.2 *Schrijven*

De schriftelijke taalverwerving is een proces dat secundair loopt aan de mondelinge taalverwerving. Het kind leert eerst spreken en pas later lezen en schrijven, niet helemaal toevallig dat men hiermee begint rond het zesde levensjaar op een moment dat de gesproken taal als basis voldoende ontwikkeld is (Schaerlaekens, 2008). Kinderen met Downsyndroom lijken er langer over te doen om de schrijfvaardigheid te ontwikkelen, de resultaten zijn samengevat in figuur 3.6 en tabel 3.10. Alle kinderen tot 6 jaar beheersen de schrijfvaardigheid (nog) niet, met uitzondering van een kind die al wel haar eigen naam kan schrijven. Op het moment dat de lees- en schrijfvaardigheid voor de deelnemende kinderen en adolescenten aan de spraak- en taalvragenlijsten worden vergeleken, valt op dat de schrijfvaardigheid in zijn geheel minder ontwikkeld is. Uit de literatuur is bekend dat de schrijfvaardigheid over het algemeen lager ligt dan de leesvaardigheid bij kinderen met Downsyndroom (Varuzza e.a., 2015). Op basis van de uitgezette spraak- taalvragenlijsten kan men opmaken dat kinderen tot 12 jaar de schrijfvaardigheid minder beheersen dan de leesvaardigheid. Kinderen tot 6 jaar beheersen nagenoeg allemaal de schrijfvaardigheid nog niet en tussen de 6 en 12 jaar betreft dit een derde van de kinderen. Een klein percentage van de kinderen ontwikkelt de schrijfvaardigheid zodanig dat zij in staat zijn om zinnen te schrijven en deze te combineren in een briefje of een verhaal.

De schriftelijke vaardigheden nemen af onder de adolescenten, een vijfde kan hier niet schrijven en 30 procent kan niet lezen. Er wordt in alle drie de spraak- en taalvragenlijsten geen aandacht geschonken aan de motorische aspecten van het schrijven die bij kinderen met Downsyndroom minder ontwikkeld zouden zijn (Varuzza e.a., 2015). Waar in de literatuur wordt beschreven dat kinderen op een jonge leeftijd moeten worden aangemoedigd om te leren schrijven (Buckley e.a., 2002) zien we dat tot 12 jaar een derde van de kinderen het schrijven nog niet beheerst.



Figuur 3.6 Beheersing deelvaardigheden schrijven door kinderen met Downsyndroom (k=107).

In de online SDS-enquête is eveneens gevraagd naar de schrijfvaardigheid van kinderen met Downsyndroom. Op een leeftijd van 9 jaar blijkt dat 47 procent alle letters kan schrijven, 60 procent zijn/haar eigen naam, 40 procent allerlei mmkm-woorden en 23 procent meer lettergrepige woorden (De Graaf & De Graaf, 2011b). In vergelijking met de groep van 6;1 tot 12 jarigen, met een gemiddelde leeftijd van 9 jaar, blijkt dat deze vaardigheden minder ontwikkeld zijn voor de deelnemende kinderen aan de spraak- taalvragenlijsten. De scores zijn aanzienlijk lager, 24 procent kan letters schrijven, 16 procent zijn/haar eigen naam, 24 procent woorden en 4 procent zinnen.

Adolescenten die 18 jaar en ouder zijn beheersen de deelvaardigheden voor schrijven en lezen gemiddeld genomen minder dan de kinderen tot 18 jaar. Op de leeftijd van 18 jaar verlaten de meeste kinderen met Downsyndroom het onderwijs waar zij over het algemeen

meer gestimuleerd zijn in hun ontwikkeling, zowel door de gedragsvoorbeelden en de meer ontwikkelde taal van klasgenoten, als door de grotere nadruk op de schoolse vaardigheden.

Tabel 3.10 Beheersing van de diverse deelvaardigheden (in %) op gebied van geletterdheid door deelnemende kinderen en adolescenten met Downsyndroom aan de drie spraak- taalvragenlijsten (k=107).

Leeftijdscategorie	Deelvaardigheden schrijven				
	Niet schrijven	Losse letters	Alleen zijn/haar eigen naam	Woorden	Zinnen
0 – 2 jaar	88.0	-	-	-	-
2;1 – 6 jaar	94.1	-	5.9	-	-
6;1 – 12 jaar	36.0	24.0	16.0	24.0	4.0
12;1 – 18 jaar	6.3	25.0	18.8	43.8	6.3
18 jaar en ouder	20.8	20.8	20.8	29.2	8.3
Leeftijdscategorie	Deelvaardigheden lezen				
	Niet lezen	Losse letters	Woorden	Zinnen	Boekje
0 – 2 jaar	80.0	-	4.0	-	-
2;1 – 6 jaar	82.4	5.9	11.8	-	-
6;1 – 12 jaar	24.0	24.0	32.0	20.0	20.0
12;1 – 18 jaar	6.3	12.5	12.5	25.0	37.5
18 jaar en ouder	29.2	12.5	25.0	16.7	29.2

3.2.5 Dag invulling

In de instapvragenlijst 0 tot 18 jaar uitgezet onder de ouders van 68 kinderen is gevraagd naar de dag invulling van het kind die is weergegeven in tabel 3.11. Op het moment dat er sprake is van het volgen van onderwijs is de ouders gevraagd het type onderwijs aan te geven. Het type onderwijs is opgenomen in tabel 3.12. Voor drie kinderen zijn deze gegevens onbekend.

Tabel 3.11 Type dag invulling van de deelnemende kinderen met Downsyndroom aan de instapvragenlijst 0 tot 18 jaar (k=65).

Leeftijdscategorie	Dag invulling		Totaal
	Is alle dagdelen thuis of bij familie	Zit op een dagverblijf / volgt onderwijs	
0 – 2 jaar	19	4	23
2;1 – 6 jaar	-	12	12
6;1 – 12 jaar	4	17	21
12;1 – 18 jaar	2	7	9
Totaal	25	40	65

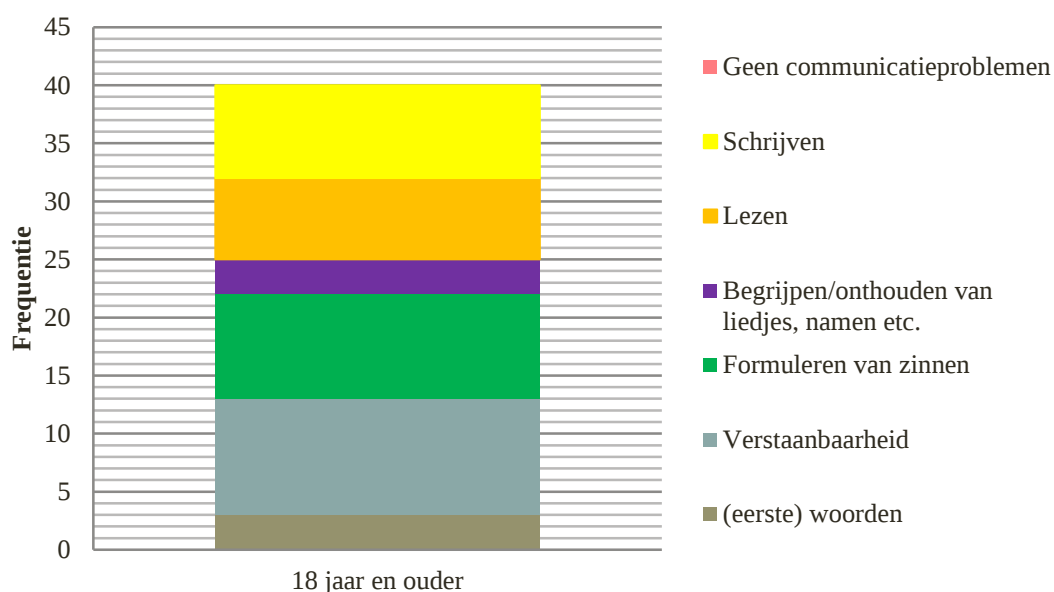
Tabel 3.12 Type onderwijs dat de deelnemende kinderen met Downsyndroom aan de instapvragenlijst 0 tot 18 jaar volgen (k=40).

Type onderwijs	Leeftijdscategorieën				Totaal
	0 tot 2 jaar	2;1 tot 6 jaar	6;1 tot 12 jaar	12;1 tot 18 jaar	
Medisch kinderdagverblijf	-	5	-	-	5
Regulier kinderdagverblijf	4	-	-	-	4
Regulier basisonderwijs	-	4	6	1	11
Reguliere peuterspeelzaal	-	1	-	-	1
Speciaal basisonderwijs	-	2	10	-	12
Voortgezet speciaal onderwijs	-	-	1	6	7
Totaal	4	11	13	7	40

3.2.6 Spraak- en taalontwikkeling

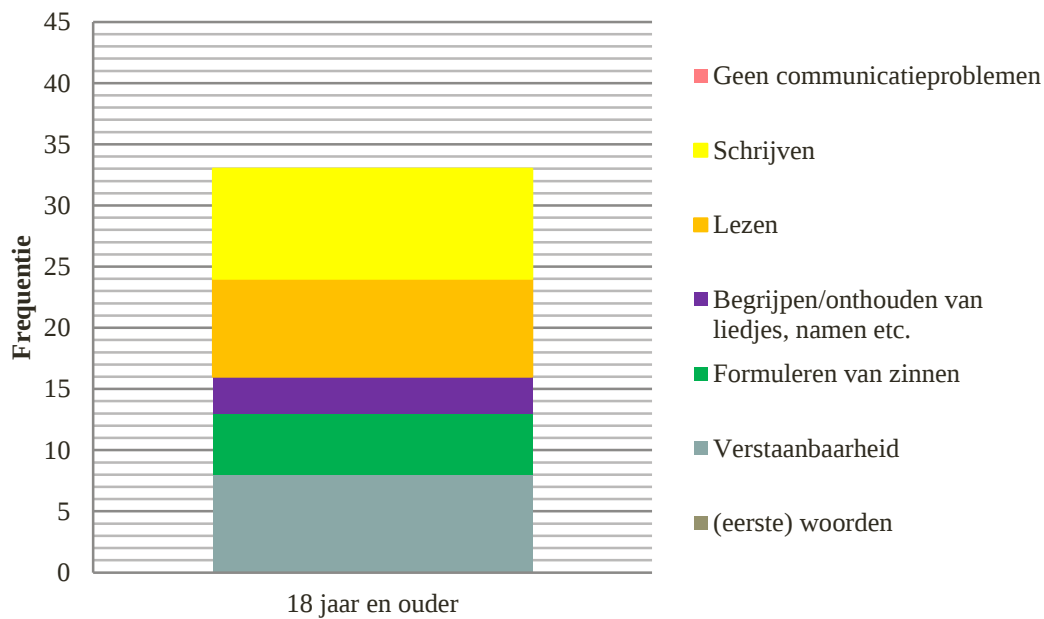
In de instapvragenlijst 18 jaar en ouder is aan de ouders (n=12) gevraagd naar de eerdere spraak- en taalontwikkeling van hun zoon/dochter met Downsyndroom. De spraak- en taalontwikkeling van de adolescenten met Downsyndroom wordt door ruim de helft van de ouders als redelijk bestempeld, een derde van de ouders karakteriseert de ontwikkeling als slecht. Aan de ouders is gevraagd op welke gebieden wat betreft taal en spraak er in het verleden problemen zijn geweest, dit is samengevat in figuur 3.7.

Tijdens de spraak- en taalontwikkeling deden zich problemen voor op verschillende gebieden. Alle adolescenten hebben problemen ondervonden in de communicatie. Ruim 80 procent had moeite met de spraakverstaanbaarheid, driekwart ondervond problemen in de zinsformulering en ruim de helft had moeite met het lezen en schrijven.



Figuur 3.7 Probleemgebieden tijdens de spraak- en taalontwikkeling van adolescenten met Downsyndroom ingevuld door de ouders op de instapvragenlijst 18 jaar en ouder (k=40)

In figuur 3.8 zijn de problemen op de diverse spraak- en taalgebieden in kaart gebracht die adolescenten met Downsyndroom nog steeds ondervinden. De verstaanbaarheid is voor een aantal adolescenten licht verbeterd maar ruim twee derde ondervindt hier vandaag de dag nog steeds hinder van. De problemen op gebied van geletterdheid lijken met de leeftijd licht toe te nemen. Daarentegen ondervinden adolescenten, nu zij ouder zijn, geen of minder problemen op gebied van woorden en het formuleren van zinnen. Opvallend is dat alle adolescenten toch in enige vorm moeite hebben met de communicatie.



Figuur 3.8 Hedendaagse probleemgebieden bij adolescenten met Downsyndroom ingevuld door de ouders op de instapvragenlijst 18 jaar en ouder (k=33).

3.3 Conclusie

Uit de drie spraak- en taalvragenlijsten, die zijn ontwikkeld voor het DigiDown project, blijkt dat kinderen en adolescenten met Downsyndroom gemiddeld genomen niet hetzelfde eindniveau bereiken als zich normaal ontwikkelende kinderen. De kinderen beginnen doorgaans later met spreken van hun eerste woord of communiceren in eerste instantie enkel non-verbaal. Opvallend zijn de hoge percentages voor non-verbale communicatie tot een leeftijd van 6 jaar. Het starten van logopedische therapie op jonge leeftijd zou hier een verklaring voor kunnen zijn. Naarmate de kinderen ouder worden nemen deze percentages weer af. De kinderen met Downsyndroom produceren voor een lange periode tweewoordzinnen of zinnen van meer dan twee woorden. De productie van samengestelde zinnen en bijzinnen komt pas op latere leeftijd (> 6 jaar) op gang en komt geringer voor. Mede door de vertraagde zinsontwikkeling ondervinden kinderen met Downsyndroom

beperkingen in het begrijpelijk vertellen en de spraakverstaanbaarheid. Laatstgenoemde blijkt een groot probleem. Kinderen en adolescenten met Downsyndroom worden gemiddeld genomen beter begrepen en verstaan door hun ouders dan door hun indirecte omgeving. Dit is gerapporteerd door de ouders. Op gebied van geletterdheid scoren de deelnemende kinderen aan DigiDown aanzienlijk lager dan resultaten uit eerder onderzoek. Zowel het lezen als het schrijven wordt door deze kinderen matig beheerst, hierbij is de leesvaardigheid beter ontwikkeld. De groep kinderen met Downsyndroom kent een grote variabiliteit op alle beschreven onderdelen in de spraak- en taalontwikkeling. Zo is voor acht kinderen aangegeven dat zij geen communicatieproblemen ondervinden. Mede door de geringe aantallen dienen de uitkomsten met enige voorzichtigheid geïnterpreteerd te worden.

Hoofdstuk 4 Analyse vragenlijst Quality of Life

4.1 Ontwikkeling vragenlijsten kwaliteit van leven

Door TNO zijn een drietal vragenlijsten ontwikkeld om de gezondheidsgelateerde kwaliteit van leven te meten van kinderen, jongeren en adolescenten (zie TNO, 2012). De vragenlijsten bestaan uit een oudervragenlijst voor kinderen vanaf 6 maanden tot 6 jaar, een oudervragenlijst voor kinderen in de leeftijd van 6 tot 15 jaar en daarnaast een kindervragenlijst voor 8 tot 15 jaar. De vragenlijsten worden veelal ingezet voor onderzoeksdoeleinden waarbij het accent ligt op het verzamelen van gegevens op groepsniveau. De TNO-vragenlijsten zijn bedoeld om systematisch, valide en betrouwbaar de gezondheidsgelateerde kwaliteit van leven te beschrijven bij gezonde kinderen en kinderen met een chronische aandoening in diverse leeftijdsgroepen. De informatie, die meestal verkregen wordt via de ouders, over de gezondheid van het kind wordt afgewogen tegen de emotionele responses van het kind op de gezondheidsproblemen die zich voor doen (TNO, 2012).

