

Gendervariatie en -dysforie bij autisme-spectrumstoornissen bij kinderen en adolescenten

M. Huys, K. Dhondt

- Achtergrond** Klinische ervaringen suggereren dat gendervariatie (GV) en/of -dysforie (GD) en autismespectrumstoornis (ASS) en -kenmerken vaker gelijktijdig voorkomen dan verwacht wordt.
- Doel** Deze literatuurstudie bestudeert de beschikbare publicaties die zich richten op het gelijktijdig voorkomen van GD/GV en ASS bij kinderen en adolescenten.
- Methode** PubMed en Embase werden systematisch doorzocht naar relevante publicaties met zoektermen gerelateerd aan 'autismespectrumstoornis' en 'genderdysforie/gendervariatie'.
- Resultaten** In totaal werden 12 publicaties geïncludeerd. Er wordt een hogere incidentie van gelijktijdig voorkomen gerapporteerd in vergelijking met wat vanuit epidemiologische cijfers wordt verwacht, zowel uitgaand van een ASS-studiepopulatie als vanuit een populatie kinderen en jongeren met GD/GV. De resultaten moeten met voorzichtigheid geïnterpreteerd worden, wegens enkele methodologische beperkingen in de studies zoals in het diagnostisch assessment en in het vaak ontbreken van een controlegroep.
- Conclusie** Het vaker gelijktijdig voorkomen van ASS en GD/GV heeft consequenties voor de klinische praktijk. Zowel in diagnostische als in begeleidende zorgtrajecten is het aangewezen om beide beelden te herkennen, te erkennen en een aangepast traject uit te werken. Gericht onderzoek naar specifieke kenmerken in deze groep is nodig om de hulpverlening af te stemmen en langetermijnperspectieven uit te tekenen.

Genderdysforie (GD) omschrijft de incongruentie tussen de ervaren genderidentiteit en het geboortegeslacht, gepaard gaande met psychisch lijden (Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders (DSM-5; American Psychiatric Association 2013)). In recent epidemiologisch onderzoek rapporteren Zhang e.a. (2020) cijfers tussen 1,2% en 2,7% voor minderjarigen die zich transgender voelen. Bij gebruik van een bredere definitie met inclusie van non-binaire identiteit nemen de gemiddelde cijfers toe van 2,5% naar 8,4%; 13% bij geboren jongens en 4% bij geboren meisjes.

Autismespectrumstoornis (ASS) is gedefinieerd als een neurobiologische ontwikkelingsstoornis met aanhoudende tekorten in sociale interactie, verbale en non-verbale communicatie en beperkte of repetitieve interesses en gedragingen. De algemene prevalentie wordt geschat op 1%. De frequentst gerapporteerde geslachtsverdeling voor ASS-prevalentie bedraagt 4-5 : 1, met een gemiddelde verhouding van 4,2 geboren mannen voor 1 geboren vrouw (Lai e.a. 2015).

Het aantal verwijzingen van minderjarigen naar exper-

tisecentra voor genderproblemen is de laatste jaren substantieel gestegen. Het aangeboden multidisciplinair zorgtraject voor transjongeren bestaat meestal uit psychosociale hulpverlening en eventuele medische (hormonale) behandeling (Baetens & Dhondt 2021). Deze gespecialiseerde centra melden een opvallende verschuiving in de geslachtsratio in het voordeel van geboren meisjes.

Opvallend is dat in deze centra ook een stijgend aantal jongeren en volwassenen gerapporteerd wordt met gendervariatie (GV)/GD en een ASS-diagnose, dan wel opvallende klinische kenmerken van ASS. Het aantal publicaties met de focus op het samen vóórkomen van ASS en GD is dan ook de laatste jaren toegenomen (Kaltiala-Heino e.a. 2018).