Gameren-Oosterom, Fekkes, Buitendijk, Mohangoo en Bruil (2011) gebruikten dit instrumentarium om onderzoek te doen naar de gezondheidsgelateerde kwaliteit van leven van 325 Nederlandstalige kinderen met Downsyndroom. Er is gebruik gemaakt van de door TNO ontwikkelde vragenlijst *Children's Health-Related Quality of Life* (TACQOL), voor kinderen met een chronologische leeftijd van 6 tot 15 jaar oud. Tevens is er gebruik gemaakt van een gezonde controlegroep waar de scores mee zijn vergeleken. De gemiddelde scores op de kwaliteit van leven vragenlijst, die de invloed van Downsyndroom op het dagelijkse leven evalueert, zijn samengevat in tabel 4.1. Hogere scores representeren een betere kwaliteit van leven. In vergelijking met de controlegroep laten zowel jongens als meisjes met Downsyndroom gemiddeld genomen meer problemen zien op gebied van onafhankelijk dagelijks functioneren ($p < 0.001$). Ook op gebied van cognitief functioneren scoren zij gemiddeld genomen lager dan zich normaal ontwikkelende kinderen ($p < 0.001$), zij ervaren meer problemen met betrekking tot het cognitief functioneren en de schoolprestaties. Kinderen met Downsyndroom hebben gemiddeld genomen meer motorische problemen ($p < 0.001$), dit geldt voor zowel jongens als meisjes. Daarnaast ondervinden kinderen met Downsyndroom meer problemen met het onderhouden van sociale contacten, met ouders en leeftijdsgenootjes ($p < 0.001$). Tot slot is er een verschil voor geslacht gerapporteerd op gebied van negatieve stemmingen. De jongens met Downsyndroom scoren hier hoger dan de controlegroep ($p > 0.05$). Bij jongens met Downsyndroom lijken negatieve stemmingen vaker

voor te komen dan bij zich normaal ontwikkelende kinderen. Op de andere schalen, d.w.z. lichamelijke klachten, positieve emoties en, voor de meisjes, negatieve emoties zijn geen significante verschillen waargenomen.

Tabel 4.1 Kwaliteit van leven voor 8-jarige kinderen (n=325) met Downsyndroom (DS) in vergelijking met de controlegroep (NS), uitgesplitst naar geslacht (Gameren-Oosterom e.a., 2011).

	Total DS sample		Male		Female		
	DS	NS	DS	NS	DS	NS	
	(n = 325)	(n = 169)	(n = 260)		(n = 156)	(n = 259)	
	Mean ± SD	Mean ± SD	Mean ± SD	Effect size ¹	Mean ± SD	Mean ± SD	Effect size ¹
Physical complaints	27.26±3.48	27.14±3.56	27.29±3.92	-	27.39±3.39	26.66±4.05	-
Gross motor skills	27.85±3.92	27.76±4.21	30.78±2.50	-0.90***	27.95±3.61	30.72±2.85	-0.88***
Autonomy	26.28±3.59	26.06±3.72	31.10±1.90	-1.84***	26.51±3.45	31.32±1.60	-1.96***
Cognitive functioning	22.76±3.54	22.75±3.89	28.39±3.98	-1.43***	22.77±3.12	28.62±4.00	-1.58***
Social functioning	28.25±3.54	27.95±3.72	29.36±2.82	-0.44***	28.57±3.33	29.91±2.49	-0.47***
Positive emotions	15.06±1.64	15.01±1.70	14.73±2.01	-	15.11±1.58	14.81±2.05	-
Negative emotions	11.71±1.99	11.70±2.18	11.18±2.78	0.21	11.73±1.78	11.45±2.30	-

*p<0.05,

**p<0.01,

***p<0.001.

¹Cohen's d effect size: d<0.2 negligible; 0.2≤d<0.5 small; 0.5≤d<0.8 moderate; 0.8≤d<1.3 large; d≥1.3 very large.

4.2 Analyse vragenlijsten kwaliteit van leven

4.2.1 Onderzoeksgroep

Eerder werd al beschreven dat het DOC bezig is om een landelijke patiëntenregistratie op te zetten onder de naam DigiDown waar deelname plaatsvindt op vrijwillige basis. Naast de eerder besproken spraak- en taalvragenlijsten zijn ook de vragenlijsten met betrekking tot kwaliteit van leven bij deze doelgroep uitgezet, de ouders van 63 kinderen met Downsyndroom hebben hier gehoor aangegeven. In onderstaand tabel zijn kort het geslacht en de leeftijd gepresenteerd voor de kinderen met Downsyndroom. Zowel de *Preschool Children's Health-Related Quality of Life* als de *Children's Health-Related Quality of Life* zijn uitgezet om de gezondheidsgerelateerde kwaliteit van leven bij kinderen met Downsyndroom te beschrijven. De tabel laat eveneens zien dat het aantal kinderen in de verschillende cellen niet groot is wat ertoe zal leiden dat de power van de statistische analyses beperkt zal zijn.

Tabel 4.2 Achtergrondvariabelen van de kinderen met Downsyndroom gepresenteerd voor de twee oudervragenlijsten (n=63): *Preschool Children's Health-Related Quality of Life* en de *Children's Health-Related Quality of Life*.

<i>Preschool Children's Health-Related Quality of Life</i>				<i>Children's Health-Related Quality of Life</i>			
	Geslacht		Totaal		Geslacht		Totaal
	Man	Vrouw			Man	Vrouw	
1 tot 1;6 jaar	7	3	10	6 tot 9 jaar	7	4	11
1;6 tot 3 jaar	9	4	13	9 tot 12 jaar	7	7	14
3;1 tot 6 jaar	2	3	5	12 tot 15 jaar	8	2	10
Totaal	18	10	28	Totaal	22	13	35

4.2.2 Methode

Twee vragenlijsten die door TNO zijn ontwikkeld zijn uitgezet onder de ouders van deelnemende kinderen aan de DigiDown patiëntenregistratie, hierbij is gebruik gemaakt van de *Preschool Children's Health-Related Quality of Life* (V1) en de *Children's Health-Related Quality of Life* (V2). De eerste vragenlijst (V1) is ingevuld door ouders van 28 kinderen met Downsyndroom waarvan 18 jongens. De kinderen met Downsyndroom bevonden zich in een leeftijdsrange van 12 tot 53 maanden ($M=25.61$, $SD=10.99$). De tweede vragenlijst (V2) is ingevuld door ouders van 35 kinderen (22 jongens) die zich in een leeftijdsrange van 76 tot 174 maanden ($M=124.89$, $SD=30.37$) bevonden.

De responses zijn vergeleken met de door TNO beschikbaar gestelde controlegroepen. De geworven controlegroepen bestaan uit een respectievelijk aantal kinderen van 338 voor de *Preschool Children's Health-Related Quality of Life* (V1) en 1078 kinderen voor de *Children's Health-Related Quality of Life* (V2). De controles zijn uitgesplitst naar leeftijd omdat er zich significante verschillen voordoen tussen de leeftijdsgroepen op de *Preschool Children's Health -Related Quality of Life*. Er is een significant verschil tussen de drie leeftijdsgroepen gevonden voor motorisch functioneren ($F(2,27)=17.980$, $p<0.001$) en voor probleemgedrag ($F(2, 27)=18.795$, $p<0.001$) (zie Appendix A). Op de *Children's Health-Related Quality of Life* zijn geen verschillen tussen de leeftijdsgroepen gerapporteerd. De twee controlegroepen zijn onderverdeeld in leeftijdsgroepen die matchen met de gehanteerde leeftijden voor de kinderen met Downsyndroom om een zo nauwkeurig mogelijke vergelijking tot stand te kunnen brengen.

Tabel 4.3 Achtergrondvariabelen van de kinderen met Downsyndroom (DS) gematcht met de controlegroep (C) gepresenteerd voor de *Preschool Children's Health-Related Quality of Life* (V1).

<i>Preschool Children's Health-Related Quality of Life</i>					
Kinderen met Downsyndroom (n=28)			Controlegroep (n=338)		
Leeftijd	Geslacht		Totaal	Leeftijd	Totaal
	Jongen	Meisje			
1 tot 1;6 jaar	7	3	10	1 tot 1;6 jaar	49
1;6 tot 3 jaar	9	4	13	1;6 tot 3 jaar	170
3;1 tot 6 jaar	2	3	5	3 jaar tot 4;7 jaar	119

Voor de *Preschool Children's Health-Related Quality of Life* (V1) is de leeftijd van de controlegroepen identiek aan de groepen kinderen met Downsyndroom tot 3 jaar. De eerste leeftijdsgroep loopt tot 18 maanden omdat zij de *Preschool Children's Health-Related Quality of Life* invullen tot vraag 32, ouders van kinderen ouder dan 18 maanden doorlopen de gehele vragenlijst. Gegevens van de controlegroep gekoppeld aan de kinderen met Downsyndroom van 3 tot 6 jaar zijn beschikbaar tot een leeftijd van 4;7 jaar.

De controlegroep voor de *Children's Health-Related Quality of Life* (V2) was door TNO al onderverdeeld in drie leeftijdsgroepen: 6 en 7 jaar, 8 en 9 jaar en 10 en 11 jaar, maar er zijn geen data beschikbaar voor de leeftijdsgroep van 6 en 7 jaar. De controlegroep van 8 en 9 jaar is daarom gekoppeld aan de kinderen met Downsyndroom van 6 tot 9 jaar. De controlegroep van 10 en 11 jaar is gekoppeld aan de kinderen met Downsyndroom van 9 tot 12 jaar. De controlegroep is als geheel (n=1078) vergeleken met de kinderen van 12 tot 15 jaar. Voor deze groep is geen gelijkwaardige controlegroep beschikbaar.

Tabel 4.4 Achtergrondvariabelen van de kinderen met Downsyndroom (DS) gematcht met de controlegroep (C) gepresenteerd voor de *Children's Health-Related Quality of Life* (V2).

<i>Children's Health-Related Quality of Life</i>					
Kinderen met Downsyndroom (n=35)			Controlegroep (n=1078)		
Leeftijd	Geslacht		Totaal	Leeftijd	Totaal
	Jongen	Meisje			
6 tot 9 jaar	7	4	11	8 tot 9 jaar	504
9 tot 12 jaar	7	7	14	10 tot 11 jaar	574
12 tot 15 jaar	8	2	10	8 tot 11 jaar ¹	1078

¹ De gehele controlegroep met daarbij een minimum leeftijd van 8 jaar en een maximum leeftijd van 11 jaar in vergelijking met kinderen met Downsyndroom van 12 tot 15 jaar oud; controlegegevens van ≥ 12 jaar zijn niet beschikbaar gesteld door TNO.

Voor beide vragenlijsten zijn de diverse schalen berekend met betrekking tot de kwaliteit van leven. Voor de *Preschool Children's Health-Related Quality of Life* (V1) geldt een 12-puntsschaal, samengevat in tabel 4.4. Hierbij worden de schalen sociaal functioneren, motorisch functioneren en communicatie uitsluitend berekend voor kinderen >1;6 jaar. De scores zijn weergegeven op schaal van 0 tot 100, waarbij hogere scores een betere kwaliteit van leven weerspiegelen.

Tabel 4.5 De 12-puntsschaal voor de *Children's Health-Related Quality of Life* (V1) (Vogels e.a., 1999).

Schaal	Toelichting
Sociaal functioneren	Meet de sociale contacten met andere kinderen
Motorisch functioneren	Meet de grove motoriek en moeilijkheden hierbij zoals lopen, rennen en balans
Communicatie	Meet de communicatieve vaardigheden van het kind in vergelijking met leeftijdsgenootjes
Maagproblemen	Meet maag- en darmproblemen
Huidproblemen	Meet huidproblemen zoals eczeem, jeuk en droge huid
Longproblemen	Meet moeilijkheden met betrekking tot ademen zoals longproblemen, bronchitis of kortademigheid
Slaapproblemen	Meet slaapproblemen zoals wakker zijn of moeilijk slapen gedurende de nacht
Eetlust	Meet de eetlust van het kind
Levendigheid	Meet of het kind actief, levendig en energiek was
Humeur	Het voorkomen van positieve stemmingen
Probleemgedrag	Meet moeilijk en agressief gedrag van het kind
Angst	Meet de momenten van angst, spanningen of bang zijn

Voor de *Children's Health Related Quality of Life* (V2) geldt een 7-puntsschaal. De toelichtingen op de zeven schalen staan samengevat in tabel 4.5. De scores hebben een bereik van 0 tot 32 met uitzondering van positieve stemming en negatieve stemming, waar de schaal loopt van 0 tot 16.

Tabel 4.6 De 7-puntsschaal voor de *Children's Health-Related Quality of Life* (V2) (Fekkes, Bruil & Vogels, 2004)

Schaal	Toelichting
Lichamelijke klachten	Problemen /beperkingen met betrekking tot het algemeen lichamelijk functioneren
Motorisch functioneren	Problemen/beperkingen met betrekking tot het motorisch functioneren
Autonomie	Problemen/beperkingen met betrekking tot het onafhankelijk dagelijks functioneren
Cognitief functioneren	Problemen/beperkingen met betrekking tot cognitief functioneren en schoolprestaties
Sociaal functioneren	Problemen/beperkingen met sociale contacten, met ouders en leeftijdsgenootjes
Positieve stemming	Het voorkomen van positieve stemmingen
Negatieve stemming	Het voorkomen van negatieve stemmingen

4.2.3 Resultaten

4.2.3.1 Preschool Childrens's Health-Related Quality of Life

De TAPQOL vragenlijst gericht op de ouders van kinderen van één tot zes jaar bestaat in totaal uit 43 vragen voorafgegaan door een instructie. Ouders van kinderen tussen de 12 en 18 maanden oud werd verzocht de vragenlijst in te vullen tot en met vraag 32 (TNO, 2012), dit betekent dat de schalen sociaal functioneren en motorisch functioneren, maar ook communicatie niet voor deze leeftijdsgroep berekend kunnen worden. Er blijven negen schalen over. Per leeftijdsgroep zijn de scores vergeleken met de controlegroep, m.a.w. de groepen 1 tot 1;6 jaar, 1;6 tot 3 jaar en 3 tot 6 jaar staan in aparte tabellen en zijn apart geanalyseerd.

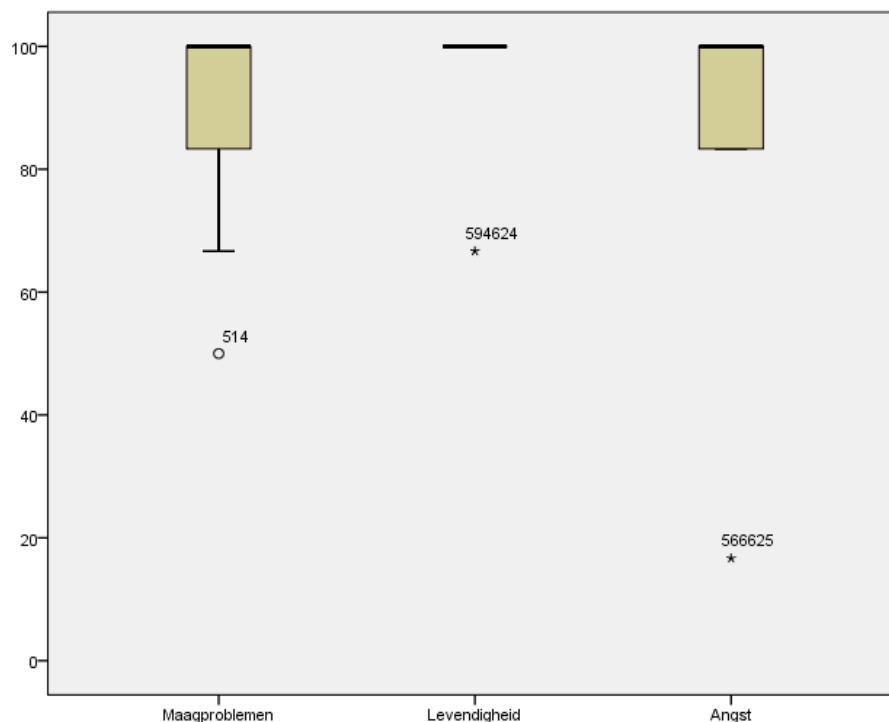
Tabel 4.7 Resultaten kwaliteit van leven voor deelnemende kinderen met Downsyndroom in vergelijking met de controlegroep beschikbaar gesteld door TNO, leeftijdsrange van 1 tot 1;6 jaar.