In dit artikel willen wij de literatuur gericht op de gelijktijdige presentatie van ASS-diagnose en/of -kenmerken en GD/GV bij kinderen en jongeren systematisch analyseren. Aansluitend verwijzen we naar gepubliceerde therapeutische richtlijnen die geformuleerd werden vanuit beide expertises.

AUTEURS

Marieke Huys, student, afd. Kinder- en jeugdpsychiatrie, Universitair Ziekenhuis Gent, faculteit Geneeskunde en gezondheidswetenschappen, Universiteit Antwerpen.

Karliën Dhondt, kinder- en jeugdpsychiater, afd. Kinder- en jeugdpsychiatrie, Centrum voor Seksuologie & Gender, Pediatrische Genderkliniek, en Universitair ziekenhuis Gent, Gent.

Correspondentie

Marieke Huys (marieke_huys@hotmail.com).

Geen strijdige belangen meegedeeld.

Het artikel werd voor publicatie geaccepteerd op 7-9-2021.

Citeren

Tijdschr Psychiatr. 2022;64(1):25-31

METHODE

We voerden een systematische zoekopdracht uit in de databases van PubMed en Embase naar studies die tot en met december 2020 gepubliceerd werden in het Engels of Nederlands. Een combinatie van zoektermen werd gebruikt: 'autism, autism spectrum disorder, neurodiversity, asperger disorder, gender dysphoria, gender non-conformity, gender diversity, gender variance, gender identity disorder, transgender, transgenders, cross gender, adolescence'.

De referentielijsten van de manuscripten werden manueel gescreend voor aanvullende studies.

Dit resulteerde in totaal in 53 publicaties, waarvan de geschiktheid onafhankelijk werd geëvalueerd door beide auteurs. Aangezien dit literatuuroverzicht specifiek gericht is op kinderen en adolescenten, includeerden we geen studies met een volwassen populatie. Reviews, gevalbeschrijvingen, aanvullingen of commentaren in talen anders dan Engels of Nederlands werden geëxcludeerd. Uiteindelijk selecteerden we 12 originele studies.

RESULTATEN

In de geselecteerde studies worden belangrijke methodologische verschillen gevonden. De studies zijn retrospectief, dan wel crosssectioneel, wisselen sterk in studiepower en gematchte controlegroepen kunnen ontbreken. Diagnostische assessments zijn niet steeds goed beschreven, waardoor de inclusiegroepen heterogeen kunnen zijn. Een gedetailleerd overzicht is terug te vinden in **tabel 1**.

De resultaten werden opgedeeld in twee domeinen. Het eerste was gericht op het vaststellen van ASS-diagnose en/of -kenmerken in een populatie kinderen en jongeren met GD/GV. Andersom werd genderidentiteit bevraagd bij kinderen en jongeren met een ASS-diagnose.

Prevalentie van ASS in populatie met GD

In een eerste Nederlandse crosssectioneel onderzoek onderzochten De Vries e.a. (2010) ASS bij kinderen (n = 108) en adolescenten (n = 96) die een gestandaardiseerde klinische evaluatie naar GD ondergingen. De toenmalig gehanteerde DSM-IV-diagnose van *gender identity disorder* (GID) werd bij 52 kinderen en 77 adolescenten gesteld, *gender identity disorder not otherwise specified* (GID-NOS) bij 45 kinderen en 8 adolescenten. Na een eerste evaluatie werden 11 kinderen en 15 adolescenten verder onderzocht aan de hand van het *Diagnostic Interview for Social and Communication Disorders-10th* (DISCO-10) vanwege een vermoeden van ASS. Een ASS-diagnose werd bij 7 kinderen en 9 adolescenten gesteld. In de totale onderzoekspopulatie kreeg 7,8% een diagnose ASS, kinderen met GID en GID-NOS 4,7% respectievelijk 17% (de Vries e.a. 2010).