	Kinderen met Downsyndroom (n=10)		Controlegroep (n=49)		t	p	d ²
	M	SD	M	SD			
Maagproblemen	88.33	17.66	94.73	12.35	-1.093	0.218	0.43
Huidproblemen	95.00	5.83	92.35	10.04	1.135	0.208	-0.33
Longproblemen	88.33	14.27	89.12	21.93	-0.144	0.393	0.04
Slaapproblemen	80.63	15.15	77.68	20.29	0.527	0.345	-0.17
Eetlust	89.17	18.45	89.46	13.37	-0.047	0.397	0.02
Levendigheid	96.67	10.54	98.64	7.48	-0.563	0.338	0.22
Humeur	100.00	0.00	97.96	8.76	1.630	0.106	-0.47
Probleemgedrag	95.71	6.02	76.51	14.11	6.925	<0.001	-1.91
Angst	86.67	25.82	82.65	17.33	0.471	0.355	-0.19

In vergelijking met de controlegroep scoren kinderen met Downsyndroom tot anderhalf jaar hoger op gebied van probleemgedrag ($p < 0.001$), waarbij de effectgrootte zeer groot is ($d > 1.3$). Dit betekent dat kinderen met Downsyndroom gemiddeld genomen minder vaak problematisch gedrag laten zien dan zich normaal ontwikkelende kinderen. Op de overige schalen lijken zich in deze periode nog geen significante verschillen voor te doen. De resultaten zijn samengevat in tabel 4.7.

² Cohens 'd': $d < 0.2$ verwaarloosbaar; $0.2 \leq d < 0.5$ klein; $0.5 \leq d < 0.8$ middelgroot; $0.8 \leq d < 1.3$ groot; $d \geq 1.3$ zeer groot.

Binnen de groep kinderen met Downsyndroom is er soms sprake van variabiliteit met extreme waarden (*) en outliers (○). In figuur 4.1 zijn de boxplots gepresenteerd voor de schalen waarop zich dit voordoet. Op gebied van maag- en darmproblematiek scoort één jongen extreem laag wat betekent dat hij meer problemen ervaart. Op de schalen autonomie, en levendigheid zijn er twee kinderen die opvallend lager scoren wat betekent dat één jongen minder levendig en niet energiek is en dat de andere jongen vaker momenten van angst, spanning en bang zijn kent.



Figuur 4.1 Boxplot van de schalen maagproblemen, levendigheid en angst voor kinderen met Downsyndroom van 1 tot 1;6 jaar

Naarmate de kinderen met Downsyndroom ouder worden lijkt de ontwikkeling op diverse domeinen te verschillen ten opzichte van de zich normaal ontwikkelende kinderen. De resultaten voor kinderen met Downsyndroom die anderhalf tot drie jaar oud zijn staan in tabel 4.8. Zij scoren in vergelijking met de controlegroep gemiddeld genomen lager op gebied van motorisch functioneren ($p < 0.001$) en ook doen zich hier de eerste verschillen voor in de communicatie waarbij zij eveneens lager scoren ($p < 0.001$) dan zich normaal ontwikkelende kinderen. Kinderen met Downsyndroom ondervinden meer problemen en moeilijkheden met betrekking tot de grove motoriek zoals lopen en balans. De communicatieve vaardigheden

zijn gemiddeld genomen lager in vergelijking met kinderen zonder Downsyndroom (<0.001). Waar zij op het gebied van motorisch functioneren en communicatie lager scoren, scoren de kinderen met Downsyndroom hoger op het gebied van problematisch gedrag ($p=0.009$) en op het gebied van levendigheid ($p=0.003$) dan zich normaal ontwikkelende kinderen. Zij behalen op de schalen levendigheid en humeur zelfs de maximaal haalbare score van 100. Dit betekent dat kinderen in de leeftijd van 1,5 tot 3 jaar als actief, levendig en energiek bestempeld kunnen worden waarbij het humeur positief gestemd is.

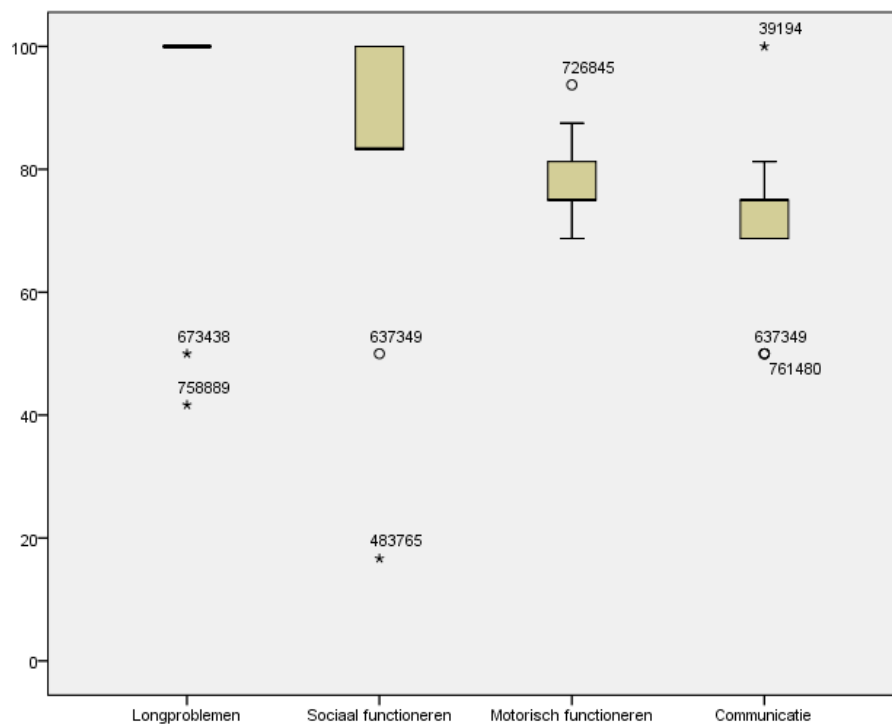
Tabel 4.8 Resultaten kwaliteit van leven voor deelnemende kinderen met Downsyndroom in vergelijking met de controlegroep beschikbaar gesteld door TNO, leeftijdsrange van 1,5 tot 3 jaar.

	Kinderen met Downsyndroom ($n=13$)		Controlegroep ($n=170$)		t	p	d ³
	M	SD	M	SD			
Sociaal functioneren	82.05	24.02	91.11	15.01	-1.340	0.162	0.46
Motorisch functioneren	77.88	7.04	98.08	4.65	-10.177	<0.001	3.46
Communicatie	70.67	14.06	91.08	9.91	-5.137	<0.001	1.70
Maagproblemen	88.46	15.79	92.95	14.32	-0.994	0.243	0.30
Huidproblemen	94.23	5.25	92.21	10.02	1.227	0.188	-0.26
Longproblemen	91.67	20.41	95.71	11.93	-0.705	0.311	0.25
Slaapproblemen	80.29	19.41	81.84	17.19	-0.280	0.383	0.08
Eetlust	81.25	14.70	85.29	12.31	-0.965	0.250	0.30
Levendigheid	100.00	0.00	98.42	6.62	3.112	0.003	-0.48
Humeur	100.00	0.00	99.51	3.36	1.901	0.066	-0.29
Probleemgedrag	78.02	13.82	66.89	14.72	2.785	0.009	-0.78
Angst	82.05	18.59	79.51	17.58	0.477	0.355	-0.14

In figuur 4.2 staan de boxplots voor de schalen waarop extreme waarden (*) en outliers (○) zijn waargenomen. Op het gebied van longproblemen blijken twee kinderen extreem vaker moeilijkheden te hebben met betrekking tot ademen. Op het gebied van sociaal functioneren is er één meisje die aanzienlijk minder sociale contacten heeft met andere kinderen, een ander kind scoort ook opvallend lager. Op het gebied van motorisch functioneren is er één meisje dat aanzienlijk hoger scoort dan de rest van de kinderen met

³ Cohens 'd': $d < 0.2$ verwaarloosbaar; $0.2 \leq d < 0.5$ klein; $0.5 \leq d < 0.8$ middelgroot; $0.8 \leq d < 1.3$ groot; $d \geq 1.3$ zeer groot.

Downsyndroom. Zij lijkt minder problemen te ondervinden met betrekking tot de grove motoriek. Tot slot op het gebied van communicatie zijn er twee kinderen die extreem meer moeite ondervinden in de communicatieve vaardigheden. Daarentegen is er ook één jongen die helemaal geen problemen ondervindt en opvallend hoog scoort met een maximale score van 100.



Figuur 4.2 Boxplot van de schalen longproblemen, sociaal functioneren, motorisch functioneren en communicatie voor kinderen met Downsyndroom van 1;6 tot 3 jaar

De resultaten van de laatste leeftijdsgroep, tussen de 3 en 6 jaar, op de *Preschool Children's Health-Related Quality of Life* zijn voor zowel de kinderen met Downsyndroom als voor de controlegroep samengevat in tabel 4.9.

Tabel 4.9 Resultaten kwaliteit van leven voor deelnemende kinderen met Downsyndroom in vergelijking met de controlegroep beschikbaar gesteld dor TNO, leeftijdsrange van 3 tot 6 jaar.

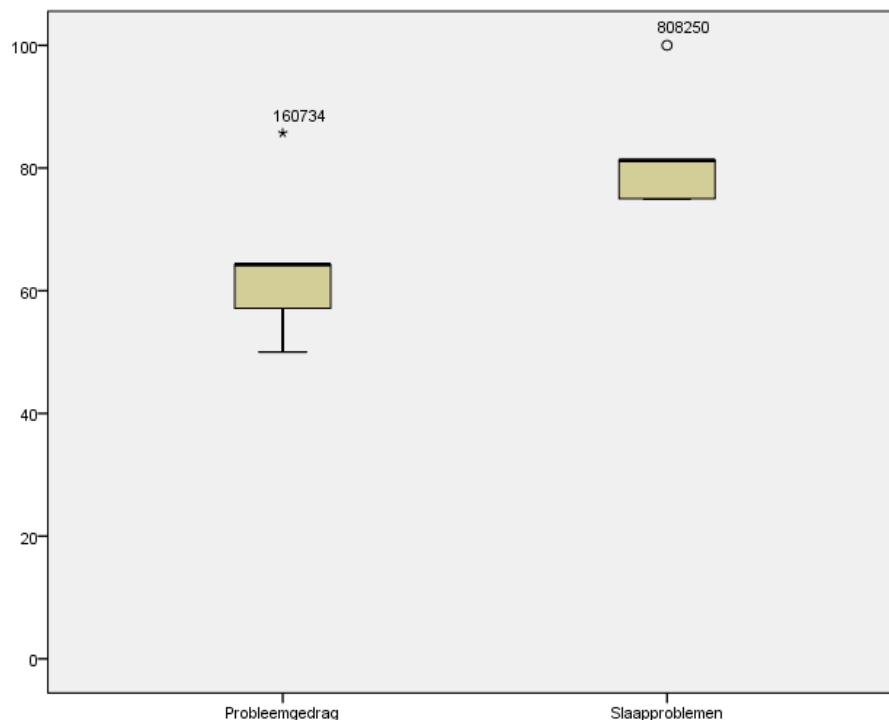
	Kinderen met Downsyndroom (n=5)		Controlegroep (n=119) ⁴		t	p	d ⁵
	M	SD	M	SD			
Sociaal functioneren	86.67	13.94	91.74	15.93	-0.792	0.290	0.34
Motorisch functioneren	100.00	0.00	99.46	2.93	2.010	0.054	-0.37
Communicatie	76.25	6.85	92.74	9.71	-5.169	<0.001	1.99
Maagproblemen	91.67	9.62	88.98	13.34	0.601	0.332	-0.23
Huidproblemen	87.50	14.43	90.96	12.11	-0.528	0.346	0.26
Longproblemen	87.50	15.96	92.30	18.22	-0.655	0.321	0.28
Slaapproblemen	82.50	10.27	84.90	15.64	-0.499	0.351	0.19
Eetlust	85.00	14.91	81.42	13.67	0.528	0.346	-0.25
Levendigheid	100.00	0.00	97.06	9.86	3.253	0.002	-0.60
Humeur	100.00	0.00	97.90	8.56	2.676	0.012	-0.49
Probleemgedrag	64.29	13.36	65.02	15.50	-0.119	0.395	0.05
Angst	73.33	19.00	74.51	18.26	-0.136	0.394	0.06

De verschillen op gebied van communicatie blijven bestaan tussen de kinderen met Downsyndroom en zich normaal ontwikkelende kinderen. De kinderen met Downsyndroom scoren gemiddeld genomen lager in vergelijking met de controlegroep ($p < 0.001$). Desondanks doen er zich nog geen significante verschillen voor in het sociaal functioneren ($p = 0.290$). Net als in de voorgaande leeftijdsgroep scoren de kinderen met Downsyndroom gemiddeld genomen hoger op gebied van levendigheid ($p = 0.002$) en humeur ($p = 0.012$). Voor de overige schalen zijn geen verschillen gerapporteerd.

In figuur 4.3 zijn de boxplots gepresenteerd voor de schalen waarop extreme waarden (*) en outliers (○) zijn gesignaleerd. Op gebied van probleemgedrag scoort één meisje aanzienlijk hoger dan de rest van de groep wat betekent dat zij minder vaak moeilijk en agressief gedrag laat zien. Op gebied van slaapproblemen scoort één jongen extreem hoger met een maximale score van 100, dit betekent dat hij geen problemen met betrekking tot slapen ondervindt.

⁴ Leeftijdsgroep controlegroep 3 tot 4;7 jaar.

⁵ Cohens 'd': $d < 0.2$ verwaarloosbaar; $0.2 \leq d < 0.5$ klein; $0.5 \leq d < 0.8$ middelgroot; $0.8 \leq d < 1.3$ groot; $d \geq 1.3$ zeer groot.



Figuur 4.3 Boxplot van de schalen probleemgedrag en slaapproblemen voor kinderen met Downsyndroom van 3 tot 6 jaar.

4.2.3.2 *Childrens's Health-Related Quality of Life*

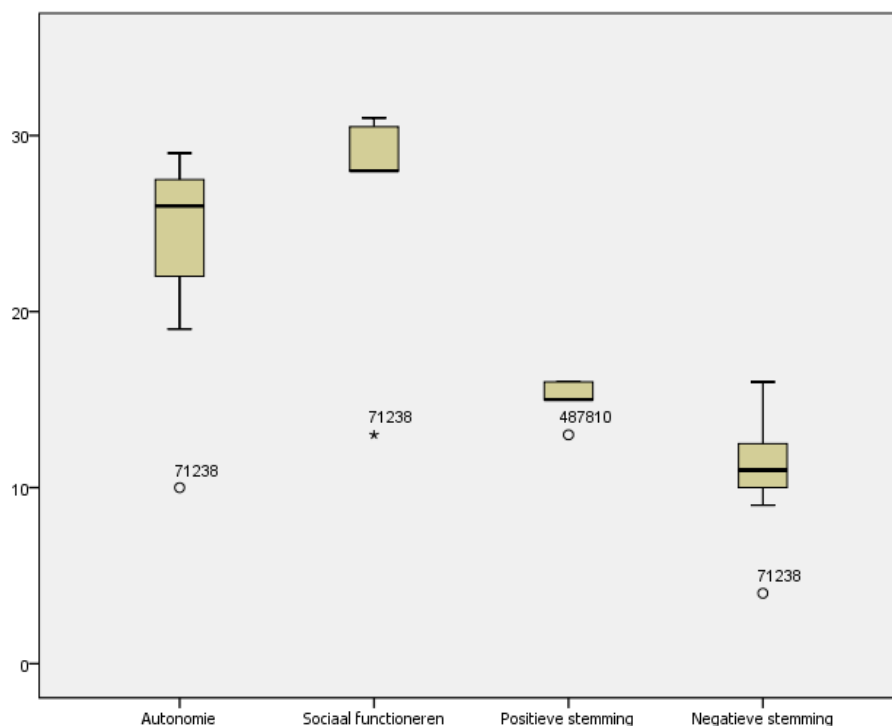
De TACQOL vragenlijst die gericht is op de ouders van kinderen van 6 tot en met 15 jaar bestaat in totaal uit 63 vragen, waarvan 57 multiple-choice vragen en daarnaast 6 open vragen. Voorafgaand aan deze vragen is een instructie aangeboden. De scores lopen van 0 tot 32 voor lichamelijke klachten, grove motorische vaardigheden, cognitief functioneren, evenals voor autonomie en sociaal functioneren. Voor positieve emoties en negatieve emoties loopt de schaal van 0 tot 16. Hierbij weerspiegelt een hogere score eveneens een hogere waardering voor de kwaliteit van leven. De scores zijn per leeftijdsgroep geanalyseerd: 6 tot 9 jaar, 9 tot 12 jaar en 12 tot 15 jaar.

In tabel 4.10 zijn de resultaten samengevat voor de kinderen met Downsyndroom van 6 tot 9 jaar en de controles van 8 en 9 jaar oud. Hieruit is op te maken dat kinderen met Downsyndroom meer problemen ervaren met betrekking tot het motorisch functioneren ($p=0.003$). Zij scoren gemiddeld genomen lager dan zich normaal ontwikkelende kinderen. Ook op gebied van cognitief functioneren ondervinden zij meer problemen ($p<0.001$). Al met al hebben deze bevindingen ook invloed op het onafhankelijk dagelijks functioneren. Op gebied van autonomie scoren kinderen met Downsyndroom gemiddeld genomen lager dan

zich normaal ontwikkelende kinderen ($p < 0.001$). Tot slot zijn kinderen met Downsyndroom gemiddeld genomen vaker positief gestemd ($p < 0.001$).

Tabel 4.10 Resultaten kwaliteit van leven voor deelnemende kinderen met Downsyndroom in vergelijking met de controlegroep beschikbaar gesteld door TNO, leeftijdsrange 6 tot 9 jaar.

	Kinderen met Downsyndroom ($n=11$)		Controlegroep ($n=504$)		t	p	d
	M	SD	M	SD			
Lichamelijke klachten	24.60	2.91	24.98	5.09	-0.419	0.365	0.09
Motorisch functioneren	25.11	5.01	29.81	3.38	-3.096	0.003	1.12
Autonomie	23.00	6.20	30.99	2.35	-4.267	<0.001	1.87
Cognitief functioneren	20.00	6.87	28.41	4.00	-4.045	<0.001	1.55
Sociaal functioneren	27.33	5.79	29.63	2.90	-1.314	0.168	0.53
Positieve stemming	15.00	1.07	13.43	2.53	4.594	<0.001	-0.87
Negatieve stemming	11.50	3.96	11.50	2.79	0.000	0.399	0.00



Figuur 4.4 Boxplot van de schalen autonomie, sociaal functioneren, positieve stemming en negatieve stemming voor kinderen met Downsyndroom van 6 tot 9 jaar.

In figuur 4.4 staan de boxplots voor de schalen waarop extreme waarden (*) en outliers (○) zijn waargenomen. Op gebied van sociaal functioneren scoort één jongen opvallend lager op

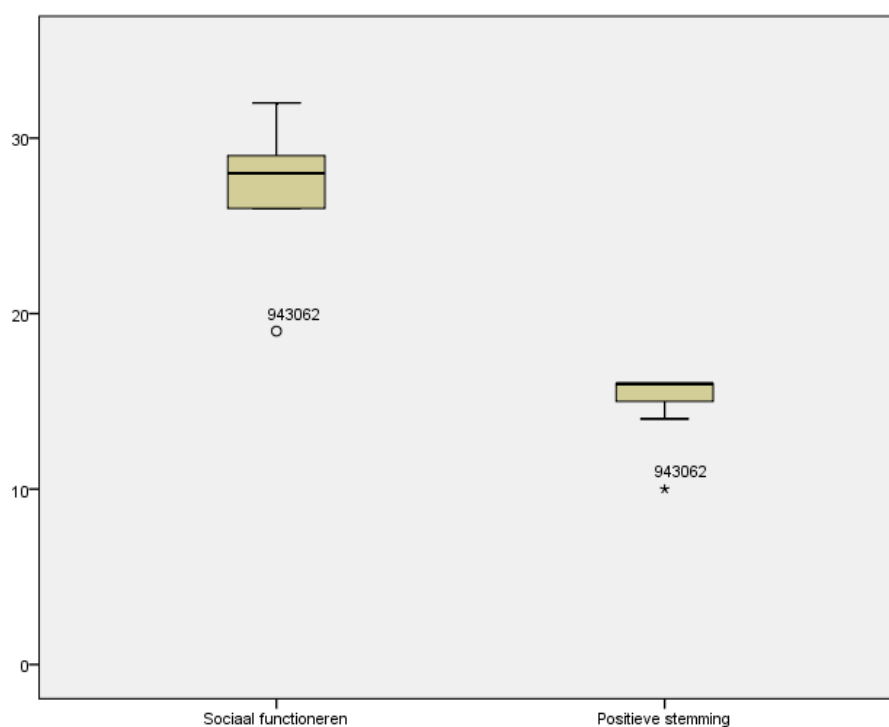
gebied van sociale contacten, met ouders en leeftijdsgenootjes. Op de schalen autonomie, positieve stemming en negatieve stemming is er steeds één kind met Downsyndroom die extreem laag scoort ten opzichte van de groep.

De resultaten voor kinderen met Downsyndroom van 9 tot 12 jaar oud staan in tabel 4.11. Zij scoren lager dan de controlegroep op de schaal motorisch functioneren ($p < 0.001$). Ook doen zich hier problemen voor op gebied van sociaal functioneren ($p = 0.015$). Kinderen met Downsyndroom scoren op deze schaal gemiddeld genomen lager dan de controlegroep. Zij ondervinden problemen in het onderhouden van sociale contacten, met ouders en leeftijdsgenootjes. Tot slot laten zij een verschil zien op gebied van het onafhankelijk dagelijks functioneren ($p < 0.001$). Opvallend is dat de kinderen met Downsyndroom ook hier, net als bij de twee eerder beschreven leeftijdsgroepen, vaker positief gestemd zijn dan kinderen zonder Downsyndroom ($p = 0.002$). Er doen zich geen verschillen voor op de resterende drie schalen: lichamelijke klachten, cognitief functioneren en negatieve stemming.

Tabel 4.11 Resultaten kwaliteit van leven voor deelnemende kinderen met Downsyndroom in vergelijking met de controlegroep beschikbaar gesteld door TNO, leeftijdsrange 9 tot 12 jaar.

	Kinderen met Downsyndroom ($n=14$)		Controlegroep ($n=574$)		t	p	d
	M	SD	M	SD			
Lichamelijke klachten	23.80	4.02	24.91	5.15	-1.013	0.239	0.24
Motorisch functioneren	26.67	2.93	29.85	3.08	-4.007	<0.001	1.06
Autonomie	24.00	3.95	31.41	1.49	-7.007	<0.001	2.72
Cognitief functioneren	20.83	3.86	28.52	3.79	-0.022	0.399	0.00
Sociaal functioneren	27.62	3.12	29.77	2.62	-2.556	0.015	0.75
Positieve stemming	15.15	1.68	13.67	2.53	3.209	0.002	0.70
Negatieve stemming	11.69	1.65	11.70	2.65	-0.022	0.399	0.00

In figuur 4.5 staan de boxplots voor de schalen sociaal functioneren en positieve stemming. Op gebied van sociaal functioneren is één outlier (○) gerapporteerd, dit kind scoort extreem laag en ondervindt aanzienlijk meer problemen op gebied van sociale contacten, met ouders en leeftijdsgenootjes. Voor positieve stemmingen is er één extreme waarde (*) van 10 waargenomen op schaal van 0 tot 16. Hij is vaker minder positief gestemd dan de overige kinderen in deze leeftijdsgroep. In beide gevallen betreft het hier dezelfde jongen.



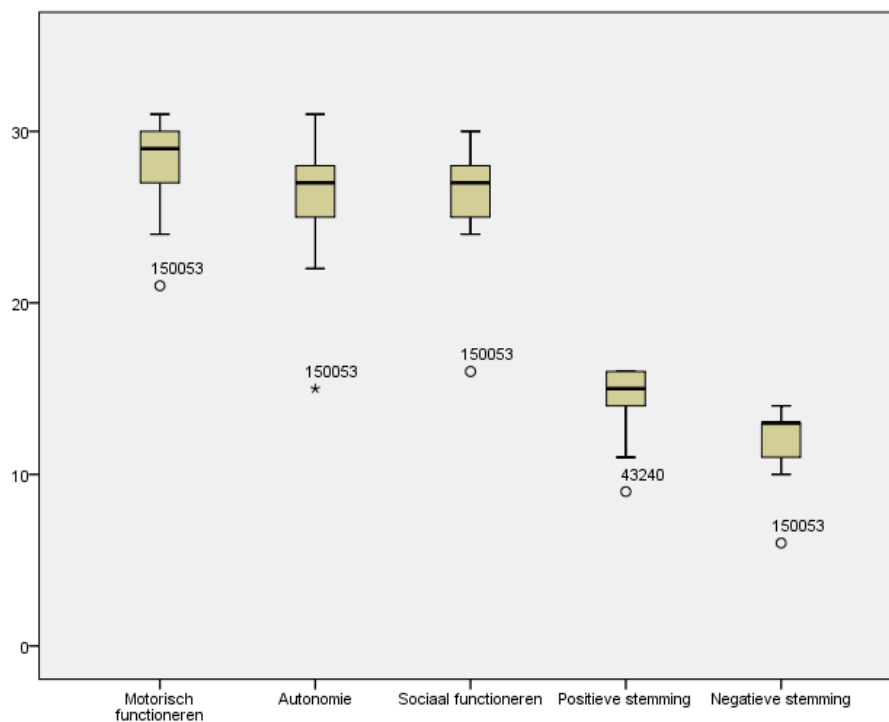
Figuur 4.5 Boxplot van de schalen sociaal functioneren en positieve stemming voor kinderen met Downsyndroom van 9 tot 12 jaar.

De resultaten voor de oudste groep kinderen met Downsyndroom in de leeftijd van 12 tot 15 jaar scoort lager op de schalen autonomie ($p < 0.001$) en cognitief functioneren ($p < 0.001$), maar ook op de schaal sociaal functioneren ($p = 0.004$). De kinderen met Downsyndroom ondervinden gemiddeld genomen meer problemen met betrekking tot het onafhankelijk dagelijks functioneren dan de controlegroep. Ook op gebied van cognitief functioneren ondervinden zij meer problemen, dit geldt ook voor het onderhouden van sociale contacten, met ouders en leeftijdsgenootjes. Voor de overige schalen zijn geen significante verschillen gerapporteerd.

Tabel 1.12 Resultaten kwaliteit van leven voor deelnemende kinderen met Downsyndroom in vergelijking met de controlegroep beschikbaar gesteld door TNO, leeftijdsrange 12 tot 15 jaar.

	Kinderen met Downsyndroom (k=10)		Controlegroep (k=1078)		df	t	p	d
	M	SD	M	SD				
Lichamelijke klachten	25.60	3.53	24.94	5.13	1086	0.586	0.336	-0.15
Motorisch functioneren	27.90	3.21	29.83	3.22		-1.892	0.067	0.60
Autonomie	25.20	4.85	31.21	1.95		-3.916	<0.001	1.77
Cognitief functioneren	18.70	5.83	28.47	3.89		-5.288	<0.001	2.01
Sociaal functioneren	25.78	4.06	29.71	2.75		-3.055	0.004	1.15
Positieve stemming	14.22	2.54	13.56	2.53		0.818	0.285	-0.26
Negatieve stemming	11.67	2.55	11.61	2.71		0.074	0.398	-0.02

In figuur 4.6 zijn boxplots gepresenteerd voor de schalen waarop outliers (○) en een extreme waarde (*) zijn waargenomen. In vier gevallen betreft het hier dezelfde jongen die extreem lager scoort dan de overige kinderen in deze leeftijdsgroep.



Figuur 4.6 Boxplot van de schalen motorisch functioneren, autonomie, sociaal functioneren, positieve stemming en negatieve stemming voor kinderen met Downsyndroom van 12 tot 15 jaar.

4.2.3 Vergelijking met de eerdere studie van Gameraen-Oosterom e.a. (2011)

De gegevens afkomstig uit de *Children's Health-Related Quality of Life* vragenlijst, die was uitgezet onder de ouders van deelnemende kinderen met Downsyndroom aan DigiDown, zijn vergeleken met de gegevens afkomstig uit het eerder beschreven onderzoek van Gameraen-Oosterom e.a. (2011). De scores op de kwaliteit van leven vragenlijst zijn voor beide groepen kinderen met Downsyndroom samengevat in tabel 4.13.

Tabel 4.13 Kwaliteit van leven voor deelnemende kinderen met Downsyndroom aan DigiDown (6 tot 9 jaar) in vergelijking met de onderzoeksgroep (8 jaar) uit de studie van Gameraen-Oosterom e.a. (2011).

	Kinderen met Downsyndroom (n=11)		Onderzoeksgroep studie Gameraen-Oosterom e.a. (2011) (n=325)		t	p	d
	M	SD	M	SD			
Lichamelijke klachten	24.60	2.91	27.26	3.48	-2.961	0.005	0.83
Motorisch functioneren	25.11	5.01	27.85	3.92	-1.795	0.080	0.61
Autonomie	23.00	6.20	26.28	3.59	-1.745	0.087	0.67
Cognitief functioneren	20.00	6.87	22.76	3.54	-1.326	0.165	0.53
Sociaal functioneren	27.33	5.79	28.25	3.54	-0.524	0.347	0.20
Positieve stemming	15.00	1.07	15.06	1.64	-0.179	0.392	0.04
Negatieve stemming	11.50	3.96	11.71	1.99	-0.175	0.393	0.07

De deelnemende kinderen aan de patiëntenregistratie DigiDown scoren op één schaal lager dan de kinderen met Downsyndroom die deel hebben genomen aan de studie van Gameraen-Oosterom e.a. (2011). Zij ondervinden gemiddeld genomen meer problemen en/of beperkingen met betrekking tot het algemeen lichamelijk functioneren dan de kinderen met Downsyndroom in de eerdere studie ($p=0.005$). Desondanks was er geen sprake van een significant verschil tussen de kinderen met Downsyndroom en zich normaal ontwikkelende kinderen in de resultaten in tabel 4.10. Op de overige zes schalen zijn geen significante verschillen gevonden tussen beide groepen kinderen met Downsyndroom.

4.2.4 Leeftijdsontwikkeling voor kwaliteit van leven

Voor zowel de *Preschool Children's Health-Related Quality of Life* als voor de *Children's Health-Related Quality of Life* zijn de resultaten samengevat in de tabellen 4.14 en 4.15 om het verloop van de diverse schalen op de kwaliteit van leven vragenlijsten te visualiseren.

Tabel 4.14 Vereenvoudigde representatie van de resultaten van de kinderen met Downsyndroom in vergelijking met de controlegroep voor de TAPQOL: 0 geen significant verschil, + significant verschil (positieve t-waarde) en - een significant verschil (negatieve t-waarde).