De *Social Responsiveness Scale* (SRS) is een frequent gebruikt instrument als kwantitatieve maatstaf voor sociale responsiviteit en autismesymptomen. Skagerberg e.a. (2015) gebruikten SRS-resultaten in hun crosssectioneel onderzoek bij kinderen en jongeren (5-18 jaar) met GD (n = 166). SRS-gegevens werden vergeleken met normatieve SRS-waarden (Wigham e.a. 2012). Lichte, matige en ernstige tekorten in sociale responsiviteit werden bij 54,2% van de onderzoekspopulatie gevonden (Skagerberg e.a. 2015). Een vergelijkbare rapportage vinden we terug in de publicatie van VanderLaan e.a. (2015), de SRS-resultaten bij kinderen met GD (n = 49) werden retrospectief geanalyseerd; 44,9% vertoonde klinische tekorten (VanderLaan e.a. 2015a).

In een andere retrospectieve studie gebruikten Shumer e.a. (2016) de *Asperger Syndrome Diagnostic Scale* (ASDS). Zij onderzochten de gegevens van 39 kinderen en adolescenten die zich aanmeldden bij een transgenderkliniek. In de studie werd bij 23,1% (n = 9) een ASQ-score \geq 80 gevonden (Shumer e.a. 2016).

Tabel 1. Overzicht van de geïncludeerde publicaties

1e auteur (jaar)	Studiefocus	Studie-methode	Aantal deelnemers (n) en geboortegeslacht	Leeftijd in jaren uitersten; (gem.; SD)	Controlegroep	Resultaten
Akgül (2018)	Autisme-kenmerken bij GD	Crosssectioneel SRS	n = 25 13 jongens 12 meisjes	5-17; (11,42; 3,91)	n = 50 M: 11,42; SD: 3,91 26 jongens 24 meisjes	Lichte tot ernstige ASS-symptomen bij 68% GD-groep 22% controlegroep
De Vries (2010)	ASS bij GD	Crosssectioneel Semigestructureerd interview DISCO-10	Totaal n = 204 Kinderen: n = 108: 70 jongens 38 meisjes Adolescenten: n = 96 45 jongens 51 meisjes	6-8 (10,8; 3,58) Kinderen M: 8,06; SD: 1,82 Adolescenten M: 13,92; SD: 2,29	Nee	ASS bij 7,8% GD-groep
Janssen (2016)	GV bij ASS	Retrospectief CBCL-item 110	n = 492 409 jongens 83 meisjes	6-18 (8,96; 2,704)	Normatieve CBCL-data: 6-18 jaar n = 1605 M: 11,74; 3,44 851 jongens 754 meisjes	GV bij 5,1% ASS-groep; bij 0,7% controlegroep
Nabbijohn (2019)	GV- en ASS-kenmerken 1. kinderen TO 2. kinderen met psychiatrische diagnose	Crosssectioneel GIQC, CSBQ	n = 2445 1247 jongens 1198 meisjes	6-12 (8,83; 1,99)	Nee	ASS-kenmerken (oriëntatie/stereotypie) voorspellers voor GV in TO-groep GV bij ASS-groep > TO-groep
Shumer (2016)	Aspergerdiagnose bij patiënten verwezen voor GD	Retrospectief ASDS	n = 39 22 jongens 17 meisjes	8-20 (M: 15,8)	Nee	Vermoedelijk/ zeer waarschijnlijk Asperger bij 23,1% GD-groep
Skagerberg (2015)	Autisme-symptomen bij patiënten verwezen vanwege GD	Crosssectioneel SRS	n = 166 62 jongens 104 meisjes	5-18 (14,26; 2,68)	Normatieve SRS-data n = 500 247 jongens 253 meisjes	ASS-kenmerken bij 54,2% van patiënten met GD
Strang (2014)	GV bij ASS	Retrospectief CBCL, ADI, ADI-R, ADOS	n = 389 ASS: n = 147 123 jongens 24 meisjes ADHD: n = 126 88 jongens 38 meisjes Epilepsie/NF1: n = 116 60 jongens 56 meisjes	6-18 ASS: M: 12,21; SD: 3,08 ADHD: M: 9,77; SD: 2,95 Epilepsie/NF1: M: 10,12; SD: 2,88	n = 165 104 jongens 61 meisjes normatieve CBCL-data: 6-18 jaar n = 1605 M: 11,74; SD: 3,44 851 jongens 754 meisjes	GV bij 5,4% ASS-groep 0% controlegroep 0,7% normatieve groep
VanderLaan (2014)	Obsessieve interesses bij GD	Retrospectief CBCL-item 9 en 66	n = 534 439 jongens 95 meisjes	3-12	Siblings: n = 419 241 jongens 178 meisjes Verwezen (niet GD): n = 1201 582 jongens 619 meisjes Niet verwezen: n = 1201 582 jongens 619 meisjes	<i>Item 9 positief:</i> 62,4% GD-groep 22,2% siblings 48,7% verwezen groep 21,9% niet-verwezen groep <i>Item 66 positief:</i> 25,3% GD-groep 8,2% siblings 24,9% verwezen groep 5,4% niet-verwezen groep

Tabel 1. Overzicht van de geïncludeerde publicaties (vervolg)

1e auteur (jaar)	Studiefocus	Studie-methode	Aantal deelnemers (n) en geboortegeslacht	Leeftijd in jaren uitersten; (gem.; SD)	Controlegroep	Resultaten
Vanderlaan (2015)	Autisme-symptomen en risicofactoren bij GD	Retrospectief SRS, GICQ	n = 49 40 jongens 9 meisjes	3-12 (7,19; 2,71)	Nee	ASS-kenmerken 44,9% GD-groep
Van der Miesen (2018)	Autisme-symptomen bij GD	Crosssectioneel CSBQ	n = 490 248 jongens 242 meisjes	6-18 (11,1; 3,73)	TO: n = 2507 1248 jongens 1259 meisjes ASS: n = 196 100 jongens 96 meisjes	ASS bij 14,5% GD-groep ASS bij 3,5% TO-groep
Van der Miesen (2018)	GV bij ASS	Crosssectioneel YSR, CSBQ	n = 573 adolescenten 469 jongens 104 meisjes	11-18 (15,98; 1,85)	Normatieve YSR-data n = 1061 11-18 jaar 495 jongens 521 meisjes	GV bij 6,5% ASS-groep
Zucker (2017)	Autisme-symptomen bij GD	Retrospectief TRF-item 9 en 66	n = 386 304 jongens 82 meisjes	3-12 (7,77; 2,41)	Met psychiatrische diagnose: n = 965 498 jongens 467 meisjes Zonder psychiatrische diagnose: n = 965 498 jongens 467 meisjes	<i>Item 9:</i> Jongens: 41,7% GD-groep 33,3% met diagnose 13,1% zonder diagnose Meisjes: 38% GD-groep 23,8% met diagnose 11,3% zonder diagnose <i>Item 66:</i> Jongens: 18,2% GD-groep 16,7% met diagnose 5,0% zonder diagnose Meisjes: 10,0% GD-groep 9,9% met diagnose 3,4% zonder diagnose

ADHD: aandachtsdeficiëntie/hyperactiviteitsstoornis; ADI: Autism Diagnostic Interview; ADI-R: Autism Diagnostic Interview-Revised; ADOS: Autism Diagnostic Observation Scale; ASDS: Asperger Syndrome Diagnostic Scale; ASS: autismespectrumstoornis; CBCL: Child Behavior Checklist; CSBQ: Children's Social Behavior Questionnaire; DISCO-10: Diagnostic Interview For Social And Communication Disorders; GD: genderdysforie; GICQ: Gender Identity Questionnaire For Children; GV: gendervariatie; M: mean; NF1: neurofibromatose type 1; SD: standaarddeviatie; SRS: Social Responsiveness Scale; TO: typische ontwikkeling; TRF: Teacher's Report Form; YSR: Youth Self Report.