Schaal	Leeftijd		
	1 tot 1;6 jaar	1;6 tot 3 jaar	3 tot 6 jaar
Sociaal functioneren		0	0
Motorisch functioneren		-	0
Communicatie		-	-
Maagproblemen	0	0	0
Huidproblemen	0	0	0
Longproblemen	0	0	0
Slaapproblemen	0	0	0
Eetlust	0	0	0
Levendigheid	0	+	+
Humeur	0	0	+
Probleemgedrag	+	+	0
Angst	0	0	0

Kinderen met Downsyndroom vanaf één jaar laten significant minder vaak moeilijk en agressief gedrag zien. Dit zet zich voort tot aan een leeftijd van drie jaar. Er zijn geen significante verschillen gerapporteerd tussen de kinderen met Downsyndroom van drie tot zes jaar en de controlegroep. Wat betreft de communicatie doet het eerste significant verschil zich voor op een leeftijd van anderhalf jaar, de leeftijd waarop het kind doorgaans start met communiceren. Het kind met Downsyndroom ondervindt meer problemen met de communicatieve vaardigheden in vergelijking met zich normaal ontwikkelende kinderen. Deze problematiek zet zich voort naarmate het kind ouder wordt, ook bij kinderen tussen de drie en zes jaar oud wordt een significant verschil gerapporteerd. Op gebied van levendigheid, d.w.z. of het kind actief, levendig en energiek is, zien we een significant verschil vanaf anderhalf jaar. Kinderen met Downsyndroom worden vanaf deze leeftijd veelal als actief bestempeld. Zij zijn op deze leeftijd actiever, levendiger en energiever dan zich normaal ontwikkelende kinderen. Ook zijn de kinderen met Downsyndroom vaker positief gestemd naarmate zij ouder worden, vanaf drie jaar en ouder is dit verschil zelfs significant hoger ten opzichte van zich normaal ontwikkelende kinderen. Kinderen tot zes jaar oud hebben gemiddeld genomen niet meer huidproblemen, longproblemen of maagproblemen. Ook wanneer we kijken bij de oudere groep kinderen tot vijftien jaar zien we dat er geen significante verschillen zijn gerapporteerd met betrekking tot het algemeen lichamelijk functioneren.

Tabel 4.15 Vereenvoudigde representatie van de resultaten van de kinderen met Downsyndroom in vergelijking met de controlegroep voor de TACQOL: 0 is geen significant verschil, + een significant verschil (positieve t-waarde) en - een significant verschil (negatieve t-waarde)

Schaal	Leeftijd		
	6 tot 9 jaar	9 tot 12 jaar	12 tot 15 jaar
Lichamelijke klachten	0	0	0
Motorisch functioneren	-	-	0
Autonomie	-	-	-
Cognitief functioneren	-	0	-
Sociaal functioneren	0	-	-
Positieve stemming	+	+	0
Negatieve stemming	0	0	0

Het verloop wat betreft het motorische functioneren, waarbij de grove motoriek en moeilijkheden zoals lopen en balans centraal staan, is wisselend over de jaren heen. Kinderen met Downsyndroom tussen de zes en twaalf jaar oud hebben hier significant meer moeite mee in vergelijking met kinderen zonder het syndroom van Down. Kinderen met Downsyndroom ouder dan twaalf jaar scoorden gemiddeld genomen lager dan de controlegroep maar het verschil was hierbij niet significant ($p=0.067$). Wat betreft het humeur lijken de positieve stemmingen van kinderen tussen de drie en zes jaar oud zich voort te zetten tot aan een leeftijd van twaalf jaar, bij kinderen ouder dan twaalf jaar is het verschil ten opzichte van de controlegroep niet meer significant. Op gebied van negatieve stemmingen zijn geen significante verschillen gerapporteerd tussen de kinderen met Downsyndroom en de normaal ontwikkelde kinderen. Het sociaal functioneren van kinderen met Downsyndroom lijkt tot negen jaar niet onder te doen voor zich normaal ontwikkelende kinderen. Dit komt overeen met de beschikbare gegevens van de kinderen tussen de anderhalf en drie jaar oud. Kinderen met Downsyndroom ouder dan negen jaar ondervinden significant meer problemen in het maken en onderhouden van sociale contacten met andere kinderen. Naarmate kinderen ouder worden, en er meer wordt gevraagd van het zelfstandig functioneren. Kinderen met Downsyndroom ondervinden gemiddeld genomen significant meer problemen met betrekking tot het onafhankelijk dagelijks functioneren dan zich normaal ontwikkelende kinderen, dit geldt voor kinderen van zes jaar en ouder. Voor kinderen met Downsyndroom jonger dan zes jaar is het onafhankelijk dagelijks functioneren niet geëvalueerd. Tot slot zien we dat de eerste problemen op gebied van cognitief functioneren zich voordoen op een leeftijd tussen de zes en negen jaar. Kinderen met Downsyndroom ervaren dan significant meer problemen met betrekking tot het cognitief functioneren en de schoolprestaties. De daaropvolgende leeftijdsgroep laat geen significante verschillen zien ten opzichte van de controlegroep. De

verschillen bij de kinderen ouder dan twaalf jaar zijn weer significant. De problemen lijken te fluctueren door de jaren heen.

4.3 Conclusie

Over het algemeen genomen is het syndroom van Down van invloed op meerdere gebieden met betrekking tot de kwaliteit van leven. Op gebied van communicatie, sociaal functioneren en motorisch functioneren, maar ook op gebied van cognitief functioneren en het onafhankelijk dagelijks functioneren ondervinden kinderen met Downsyndroom tussen de anderhalf en vijftien jaar oud gemiddeld genomen meer problemen dan zich normaal ontwikkelende kinderen. Daarentegen worden kinderen met Downsyndroom tot zes jaar vaak als actief, levendig en energiek bestempeld waarbij het humeur positief gestemd is. Ook is er aanvankelijk minder sprake van moeilijk en agressief gedrag in vergelijking met zich normaal ontwikkelende kinderen. Een opvallend verschijnsel is dat het kind met Downsyndroom niet meer problemen ervaart op gebied van lichamelijke afwijkingen en gezondheidsproblemen die al eerder werden beschreven. De gezondheidsproblemen lijken in deze groep niet af te wijken ten opzichte van zich normaal ontwikkelende kinderen. Echter zijn de gevonden bevindingen gebaseerd op kleine onderzoeksgroepen. Hierdoor is het beeld dat geschetst is wellicht niet geheel representatief is en is de power lager.

Hoofdstuk 5 De vergelijking tussen spraak, taal en kwaliteit van leven

5.1 Inleiding

In dit hoofdstuk worden de resultaten afkomstig uit de spraak- en taalvragenlijsten in verband gebracht met de schaalscores op de kwaliteit van leven vragenlijsten bij kinderen en adolescenten met Downsyndroom. Alleen de kinderen voor wie beide vragenlijsten zijn ingevuld zijn opgenomen in deze analyses. De groep kinderen met Downsyndroom is opgesplitst in twee leeftijdsgroepen gebaseerd op de twee kwaliteit van leven vragenlijsten. De eerste groep loopt van 1 tot 6 jaar ($n=8$) met een leeftijdsrange van 20 tot 45 maanden ($M=27.25$, $SD=7.89$). De tweede leeftijdsgroep loopt van 6 tot 15 jaar ($n=20$) met een leeftijdsrange van 75 tot 174 maanden ($M=118.56$, $SD=29.99$). Door missing values of door vragen die niet van toepassing waren kan het aantal kinderen in de analyses kleiner zijn (aantal wordt aangegeven met k). Het aantal kinderen per groep is beperkt waardoor de uitkomsten met de nodige voorzichtigheid geïnterpreteerd dienen te worden. Door de geringe aantallen is de power van de statistische analyses beperkt.

Per leeftijdsgroep zijn de antwoorden op de spraak- en taalvragenlijsten vergeleken met die van twee schalen van de kwaliteit van leven vragenlijst. Voor de *Preschool Children's Health-Related Quality of Life* zijn de schalen communicatie en motorisch functioneren vergeleken met de spraak- en taalontwikkeling. Voor de *Children's Health-Related Quality of Life* zijn dit de schalen cognitief functioneren en motorisch functioneren. Voor de *Children's Health-Related Quality of Life* is geen schaal voor communicatie berekend maar zijn de vragen met betrekking tot de communicatie opgenomen en verwerkt in de score voor cognitief functioneren. Bovengenoemde schalen leverden significante verschillen op bij de vergelijking tussen kinderen met Downsyndroom en zich normaal ontwikkelende kinderen, zie hoofdstuk 4. Aannemelijk is dat de schalen communicatie en cognitief functioneren het meest in direct verband staan met de spraak- en taalontwikkeling omdat hier de vragen met betrekking tot het communiceren in opgenomen zijn. De schaal motorisch functioneren omvat ook, zoals eerder beschreven, de fijne motoriek die een belangrijke rol speelt bij de spraakproductie en schrijven. Eerder is gebleken dat er een relatie bestaat tussen de motorische ontwikkeling en de spraak- en taalontwikkeling. Eerder onderzoek van Iverson (2010) heeft aangetoond dat zowel de grove als de fijne motoriek van invloed kan zijn op de spraak- en taalontwikkeling bij zich normaal ontwikkelende kinderen. Vaillant (2013) vond eerder significante correlaties tussen de motoriek en de spraak- en taalvaardigheden bij kinderen met Downsyndroom.

5.2 Kinderen met Downsyndroom van 1 tot 6 jaar

In deze paragraaf worden de resultaten van de *Preschool Children's Health-Related Quality of Life* en van de spraak- en taalvragenlijsten met elkaar vergeleken. In de vergelijking worden alle beschikbare gegevens van kinderen tussen de 1 en 6 jaar oud meegenomen ($k=8$) die zowel de spraak- en taalvragenlijst als de kwaliteit van leven vragenlijst hebben ingevuld.

5.2.1 Communicatie

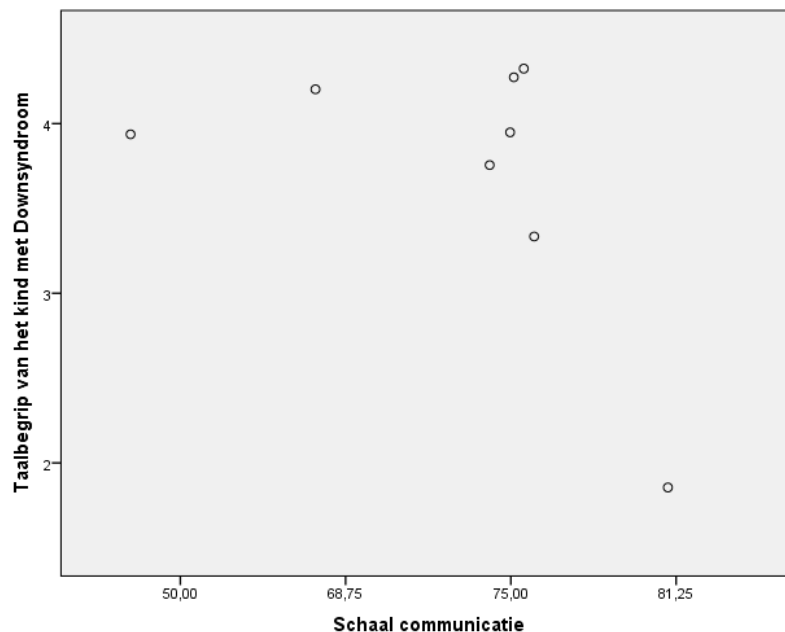
Op het gebied van communicatie waarbij de communicatieve vaardigheden van het kind zijn gemeten in vergelijking met leeftijdsgenootjes blijkt dat deze acht kinderen met Downsyndroom gemiddeld genomen lager scoren ($M=71.88$, $SD=9.45$) dan zich normaal ontwikkelende kinderen ($k=285$) in de controlegroep ($M=91.66$, $SD=9.87$). Dit verschil is significant ($t(291)=-5.832$, $p<0.001$).

Deze kinderen ($k=8$) scoren binnen een beperkt bereik. De scores van deze kinderen lopen namelijk van 50.00 tot 81.25 (de schaal heeft een bereik van 0 tot 100). Deze schaalscores zijn gecorreleerd met de vragen, gesteld in de spraak- en taalvragenlijsten, gericht op het taalbegrip van het kind met Downsyndroom. De score op de schaal communicatie is vergeleken met de vragen “Begrijpt uw kind u als u met hem/haar praat?” en “Begrijpt uw kind andere mensen (van buiten het gezin) als zij met uw kind praten?”. Voor deze vragen lopen de scores op een schaal van 1 tot 5, d.w.z. (1) niet, (2) slecht, (3) redelijk, (4) goed en (5) uitstekend.

Er is geen verband tussen de score op de schaal communicatie en het taalbegrip van het kind met Downsyndroom van de uitingen gesproken door ouders en derden ($r(8)=-0.408$, $p=0.315$). Er moet rekening worden gehouden met het feit dat de schaal voor deze vraag loopt van 1 tot 5 en de antwoorden enkel zijn gekarakteriseerd met 2, 3 en 4, zoals te zien is in figuur 5.1. Vergeleken met de hele groep kinderen met Downsyndroom tot 6 jaar die de spraak- en taalvragenlijsten hebben ingevuld ($k=39$) is deze variatie beperkt. De scores voor de gehele groep variëren over de hele range van 1 tot 5. Ondanks de relatief grote variatie is het taalbegrip van deze 39 kinderen grotendeels als redelijk (3) en als goed (4) bestempeld.

Op alle figuren in hoofdstuk 5 is zowel op de x-as als de y-as jitter toegepast om elk individu zichtbaar te maken in de scatterplot. Hierdoor liggen de punten niet exact, maar rondom de waarden (1) niet, (2) slecht, (3) redelijk, (4) goed en (5) uitstekend. In figuur 5.1 valt op dat voor het kind met een hoge score op de schaal voor communicatie, het taalbegrip van de uiting door derden als slecht (2) is gekarakteriseerd. Tegen alle verwachtingen in

wordt het taalbegrip van het kind met de laagste score op de schaal voor communicatie als goed (4) bestempeld.



Figuur 5.1 Scatterplot van de kwaliteit van leven waardering voor communicatie afgezet tegen het taalbegrip van het kind met Downsyndroom van de uiting gesproken door derden ($k=8$).

Er kon geen correlatie berekend worden tussen de spraakverstaanbaarheid van het kind met Downsyndroom voor zowel ouders als derden en de communicatieve vaardigheden. Dit geldt eveneens voor de begrijpelijkheid van het kind met Downsyndroom voor ouders en derden. Dit betreft de vragen “Verstaat u wat uw kind zegt?”, “Verstaan andere mensen (van buiten het gezin) wat uw kind zegt?”, “Begrijpt u wat uw kind zegt?” en “Begrijpen andere mensen (van buiten het gezin) wat uw kind zegt?”. Op de schaal communicatie hadden alle vijf kinderen eenzelfde score van 75.00.

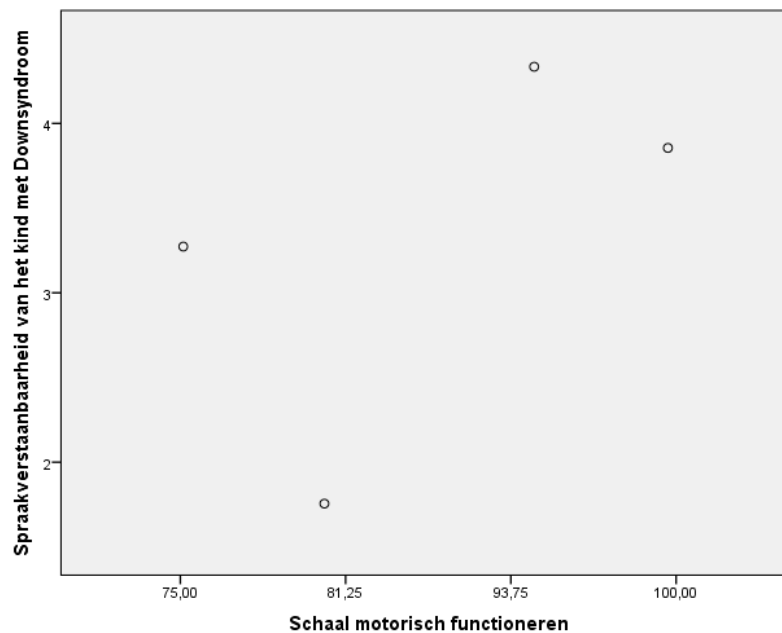
Op de spraak- en taalvragenlijsten lieten de kinderen meer variatie zien lopend van niet (1) tot goed (4). Opvallend is dat een kind dat slecht te verstaan is voor de ouders maar ook een kind dat juist goed te verstaan is beiden tot eenzelfde schaalscore voor communicatie komen op de kwaliteit van leven vragenlijst. De verscheidenheid die op de spraak- en taalvragenlijsten is gerapporteerd wordt niet waargenomen in de score op de schaal communicatie op de kwaliteit van leven vragenlijst. Een mogelijke verklaring hiervoor zou kunnen zijn dat de kwaliteit van leven vragenlijst geen onderscheid maakt tussen ouders en derden en de globale vragen die in de kwaliteit van leven vragenlijst zijn opgenomen. In de kwaliteit van leven vragenlijst is de vraag “Moeite om duidelijke te maken wat het wil?”

gesteld. In dit geval wordt het gebruik van (ondersteunende) non-verbale communicatie ook geaccepteerd. In de spraak- en taalvragenlijsten is specifiek gevraagd naar de verbale communicatie door de vraag “Begrijpt u wat uw kind zegt?” voor te leggen. Kinderen die door middel van non-verbale communicatie duidelijk kunnen maken wat zij willen zullen op de kwaliteit van leven vragenlijst relatief goed scoren in tegenstelling tot de spraak- en taalvragenlijst omdat hier de non-verbale communicatie niet meetelt. Dit zou mogelijk de discrepantie in de scores kunnen verklaren.