Prevalentie van GD/GV in populatie met ASS

Een andere manier om het gelijktijdig vóórkomen van ASS en GD/GV te bestuderen is een onderzoek opzet gericht op GV/GD bij kinderen en jongeren met een ASS-diagnose.

De *Child Behavior Checklist* (CBCL) wordt vaak gebruikt om GV epidemiologisch in kaart te brengen. Het is een instrument om op gestandaardiseerde wijze gedrags- en emotionele problemen en vaardigheden bij kinderen en adolescenten te kwantificeren. Scores op item 5 'gedraagt zich als het andere geslacht' en item 110 'wil van het andere geslacht zijn' zijn hierbij betekenisvol. Strang e.a. (2014) verzamelden retrospectief CBCL-resultaten van kinderen (6-18 jaar) met een diagnose ASS, aandachtstekort-/hyperactiviteitsstoornis (ADHD) (n = 126), of een medisch-neurologische ontwikkelingsstoornis (n = 116). De diagnoses ASS en ADHD werden

geëvalueerd door experts aan de hand van DSM-IV-TR-criteria. Autismekennmerken werden geëvalueerd door afname van *Autism Diagnostic Interview-Revised* (ADI-R) en *Autism Diagnostic Observation Scale* (ADOS). Item 110 werd gekozen als GV-item en de scores werden vergeleken met een gezonde controlegroep (n = 165) en de normatieve CBCL-populatie.

In de controlegroep rapporteerde 0% van de ouders GV, in de normatieve populatie betrof dit 0,7%. Ouders uit de groep kinderen met een medisch-neurologische diagnose scoorden bij 1,7% positief op item 110; voor kinderen met ADHD en ASS was dit respectievelijk 4,8% en 5,4%. Vergeleken met de normatieve populatie rapporteerden ouders van kinderen met ASS 7,59 keer meer GV, voor kinderen met ADHD bedroeg dit maal 6,64 (Strang e.a. 2014).

Met een vergelijkbare onderzoeksopzet beschreven Janssen e.a. (2016) data van kinderen en jongeren (3-17 jaar) met een diagnose ASS (New York University Child Study Center). CBCL-resultaten van 492 minderjarigen met ASS werden verzameld en vergeleken met de normatieve CBCL-populatie. Ongeveer 5,1% (n = 25) van de ouders uit deze studiepopulatie rapporteerde gendervariatie bij hun kind, tegenover 0,7% in de normatieve populatie, wat resulteert in een vergelijkbaar verhoogde waarschijnlijkheid maal 7,76 (Janssen e.a. 2016).

De onderzoeksgroep van Van der Miesen e.a. (2018) gebruikte de *Youth Self-Report* (YSR) om de zelfgerapporteerde wens om van het andere geslacht te zijn (item 110, 'Wil van het andere geslacht zijn') bij een groep adolescenten met ASS (n = 573) te vergelijken met adolescenten uit de algemene populatie. De ASS-diagnose werd bevestigd volgens DSM-IV-criteria in een gespecialiseerd centrum voor autisme. De resultaten werden vergeleken met normatieve data van een gestandaardiseerde YSR-groep (n = 1061). Item 110 werd door 6,5% van de deelnemers positief bekrachtigd; 2,12 keer vaker dan de controlegroep (3,1%) (van der Miesen e.a. 2018b).