5.2.2 *Motorisch functioneren*

Op het gebied van motorisch functioneren scoren de acht kinderen met Downsyndroom gemiddeld genomen lager ($M=81.25$, $SD=11.41$) dan zich normaal ontwikkelende kinderen ($k=289$) ($M=98.49$, $SD=4.44$). Dit verschil is significant ($t(295)= -4.265$, $p<0.001$).

De schaalscores voor het motorisch functioneren zijn gecorreleerd met de vragen gericht op de spraakverstaanbaarheid van het kind voor zowel ouders als voor derden, namelijk “Verstaat u wat uw kind zegt?” en “Verstaan andere mensen (van buiten het gezin) wat uw kind zegt?”. De spraakverstaanbaarheid van het kind met Downsyndroom kan namelijk beïnvloed zijn door verminderde oraal-motorische vaardigheden, een verminderde oraal-motorische planning en articulatieproblemen zoals eerder beschreven in hoofdstuk 3. Vaillant (2013) vond al eerder significante correlaties tussen de motoriek en de spraak- en taalvaardigheden. De schaal motorisch functioneren, die van 0 tot 100 loopt, heeft eveneens een beperkt bereik. De scores blijken te variëren van 75.00 tot 100.00, zoals te zien is in figuur 5.2. De schaalscores voor de hele groep kinderen met Downsyndroom tot 6 jaar die de *Preschool Children's Health-Related Quality of Life* hebben ingevuld ($k=14$) variëren van 68.75 tot 100.00.



Figuur 5.2 Scatterplot van de kwaliteit van leven waardering voor het motorisch functioneren afgezet tegen de spraakverstaanbaarheid van het kind met Downsyndroom voor ouders ($k=4$).

De vraag gericht op de spraakverstaanbaarheid was alleen van toepassing op kinderen die (beperkt) spreken. Dit maakt $k=4$. De resultaten laten geen verband zien tussen het motorisch functioneren en de spraakverstaanbaarheid van het kind met Downsyndroom voor ouders ($r(4)=0.763$, $p=0.237$). In figuur 5.2 is wel te zien dat een hoge waardering voor het motorisch functioneren wellicht leidt tot een hogere karakterisering van de spraakverstaanbaarheid. Er is ook geen verband tussen het motorisch functioneren en de spraakverstaanbaarheid van het kind met Downsyndroom voor derden ($r(4)=0.365$, $p=0.635$). Hierbij moet rekening worden gehouden met de kleine aantallen en met het feit dat de variatie op beide vragenlijsten beperkt is.

Deze acht kinderen hebben de schrijfvaardigheid nog niet ontwikkeld. Ze zijn te jong (<6 jaar) en hebben nog niet deelgenomen aan het lees- en schrijfonderwijs in Nederland.

5.3 Kinderen met Downsyndroom van 6 tot 15 jaar

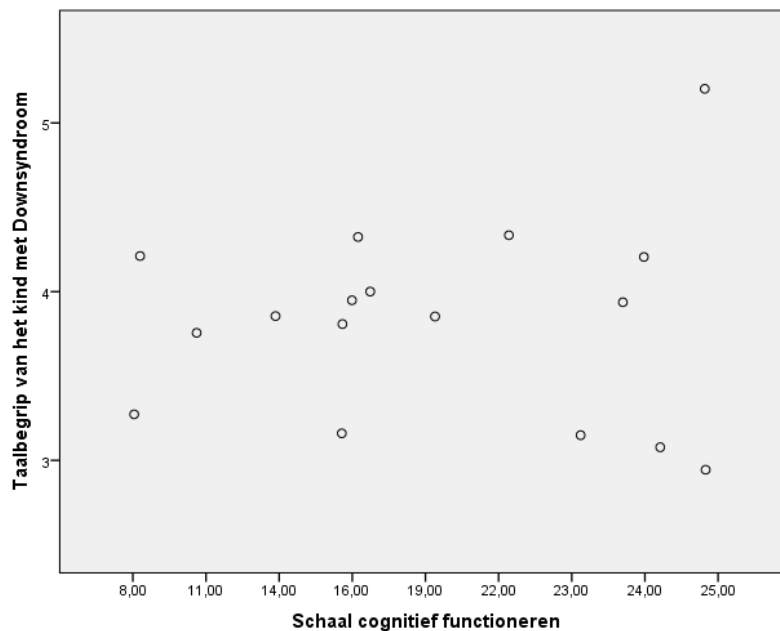
In deze paragraaf worden de resultaten van de *Children's Health-Related Quality of Life* en van de spraak- en taalvragenlijsten met elkaar vergeleken. In de vergelijking worden alle beschikbare gegevens van kinderen tussen de 6 en 15 jaar oud meegenomen ($k=20$) die beide vragenlijsten hebben ingevuld.

5.3.1 Cognitief functioneren

Op het gebied van cognitief functioneren scoren kinderen met Downsyndroom ($k=17$) gemiddeld genomen lager ($M=18.06$, $SD=5.77$) op de *Children's Health-Related Quality of Life* dan de controlegroep ($n=1094$) ($M=28.43$, $SD=3.93$). Dit verschil is significant ($t(1109)=-7.384$, $p<0.001$). Zoals eerder beschreven worden de scores op de schaal voor cognitief functioneren gecorreleerd met de antwoorden op de spraak- en taalvragenlijsten. In de kwaliteit van leven vragenlijst zijn ook vragen gesteld als 'Moeite met begrijpen van schoolwerk?' en 'Moeite met begrijpen wat anderen zeiden?'.

De schaal cognitief functioneren, die loopt van 0 tot 32, heeft een redelijk bereik. De scores van deze zeventien kinderen lopen uiteen van 8.00 tot 25.00. De scores voor de hele groep kinderen met Downsyndroom tot 15 jaar die de *Children's Health-Related Quality of Life* hebben ingevuld ($k=30$) komen overeen en variëren van 8.00 tot 28.00. De schaalscores zijn gecorreleerd met de vragen "Begrijpt uw kind u als u met hem/haar praat?" en "Begrijpt uw kind andere mensen (van buiten het gezin) als zij met uw kind praten?", die zijn opgenomen in de spraak- en taalvragenlijsten. Er is geen verband tussen het cognitief functioneren en het taalbegrip van het kind met Downsyndroom van de uitingen gesproken door ouders ($r(17)=-0.024$, $p=0.928$). Hierbij moet rekening worden gehouden met het feit dat de schaal voor deze vraag loopt van 1 tot 5 en de antwoorden slechts variëren tussen 3 en 5. Voor twee derde van de kinderen is het taalbegrip gekarakteriseerd als goed (4), zie figuur 5.3.

Opvallend is dat voor een aantal kinderen die een relatief hoge waardering hebben op het gebied van cognitief functioneren (23.00, 24.00 en 25.00), de score voor het taalbegrip van de uiting door ouders als redelijk (3) wordt gekarakteriseerd. Eén kind met een hoge score van 25.00 op de schaal voor cognitief functioneren behaalt ook de hoogst mogelijke karakterisering van het taalbegrip. Opmerkelijk is verder dat het taalbegrip van het kind met de laagste waardering voor het cognitief functioneren (8.00) als goed (4) is bestempeld.



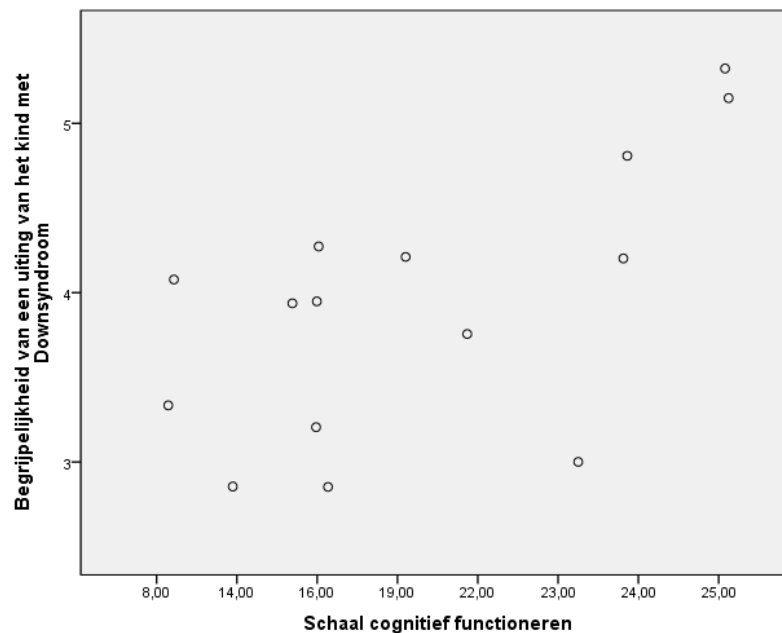
Figuur 5.3 Scatterplot van de kwaliteit van leven waardering voor cognitief functioneren afgezet tegen het taalbegrip van het kind met Downsyndroom van de uiting gesproken door ouders ($k=17$).

Er is ook geen verband tussen het cognitief functioneren en het taalbegrip van het kind met Downsyndroom van de uitingen gesproken derden ($r(17)=-0.199$, $p=0.444$). Opvallend is dat voor één kind het taalbegrip als slecht (2) is gekarakteriseerd ondanks de relatief hoge score op de schaal voor cognitief functioneren (24.00).

De score op de schaal voor cognitief functioneren is eveneens gecorreleerd met de scores voor de spraakverstaanbaarheid van het kind met Downsyndroom verkregen met behulp van de spraak- en taalvragenlijsten. De vragen “Verstaat u wat uw kind zegt?” en “Verstaan andere mensen (van buiten het gezin) wat uw kind zegt?” zijn voorgelegd aan de ouders. Er is geen verband tussen het cognitief functioneren en de spraakverstaanbaarheid van het kind voor ouders ($r(15)=0.305$, $p=0.269$). Hierbij moet rekening worden gehouden met het feit dat de schaal voor deze vraag loopt van 1 tot 5 en de spraakverstaanbaarheid voornamelijk als redelijk (3) en goed (4) is gekarakteriseerd. Er is ook geen verband tussen het cognitief functioneren en de spraakverstaanbaarheid van het kind voor derden ($r(15)=0.308$, $p=0.265$).

Tot slot zijn de schaalscores gecorreleerd met de vragen “Begrijpt u wat uw kind zegt?” en “Begrijpen andere mensen (van buiten het gezin) wat uw kind zegt?”. Er is sprake van een positief verband tussen het cognitief functioneren en de begrijpelijkheid van een uiting van het kind voor ouders ($r(15)=0.565$, $p=0.028$). Desondanks moet ook hier rekening worden gehouden met de beperkte variatie. De hele groep kinderen met Downsyndroom die

de *Children's Health-Related Quality of Life* ($k=29$) hebben ingevuld laten eenzelfde variatie zien van goed (3) tot uitstekend (5). In figuur 5.4 is in grote lijnen de samenhang terug te zien tussen de scores op de schaal voor cognitief functioneren en de scores voor de begrijpelijkheid van een uiting van het kind met Downsyndroom voor ouders. Relatief hoge schaalscores voor cognitief functioneren leiden tot een hogere karakterisering van de begrijpelijkheid en omgekeerd. Er is echter geen verband tussen het cognitief functioneren en de begrijpelijkheid van een uiting van het kind voor derden ($r(15)=0.444$, $p=0.098$).



Figuur 5.4 Scatterplot van de kwaliteit van leven waardering voor het cognitief functioneren afgezet tegen de begrijpelijkheid van een uiting van het kind met Downsyndroom voor ouders ($k=15$).

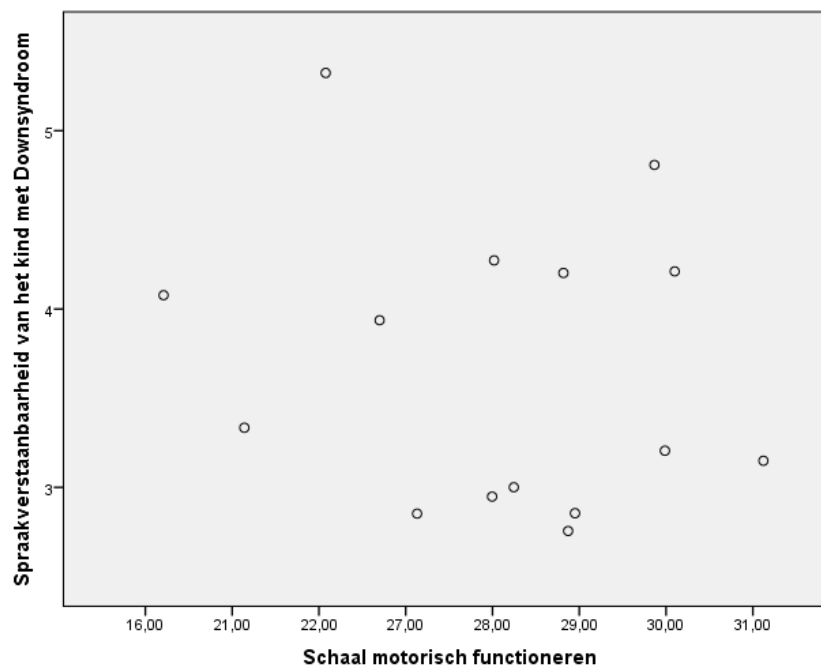
5.3.2 Motorisch functioneren

Op het gebied van motorisch functioneren scoren de zeventien kinderen met het syndroom van Down gemiddeld genomen lager ($M=26.65$, $SD=4.14$) dan de controlegroep ($n=1094$) ($M=29.81$, $SD=3.22$). Dit verschil is significant ($t(1109)= -3.132$, $p=0.003$).

De schaalscores voor het motorisch functioneren zijn gecorreleerd met de vraag gericht op de spraakverstaanbaarheid van het kind met Downsyndroom voor zowel ouders als voor derden. De vragen “Verstaat u wat uw kind zegt?” en “Verstaan andere mensen (van buiten het gezin) wat uw kind zegt?” zijn aan de ouders voorgelegd in de spraak- en taalvragenlijsten. De schaal motorisch functioneren, die van 0 tot 32 loopt, heeft een beperkt bereik. De scores variëren van 16.00 tot 31.00, zoals te zien is in figuur 5.5. Ook voor de hele

groep kinderen die de *Children's Health-Related Quality of Life* ($k=31$) hebben ingevuld lopen de scores uiteen van 16.00 tot 31.00.

De resultaten laten geen verband zien tussen het motorisch functioneren en de spraakverstaanbaarheid van het kind met Downsyndroom voor ouders ($r(15)=-0.211$, $p=0.451$). In figuur 5.5 is te zien dat een hogere waardering voor het motorisch functioneren niet direct leidt tot een hogere karakterisering van de spraakverstaanbaarheid. Twee kinderen voor wie de spraakverstaanbaarheid als uitstekend (5) is gekarakteriseerd hebben een relatief lage en een relatief hoge score op de schaal voor motorisch functioneren. Ook is er geen verband tussen het motorisch functioneren en de spraakverstaanbaarheid van het kind met Downsyndroom voor derden ($r(15)=0.049$, $p=0.862$).



Figuur 5.5 Scatterplot van de kwaliteit van leven waardering voor het motorisch functioneren afgezet tegen de spraakverstaanbaarheid van het kind met Downsyndroom voor ouders ($k=15$).

5.4 Conclusie

Er zijn nauwelijks verbanden aangetoond tussen de spraak- en taalvragenlijsten en de schalen die zijn berekend op basis van de kwaliteit van leven vragenlijsten. Het betreft hier twee kleine onderzoeksgroepen met een beperkte variatie waardoor de uitkomsten met enige voorzichtigheid geïnterpreteerd dienen te worden. Er is alleen een verband gevonden tussen het cognitief functioneren en de begrijpelijkheid van een uiting van het kind voor ouders bij kinderen tussen de 6 en 15 jaar ($p=0.028$). Waarschijnlijk door de geringe aantallen en de

beperkte variatie zijn de gevonden verbanden minimaal. Er is sprake van een lagere correlatie en daarbij is de power beperkter. Ook is er sprake van discrepantie tussen de scores op de spraak- en taalvragenlijsten en de kwaliteit van leven vragenlijsten. Ouders lijken niet altijd een consistent beeld te schetsen. Een verklaring hiervoor zou de vraagstelling kunnen zijn. Tevens gaat het om gerapporteerd gedrag door ouders waarbij hun denkbeeld kan wisselen in de loop van de tijd.

Op dit moment zijn alleen de schalen met betrekking op de communicatie en het motorisch functioneren in verband gebracht met de scores op de spraak- en taalvragenlijsten. Ook het betrekken van de sociaal-emotionele en gedragsmatige aspecten is interessant. Kinderen met Downsyndroom kunnen mogelijk als gevolg van de spraak- en taalproblematiek meer problematisch gedrag laten zien. Het analyseren en verwerken van de Child Behavior Checklist zou hier een gepast startpunt zijn om vervolgens de gegevens in verband te brengen met de antwoorden op spraak- en taalvragenlijsten.

Hoofdstuk 6 Discussie en conclusie

In deze masterscriptie is de spraak- en taalontwikkeling van kinderen maar ook adolescenten met het syndroom van Down in kaart gebracht aan de hand van eerder ontwikkelde vragenlijsten. Het onderzoek bestond uit vier delen die afzonderlijk van elkaar zijn beschreven: 1) een literatuurstudie met als doel de algemene problematiek en de spraak- en taalontwikkeling bij kinderen met Downsyndroom in kaart te brengen, 2) het uitwerken van de resultaten van eerder ontwikkelde spraak- en taalvragenlijsten voor kinderen en adolescenten met Downsyndroom, 3) het uitwerken van de resultaten van de kwaliteit van leven vragenlijsten, en 4) het beschrijven van de eventuele samenhang tussen de resultaten afkomstig uit de spraak- en taalvragenlijsten en de kwaliteit van leven vragenlijsten.

Het eerste deel betrof de literatuurstudie naar de algemene problematiek en de spraak- en taalontwikkeling bij kinderen met Downsyndroom. De algemene problematiek en de ontwikkeling op gebied van spraak, taal en geletterdheid is beschreven aan de hand van de bestaande literatuur. Hieruit bleek dat kinderen met Downsyndroom een verhoogde kans op diverse lichamelijke afwijkingen en gezondheidsproblemen hebben waarvan hartproblematiek het meest voorkomend is. Kinderen met Downsyndroom ondergaan vaak al op jonge leeftijd een operatie. Afwijkingen zoals gehoorproblemen, visusproblemen en problemen met betrekking tot de motoriek kunnen negatief van invloed zijn op de spraak- en taalontwikkeling zijn. Op het gebied van spraak en taal blijkt dat het productief taalgebruik bij Downsyndroom sterker is vertraagd en aangedaan dan de receptieve vaardigheden. De taal is voornamelijk zwakker op het gebied van de spraakverstaanbaarheid, syntaxis en morfologie. Kinderen met Downsyndroom beginnen veelal later met praten dan zich normaal ontwikkelende kinderen. Het uiten van het eerste woordje is vaak vertraagd en de vroege productieve woordenschatgroei is langzaam. De woordenschatspurt vindt later plaats of blijft soms helemaal uit. Daarnaast produceren kinderen met Downsyndroom veelal kortere en eenvoudiger zinnen. Over het algemeen produceren zij minder grammaticale werkwoorden in een uiting. Ook de verminderde articulatie en spraakverstaanbaarheid vormen een groot probleem in de communicatie, een probleem dat voor sommigen levenslang een rol zal spelen. Het gecombineerde effect van het spreken in telegramstijlzinnen en de verminderde articulatie zorgt ervoor dat kinderen met Downsyndroom moeilijk worden begrepen. Deze beperkingen in de verbale communicatie worden deels ondervangen door een goed ontwikkelde non-verbale communicatie. Gebaren worden veelal (als ondersteuning) ingezet om de boodschap duidelijk te maken. De communicatiemogelijkheden worden op een latere

leeftijd uitgebreid door het leren lezen en schrijven. De leesvaardigheden zijn hierbij vaak beter ontwikkeld dan de schrijfvaardigheden. De groep kinderen en adolescenten met Downsyndroom kent individuele verschillen waardoor er sprake is van een grote variabiliteit in de spraak- en taalontwikkeling.

In het tweede deel van de scriptie zijn de resultaten van de eerder ontwikkelde spraak- en taalvragenlijsten geanalyseerd. De taalscreeningvragenlijst bij aanvang ontwikkeld door Vaillant (2013) en de instapvragenlijsten ontwikkeld door Sonneveld (2016) zijn uitgezet onder de ouders van kinderen en adolescenten met Downsyndroom die vrijwillig deel hebben genomen aan de digitale patiëntenregistratie DigiDown. Uit deze drie vragenlijsten blijkt dat de kinderen en adolescenten met Downsyndroom gemiddeld genomen niet hetzelfde niveau bereiken als zich normaal ontwikkelende kinderen van eenzelfde leeftijd. De ontwikkeling op verschillende spraak- en taalgebieden verloopt vertraagd. De resultaten komen overeen met de eerder beschreven literatuur en de grote SDS enquête. De kinderen met Downsyndroom beginnen doorgaans later met het spreken van hun eerste woord of communiceren enkel non-verbaal. De kinderen die deel hebben genomen aan de patiëntenregistratie DigiDown spraken hun eerste woordje met een gemiddelde leeftijd van 21.6 maanden. De Graaf (2011) vond eerder op basis van de SDS enquête dat vijftig procent van de kinderen rond de 20 maanden het eerste woordje sprak en Roberts e.a. (2007) rapporteerden een leeftijd van 21 maanden. Het belang van gebaren is in de eerste levensjaren van groot belang maar neemt naarmate de kinderen ouder worden af. Tot een leeftijd van twee jaar spreekt 42.3 procent van de deelnemende kinderen aan DigiDown nog niet. De Graaf (2011) vond in de SDS enquête dat 42 procent van de kinderen tot twee jaar nog niet spreekt; daarnaast sprak 58 procent in eenwoordzinnen. Voor de kinderen deelnemend aan de patiëntenregistratie DigiDown ligt het percentage voor eenwoordzinnen aanzienlijk lager met 8 procent. Kanttekening hierbij is het kleine aantal respondenten ($k=10$). Het merendeel van de kinderen ondervindt problemen in het communiceren waarbij beperkingen in de spraakverstaanbaarheid maar ook het begrijpelijk vertellen van invloed zijn. Het begrijpelijk vertellen wordt onder andere beïnvloed door de vertraagde zinsontwikkeling. Kinderen met Downsyndroom produceren gedurende een lange periode tweewoordzinnen. Die situatie neemt slechts langzaam af. Het produceren van samengestelde zinnen en bijzinnen komt pas op latere leeftijd op gang en komt geringer voor. Kinderen en adolescenten met Downsyndroom worden gemiddeld genomen beter begrepen door hun ouders dan door derden. Op het gebied van geletterdheid scoren de deelnemende kinderen aan DigiDown aanzienlijk lager dan de kinderen in het

eerdere onderzoek van De Graaf & De Graaf (2011b). De schrijfvaardigheden zijn sterker aangedaan. Het merendeel van de kinderen komt niet verder dan het schrijven van woorden. De leesvaardigheid neemt toe tot een jaar of dertien à veertien. Hierna lijkt de leesvaardigheid weer af te nemen. Waarschijnlijk is deze achteruitgang te wijten aan het verlaten van het basisonderwijs waardoor de continue stimulatie van de schoolse vaardigheden wegvalt.

In het derde deel van de scriptie zijn de resultaten van de kwaliteit van leven vragenlijsten geanalyseerd. Zowel de *Preschool Children's Health-Related Quality of Life* als de *Children's Health-Related Quality of Life* zijn uitgezet om de gezondheidsgelateerde kwaliteit van leven bij kinderen met Downsyndroom in kaart te brengen. Eerder werden al diverse mogelijke lichamelijke afwijkingen en gezondheidsproblemen beschreven zoals hartafwijkingen, afwijkingen in het maag- en darmkanaal maar ook problemen met de luchtwegen. Opvallend is dat deze problematiek niet wordt gerapporteerd in de kwaliteit van leven vragenlijsten. De groep kinderen met Downsyndroom ondervindt niet meer lichamelijke problemen ten opzichte van de controlegroep. Een mogelijke verklaring hiervoor zou kunnen zijn dat het om gerapporteerd gedrag van de ouders gaat waarbij de licht tot matige problemen niet worden genoemd. Ook wordt er in de kwaliteit van leven vragenlijsten niet specifiek gevraagd naar de frequent voorkomende problematiek bij Downsyndroom zoals hartproblemen, gehoorproblemen en visusproblemen. Wellicht worden hierdoor niet alle aanwezige lichamelijke problemen gesignaleerd en gerapporteerd en geeft de schaal geen realistisch beeld. Wel bleek dat kinderen vanaf 1;6 jaar een lagere waardering voor communicatie krijgen dan zich normaal ontwikkelende kinderen en dat geldt ook voor het motorisch functioneren ($p < 0.001$). Ook in de literatuur wordt verondersteld dat de eerste verschillen zich voordoen na het eerste levensjaar. Deze verschillen worden duidelijk na de brabbelperiode doordat het eerste woord vaak vertraagd is (De Graaf, 2011; Roberts e.a., 2007). Kinderen met Downsyndroom zijn vaker positief gestemd, actiever en meer levendig en energiek. Ook is er minder vaak sprake van problematisch gedrag in vergelijking met zich normaal ontwikkelende kinderen. Vaillant (2013) vond geen verband tussen de schalen 'lezen', 'schrijven' en 'receptieve taalvaardigheden' in vergelijking met 'depressief gedrag' ($r(93) = -0.189$, $p = 0.069$) voor kinderen tussen de 6;5 en 11;49 jaar. Er was wel sprake van een verband tussen de schalen 'expressieve taalvaardigheden', 'woordenschat en zinsbouw' en 'verstaanbaarheid' ($r(98) = 0.330$, $p = 0.001$) voor kinderen tussen de 6;5 en 11;49 jaar. Vanaf 6 jaar openbaren zich meer problemen op diverse gebieden met betrekking tot de kwaliteit van leven. De positieve stemmingen van kinderen met Downsyndroom zetten zich voort. De

lagere waardering in vergelijking met zich normaal ontwikkelende kinderen voor het cognitief functioneren wordt hier voor het eerst gerapporteerd ($p < 0.001$). Logischerwijs is dit een voortzetting van de problemen op de schaal voor communicatie voor kinderen met Downsyndroom tot 6 jaar. De schaal voor cognitief functioneren is onder andere berekend op grond van vragen die gericht zijn op de spraak en taal. De problemen die zich vanaf 1;6 jaar in de communicatie voordoen lijken zich voort te zetten en worden ook waargenomen bij kinderen tussen de 6 en 15 jaar oud. Vanaf 6 jaar is de waardering voor het zelfstandig functioneren lager in vergelijking met de controlegroep ($p < 0.001$). Het zelfstandig functioneren kan mogelijk beïnvloed zijn door de spraak- en taalproblemen waardoor de communicatieve zelfredzaamheid onvoldoende is. Door de grote variabiliteit kent de groep kinderen met Downsyndroom ook personen die wel in staat zijn om (grotendeels) onafhankelijk deel te nemen aan de maatschappij. Toch is er ook een grote groep kinderen die hulpbehoevend blijft. De resultaten zijn echter gebaseerd op kleine onderzoeksgroepen waardoor het beeld dat is geschetst met enige voorzichtigheid geïnterpreteerd dient te worden.

De resultaten van de twee soorten vragenlijsten zijn tot slot samengevoegd en waar mogelijk met elkaar in verband gebracht. Het betrof twee kleine onderzoeksgroepen met een beperkte variatie waardoor ook hier de uitkomsten wederom met enige voorzichtigheid geïnterpreteerd dienen te worden. Door de geringe aantallen is de power van de statistische analyses beperkt. De schalen communicatie, cognitief functioneren en ook motorisch functioneren zijn vergeleken met de spraak- en taalontwikkeling. Er is alleen een verband gevonden tussen het cognitief functioneren en de begrijpelijkheid van een uiting van het kind voor ouders bij kinderen tussen de 6 en 15 jaar ($p = 0.028$). Waarschijnlijk door de geringe aantallen en de beperkte variatie ten opzichte van de gehele groep kinderen met Downsyndroom is er sprake van een lagere correlatie en is de power beperkter. Opmerkelijk is dat ouders niet tot eenduidige scores komen voor beide vragenlijsten. Voor sommige kinderen die een hoge score behalen op de schaal voor communicatie blijkt er sprake van een slecht ontwikkeld taalbegrip of spraakverstaanbaarheid. Een verklaring voor deze discrepantie zou kunnen zijn dat de vragen in beide vragenlijsten niet hetzelfde zijn of anders geformuleerd. Daarnaast gaat het om gerapporteerd gedrag door de ouders waarbij hun denkbeeld en interpretatie kunnen wisselen in de loop van de tijd.

Sonneveld (2016) beschreef eerder de meerwaarde van longitudinaal onderzoek omdat kinderen met Downsyndroom zich vertraagd ontwikkelen en vanwege de grote individuele verschillen. Longitudinaal onderzoek is niet alleen bruikbaar voor verklarend, maar ook voor

vergelijkend onderzoek. Sonneveld (2016) veronderstelt dat wanneer de instap- en de vervolgvragenlijsten consequent worden uitgezet er een longitudinaal beeld geschetst kan worden van de spraak- en taalontwikkeling van het kind of de adolescent met Downsyndroom. In deze scriptie zijn enkel haar instapvragenlijsten geanalyseerd die in het najaar van 2016 zijn uitgezet. Er zijn geen resultaten van de vervolgvragenlijsten beschikbaar omdat deze vanwege de periode van toetsing nog niet zijn uitgezet onder de deelnemende kinderen aan DigiDown. In het kader van deze scriptie kunnen de resultaten die uit de vervolgvragenlijsten naar voren zullen komen niet meer worden verwerkt. De verwachting is dat het beeld en het verloop duidelijker zullen worden naarmate meer gegevens zullen worden verkregen. Op het moment dat er meer longitudinale gegevens beschikbaar komen kan het verloop en de ontwikkeling van de spraak en taal bij Downsyndroom beter in kaart worden gebracht. De ontwikkelingen op latere leeftijd kunnen interessante gegevens opleveren.

De spraak- en taal vragenlijsten, maar ook de kwaliteit van leven vragenlijsten zijn enkel uitgezet onder de ouders van de kinderen en adolescenten met Downsyndroom. Om in de toekomst een nauwkeuriger beeld te krijgen van de spraak- en taalontwikkeling en daarmee de communicatie, zou ook direct onderzoek gedaan kunnen worden naar de ervaringen van derden (leerkrachten, vrienden, kennissen, et cetera) door hen een variant van de instapvragenlijst voor te leggen. Mogelijk dat derden de vragen objectiever beoordelen in vergelijking met de ouders. Ook kan er direct onderzoek gedaan worden naar de spraak- en taalontwikkeling van het kind met Downsyndroom om factoren die het objectief beoordelen kunnen beïnvloeden uit te sluiten. Ouders beschikken over minder deskundige kennis en hebben over het algemeen de neiging om minder objectief naar hun kind te kijken. Door gericht onderzoek kan worden nagegaan of de resultaten van de vragenlijsten overeenstemmen met de resultaten van een deskundige.