Associatie met specifieke symptoomdomeinen

Om de relatie tussen ASS en GD/GV beter te begrijpen worden steeds meer studies gepubliceerd waarbij men zich niet enkel op de diagnostische entiteiten focust, maar bepaalde symptoomdomeinen van ASS uitlicht. In een gecontroleerde studie onderzochten Akgül e.a. (2018) in Turkije de sociaal-communicatieve en executieve vaardigheden bij kinderen die vanwege GD verwezen werden naar kinder- en jeugdpsychiatrie. Na screening door een multidisciplinair team werden deelnemers met een verstandelijke beperking, diagnose ASS of psychotische stoornis niet geïncludeerd. De onderzoekspopulatie bestond uit 25 kinderen en adolescenten. De controlegroep (n = 50; gematcht op leeftijd en geslacht) bestond uit deelnemers zonder chronische aandoening opgenomen in andere zorginstellingen. Sociaal-communicatieve en executieve vaardigheden werden in kaart gebracht met twee vragenlijsten: SRS en *Behavior Rating Inventory of Executive Function* (BRIEF). De onderzoeksgroep had een gemiddelde SRS-score van 70,36 (SD: 16,72), in de controlegroep was dit 49,78 (SD: 16,95). Er werd een klinische SRS-score bij 68% van de individuen met GD en bij 22% van de controlegroep gevonden. De BRIEF-resultaten vertoonden een vergelijkbare verdeling. Vergeleken met de controlegroep scoorden de individuen met GD significant hoger op alle domeinen (gedragsregulatie, metacognitief domein en globaal executief functioneren) (Akgül e.a. 2018). Kinderen en jongeren met GD zijn vaak gefocust op hun genderbeleving en -expressie. Op jonge leeftijd neemt dit soms rigide vormen aan. Het is dan ook niet verwonderlijk dat in de zoektocht naar de overlap tussen ASS/GD-GV twee specifieke ASS-symptomen, namelijk pre-occupaties en intense interesses (obsessies en compulsies), worden uitgelicht. In twee retrospectieve studies onder-

zocht men het vóórkomen van obsessies en compulsies bij kinderen en jongeren met GD.

VanderLaan e.a. (2015) analyseerden CBCL-resultaten van 534 kinderen, geëvalueerd in een gespecialiseerde genderkliniek, en hun siblings (n = 419). Scores op item 9 (obsessies) en item 66 (compulsies) werden vergeleken met die van twee controlegroepen, te weten een groep verwezen kinderen met een heterogene klinisch-psychiatrische diagnose (n = 1201) en normdata voor de Nederlandse populatie (n = 1201). Het item obsessies werd significant vaker positief bekrachtigd bij kinderen met GD (62,4%) in vergelijking met hun siblings (22,2%), de kinderpsychiatrisch verwezen kinderen (48,7%) en de normdata (21,9%). Ook het item compulsies bleek significant vaker gescoord bij kinderen met GD (25,3%) dan bij hun siblings (8,2%), de kinderpsychiatrisch verwezen kinderen (5,4%), maar niet met de normdata (24,9%). Kinderen verwezen vanwege GD en kinderpsychiatrisch verwezen kinderen scoorden significant vaker positief op zowel obsessies als compulsies vergeleken met hun siblings en de normdata (VanderLaan e.a. 2015b).

In een vergelijkbare Canadese retrospectieve studie gebruikten Zucker e.a. (2017) de *Teacher's Report Form* (TRF), waarbij ze de TRF-items 9 (obsessies) en 66 (compulsies) analyseerden van kinderen verwezen naar een gespecialiseerde genderkliniek (n = 386). Alle kinderen voldeden aan de criteria voor GID/GD of scoorden net onder de diagnostische drempel (GID-NOS). Als controlegroepen werden normdata van kinderen mét (n = 965) en kinderen zonder (n = 965) psychiatrische diagnose gebruikt.

Leerkrachten beantwoordden het item obsessies significant vaker positief voor individuen met GD vergeleken met beide controlegroepen (41,7% jongens en 38% meisjes met GD versus 33,3% en 13,1% resp. 23,8% en 11,3%). Het item compulsies werd voor individuen uit de groep met GD en de normgroep mét diagnose significant vaker positief beantwoord in vergelijking met de normgroep zonder diagnose (18,2% jongens en 10,0% meisjes met GD, tegenover 16,7% en 5,0% resp. 9,9% en 3,4%). Er was geen significant verschil voor het item compulsies tussen de GD-groep en de normgroep mét diagnose (Zucker e.a. 2017).