De instapvragenlijsten ontwikkeld door Sonneveld (2016) zijn niet gezamenlijk met de ouders geëvalueerd maar een enkele ouder heeft een opmerking achtergelaten aan het einde van deze vragenlijst. Opvallende opmerkingen die naar voren kwamen zijn: “Het communicatie hoofdstuk is vaag, een Downer communiceert nu eenmaal minder makkelijk”, “Onze dochter is net 1 jaar geworden. En deze vragen zijn niet op haar van toepassing”, “Mijn kind communiceert naar anderen middels het maken van geluiden en heel slecht uitgesproken woorden. Dat non-verbale stuk mis ik in de mogelijke antwoorden”, maar ook “Meeste vragen moeilijk te beantwoorden omdat zoon nog te jong is” en “Kind is nog te jong om te kunnen lezen of schrijven”. Voor een vervolgstudie naar de spraak- en taalontwikkeling bij

kinderen en adolescenten met Downsyndroom zou het interessant zijn om de vragenlijst nog meer toe te spitsen op de jongere kinderen (< 2 jaar) of om hier een aparte vragenlijst voor te ontwikkelen. Ouders zullen hierdoor de mogelijkheid krijgen om de vroege spraak- en taalontwikkeling nauwkeuriger te beschrijven waarbij de non-verbale communicatie meer centraal kan staan.

Ook heeft Sonneveld (2016) een aantal aanbevelingen gedaan die van kracht blijven. Zoals zij eerder beschreef blijft het belangrijk de resultaten actief te volgen en te observeren hoe de vragenlijsten in de praktijk uitvallen. Uit de instapvragenlijsten komen op dit moment de eerste punten van kritiek naar voren. Ook is het interessant om te noteren of er in de loop der jaren uitval onder de participanten optreedt doordat ouders wellicht de vragenlijst om verscheidene redenen liever niet meer in willen vullen. Door te luisteren naar de opmerkingen en de aanbevelingen die door de ouders worden gedaan en deze waar nodig te implementeren, kan een vragenlijst worden bewerkstelligd die past bij de behoeften en de wensen van de ouders. Hopelijk wordt er in de toekomst meer bekend over het verloop van de spraak- en taalontwikkeling waarbij met feedback van ouders en derden gewerkt kan worden aan nog meer specifieke vragenlijsten om deze ontwikkeling zo nauwkeurig mogelijk in kaart te brengen. Daarbij zou het uitzetten van de vervolgvragenlijsten een interessante stap zijn. Ook het betrekken van de sociaal-emotionele en gedragsmatige aspecten, mogelijk als gevolg van spraak- en taalmoeilijkheden is interessant. Wellicht dat kinderen het onvermogen tot communiceren uiten in hun stemming of gedrag. Het analyseren en verwerken van de Child Behavior Checklist zou hier een gepast startpunt voor kunnen zijn.

Referenties

- Abbeduto, L., Warren, S.F. & Conners, F.A. (2007). Language development in Down syndrome: from the prelinguistic period to the acquisition of literacy. *Mental Retardation and Developmental Disabilities*, 13(3), 247-261.
- Alcock, K. (2006). The development of oral motor control and language. *Down Syndrome Research and Practice*, 11(1), 1-8.
- Berglund, E., Eriksson, M. & Johansson, I. (2001). Parental reports of spoken language skills in children with Down syndrome. *Journal of Speech, Language and Hearing Research*, 44, 179-191.
- Beuker, K.T., Rommelse, N.N.J., Donders, R. & Buitelaar, J.K. (2013). Development of early communication skills in the first two years of life. *Infant Behavior and Development*, 36(1), 71-83.
- Bittles, A.H., Bower, C., Hussain, R. & Glasson, E.J. (2006). The four ages of Down syndrome. *European Journal of Public Health*, 17(2), 221-225.
- Borstlap R., Gamen-Oosterom, H.B.M. van, Lincke, C., Weijerman, M.E., Wieringen, H. & Wouwe, J.P. van. (2011). *Een update van de multidisciplinaire richtlijn voor de medische begeleiding van kinderen met Downsyndroom*. Geraadpleegd van <https://www.tno.nl/media/1934/richtlijn-downsyndroom-dec-2011-definitief.pdf>
- Borstlap, R., Nijenhuis, Th.A., Siderius, E.J. & Wouwe, P. van. (2000). Optimale medische begeleiding van kinderen met het syndroom van Down. *Tijdschrift voor kindergeneeskunde*, 68(5), 60-64.
- Bosch, H. (2012). Vijf fasen van leesontwikkeling in Leespraat. *Down + Up*, 97, 26-29.
- Bray, M. (2007). Speech production in people with Down syndrome. *Down Syndrome Research and Practice*.
- Buckley, S. (2000). *Speech and language development for individuals with Down syndrome – an overview*. Southsea (United Kingdom): Down Syndrome Educational Trust.
- Buckley, S. & Bird, G. (1993). Teaching children with Down's syndrome to read. *Down Syndrome Research and Practice*, 1(1), 34-39.
- Buckley, S., Bird, G., Sacks, B. & Archer, T. (2002). The achievements of teenagers with Down syndrome. *Down Syndrome News and Update*, 2(3), 90-96.

- Buma, J. & Beesems, M. (2005). Leren lezen om te leren spreken. Stimulatie van spraak- en taalontwikkeling bij kinderen met Downsyndroom. *Logopedie en foniatrie*, 12, 396-400.
- Buma, J. & Roost-van Steen, J. (2008). Lezen als motor voor het praten. *Down + Up*, 84, 49-53.
- Castro, P., Zaman, S. & Holland, A.J. (2017). Alzheimer's disease in people with Down's syndrome: the prospects for and the challenges of developing preventative treatments. *Journal of Neurology*, 264(4), 804-813.
- Cleland, J., Wood, S., Hardcastle, W., Wishart, J. & Timmins, C. (2010). Relationship between speech, oromotor, language and cognitive abilities in children with Down's syndrome. *International Journal of Language and Communication Disorders*, 45(1), 83-95.
- Coppus, A.M.W. & Wagemans, A.M.A. (2014). De zorg voor volwassenen met downsyndroom. *Huisarts & Wetenschap*, 57(8), 420-424.
- Devlin, L. & Morrison, P.J. (2004). Accuracy of the clinical diagnosis of Down Syndrome. *The Ulster Medical Journal*, 73(1), 4-12.
- Down, J.L. (1866). Observations on an ethnic classification of idiots. *London Hospital Clinical Lectures and Reports*, 3, 259-262.
- Fekkes, M., Bruil, J. & Vogels, T. (2004). *TAPQOL-manual*. Leiden: Leiden Center for Child Health and Pediatrics LUMC-TNO
- Gameren-Oosterom, H.B.M., Fekkes, M., Buitendijk, S.E., Mohangoo, A.D. & Bruil, J. (2011). Development, Problem Behavior, and Quality of Life in a Population Based Sample of Eight-Year-Old-Children with Down Syndrome. *PLoS ONE*, 6(7).
- Gernsbacher, M.A., Sauer, E.A., Geye, H.M., Schweigert, E.K. & Hill Goldsmith, H. (2008). Infant and toddler oral- and manual-motor skills predict later speech fluency in autism. *Journal of Child Psychology and Psychiatry, and Allied Disciplines*, 49(1), 43-50.
- Goemans, B.F., Kollen, W.J.W., Haas, V. de & Zwaan, C.M. (2016). Hematologische afwijkingen bij kinderen met Downsyndroom. *Nederlands Tijdschrift voor Hematologie*, 13(1), 3-9
- Graaf, E. de. (2001). Leesvaardigheden van kinderen met Downsyndroom. *Down + Up*, 54, 1-12.

- Graaf, E. de. (2005). Kinderen met Downsyndroom. Hoe krijgen we ze aan de praat? *Logopedie en foniatrie*, 12, 368-372.
- Graaf, G. de. (2007). Onderwijs aan leerlingen met Downsyndroom. Deel 2: het effect van schoolplaatsing op de ontwikkeling. *Down + Up*, 80, 37-54.
- Graaf, G. de. (2013). Brillen en kinderen met Downsyndroom. *Down + Up*, 102, 42-44.
- Graaf, G. de & Borstlap, R. (2009). Downsyndroom vademecum. SDS.
- Graaf, G. de, Borstlap, R., & Graaf, E. de (2010). Medische aspecten bij Downsyndroom. *Down + Up*, 92, 40-51.
- Graaf, G. de & Graaf, E. de. (2011a). Vroegkinderlijke ontwikkeling en Early Intervention. *Down + Up*, 94, 38-41.
- Graaf, G. de & Graaf, E. de. (2011b). De ontwikkeling van kinderen met Downsyndroom. *Down + Up*, 96, 41-53.
- Graaf, G. de, Hove, G. van. & Haveman, M. (2013). Leren lezen in regulier en speciaal onderwijs. Een longitudinaal onderzoek naar leerlingen met Downsyndroom. *Down + Up*, 104, 37-41.
- Iverson, J.M. (2010). Developing language in a developing body: the relationship between motor development and language development. *Journal of Child Language*, 37(2), 229-261.
- Kazemi, A., Shojaei, R. & Sadighi, F. (2016). First Language Acquisition in Children with Down syndrome. *Modern Journal of Language Teaching Methods*, 6(2), 342-348.
- Kumin, L. (1994). Intelligibility of speech in children with Down syndrome in natural settings: parents' perspective. *Perceptual and Motor Skills*, 78(1), 307-313.
- Kumin, L. (2006). Speech intelligibility and childhood verbal apraxia in children with Down syndrome. *Down Syndrome Research and Practice*, 10(1), 10-22.
- Kumin, L. & Adams, J. (2000). Developmental apraxia of speech intelligibility in children with Down syndrome. *Down Syndrome Quarterly*, 5(3), 1-6
- Laws, G. & Hall, A. (2014). Early hearing loss and language abilities in children with Down syndrome. *International Journal of Language and Communication Disorders*, 49(3), 333-342.

- Lejeune, J., Gautier, M. & Turpin, R. (1959). Etude des chromosomes somatiques de neuf enfants mongoliens. *Comptes Rendus Hebdomadaires des Seances de l'Academie des Sciences*, 248(11), 1721-1722.
- Loveall, S.J., Channell, M.M., Phillips, B.A., Abbeduto, L. & Conners, F.A. (2016). Receptive vocabulary analysis in Down syndrome. *Research in Developmental Disabilities*, 55, 161-172.
- Moura, C.P., Cunha, L.M, Vilarinho, H., Cunha, M.J., Freitas, D., Palha, M., Pueschel, S.M. & Pais-Clemente, M. (2008). Voice parameters in children with Down syndrome. *Journal of Voice*, 22(1), 34-42.
- Roberts, J.E., Price, J. & Malkin, C. (2007). Language and Communication Development in Down Syndrome. *Mental Retardation and Developmental Disabilities Research Reviews*, 13, 26-35.
- Roizen, N.J., Mets, M.B. & Blondis, T.A. (1994). Ophthalmic disorders in children with Down syndrome. *Developmental Medicine and Child Neurology*, 36(7), 594-600.
- Roizen, N.J. & Patterson, D. (2003). Down's syndrome. *The Lancet*, 361(9365), 1281-1289.
- Schaerlaekens, A. (2008). *De taalontwikkeling van het kind*. Groningen/Houten: Wolters-Noordhoff.
- Sonneveld, S. (2016). De ontwikkeling van taal- en spraakvragenlijsten bij kinderen en volwassenen met Downsyndroom (master thesis). Nijmegen: Radboud Universiteit Nijmegen.
- TNO. (2012). *Vragenlijsten kwaliteit van leven*. Gedownload op 22 juni 2017, van https://www.tno.nl/media/4727/vragenlijsten_01032012.pdf
- Toğram, B. (2015). How Do Families of Children with Down Syndrome Perceive Speech Intelligibility in Turkey? *BioMed Research International*, 2015, 1-11.
- Vaillant, E.S. (2013). *Down in taal en spraak: taal, spraak en communicatie van kinderen met Downsyndroom* (master thesis). Nijmegen: Radboud Universiteit Nijmegen.
- Varuzza, C., Rose, P. de., Vicari, S. & Menghini, D. (2015). Writing abilities in intellectual disabilities: A comparison between Down and Williams syndrome. *Research in Developmental Disabilities*, 37, 135-142.

- Vogels, T., Verrips, G.H.W., Koopman, H.M., Theunissen, N.C.M., Fekkes, M. & Kamphuis, R.P. (1999). *TACQOL Manual: Parent Form and Child Form 6-11 years*. Leiden: Leiden Center for Child Health and Pediatrics LUMC-TNO.
- Weijerman, M.E. (2011). Consequences of Down syndrome for patient and family. Academic dissertation, Vrije Universiteit Amsterdam.
- Weijerman, M.E. (2013). De zorg voor kinderen met downsyndroom. *Huisarts & Wetenschap*, 56(10), 536-541.
- Weijerman, M.E., Furth, A.M. van, Mooren, M.D. van der, Weissenbruch, M.M. van, Rammeloo, L., Broers, C.J.M. & Gemke, R.J.B.J. (2010). Prevalence of congenital heart defects and persistent pulmonary hypertension of the neonate with Down syndrome. *European Journal of Pediatrics*, 169(10), 1195-1199.
- Weijerman, M.E., Furth, A.M. van, Vonk Noordegraaf, A., Wouwe, J.P., van. & Broers, C.J.M. Prevalence, Neonatal Characteristics, and First-Year Mortality of Down Syndrome: A National Study. *The Journal of Pediatrics*, 152(1), 15-19.
- Witecy, B. & Penke, M. (2017). Language comprehension in children, adolescents, and adults with Down syndrome. *Research in Developmental Disabilities*, 62, 184-196.
- Zampini, L. & D'Odorico, L. (2011). Lexical and syntactic development in Italian children with Down's syndrome. *International Journal of Language and Communication Disorders*, 46(4), 386-396.
- Zampini, L. & D'Odorico, L. (2013). Vocabulary development in children with Down syndrome: longitudinal and cross-sectional data. *Journal of Intellectual and Developmental Disability*, 38(4), 310-317.

Appendix A

Tabel A.1 Resultaten One-Way ANOVA *Preschool Children's Health-Related Quality of Life* (n=28), uitgevoerd voor drie leeftijdsgroepen: 1 - 1;6 jaar, 1;6 - 3 jaar en 3 - 6 jaar.

		Sum of Squares	df	Mean Square	F	p
Sociaal functioneren	Between Groups	349.003	27	349.003	0.584	0.461
Motorisch functioneren		1505.055		752.528	17.980	<0.001
Communicatie		132.595		66.298	0.391	0.683
Maagproblemen		36.325		18.162	0.072	0.931
Huidproblemen		198.540		99.270	1.927	0.168
Longproblemen		31.873		15.937	0.050	0.951
Slaapproblemen		241.715		120.858	0.445	0.646
Eetlust		852.366		426.183	1.758	0.194
Levendigheid		71.429		35.714	0.893	0.422
Humeur		0.000		0.000	-	-
Probleemgedrag		4196.765		2098.382	18.795	<0.001
Angst		795.788		397.894	0.874	0.430

Tabel A.2 Resultaten One-Way ANOVA *Children's Health-Related Quality of Life* (n=35), uitgevoerd voor drie leeftijdsgroepen: 6 - 9 jaar, 9 - 12 jaar en 12 - 15 jaar.

		Sum of Squares	df	Mean Square	F	p
Lichamelijke klachten	Between Groups	16.267	34	8.133	0.657	0.527
Motorisch functioneren		36.899		18.450	1.330	0.281
Autonomie		23.110		11.555	0.468	0.631
Cognitief functioneren		24.943		12.472	0.412	0.666
Sociaal functioneren		19.368		9.684	0.525	0.597
Positieve stemming		4.919		2.459	0.712	0.500
Negatieve stemming		0.197		0.099	0.014	0.986