Van der Miesen e.a. (2018a) onderzochten in een Amsterdamse genderkliniek de associatie van GD/GV met ASS-symptoomdomeinen eveneens met de *Children's Social Behavior Questionnaire* (CSBQ). Een ouderrapportage brengt hierbij zes ASS-symptoomdomeinen in kaart, aangepast gedrag en emoties; verminderd contact en sociale interesse; oriëntatiemoelijkheden; begrip van sociale informatie; stereotypie; weerstand tegenover verandering.

De eerste studie bestaat uit een onderzoekspopulatie met 490 kinderen en jongeren, verwezen naar de gespecialiseerde genderkliniek in Amsterdam. De onderzoekers definieerden twee controlegroepen; groep 1: kinderen en adolescenten met een typische ontwikkeling (TO) (n = 2507) en groep 2: kinderen en adolescenten met een

bevestigde ASS-diagnose (n = 196). De auteurs vonden dat individuen met GD significant hogere totaal- en deelscores hadden voor alle subschalen van de CSBQ vergeleken met de TO-groep, maar significant lagere scores dan de ASS-groep. Op basis van de CSBQ-grenswaarden leidden de auteurs af dat er bij 14,5% van de individuen met GD een sterk vermoeden van ASS is, ongeveer viermaal de ASS-prevalentie van de normatieve controle-groepen (3,5%) (van der Miesen e.a. 2018a).

Dezelfde onderzoeksgroep analyseerde in hun eerder vermelde prevalentiestudie van GV bij jongeren met ASS eveneens de CSBQ-resultaten. Er werden geen correlaties gevonden tussen het bekrachtigen van item 110 van YSR 'wil van het andere geslacht zijn' en specifieke subdomeinen van ASS (van der Miesen e.a. 2018b).

Ten slotte is een interessante meerwaarde in de studie van Nabbijohn e.a. (2019) het includeren van jonge kinderen (n = 2445) en van een niet-klinische populatie. Ouders werden gerekruteerd via sociale media, onlineadvertenties en lokale organisaties. In een online-enquête werd gerapporteerd of hun kind (6-12 jaar oud) een psychiatrische diagnose had, waarna deelnemers werden onderverdeeld in twee groepen: de TO-groep (typische ontwikkeling) (n = 2004) en de klinische groep (n = 441). De klinische groep werd onderverdeeld in 8 subgroepen: ASS (n = 80), ADHD (n = 247), oppositionele-opstandige gedragsstoornis (n = 39) obsessieve-compulsieve stoornis (n = 17), *sensory processing disorder* (n = 28), stemmings- en angststoornissen (n = 140), leerstoornissen (n = 51) en andere neurologische ontwikkelingsstoornissen (n = 22). De ouders vulden de *Gender Identity Questionnaire for Children* (GIQC) in om variaties in de genderbeleving/expressie van hun kinderen te identificeren. Eveneens werd de CSBQ afgenomen.

In de TO-groep werd een positieve associatie gezien tussen ASS-kenmerken en GV: moeilijkheden op de oriëntatie- en stereotypiesubschalen van CSBQ bleken unieke voorspellers te zijn voor toename van GV. Dit suggereert enerzijds een associatie voorbij het klinische domein van ASS, anderzijds dat niet alle ASS-domeinen in de TO-groep geassocieerd zijn aan GV (Nabbijohn e.a. 2019).

Deze studie nuanceert enigszins de bevindingen van der Miesen e.a. (2018a). Er werd significant meer GV gevonden bij kinderen met een klinische ASS-diagnose in vergelijking met de populatie met een typische ontwikkeling. Bij kinderen met ASS werd een GIQC-score genoteerd tussen de score van een kind met TO en een kind verwezen vanwege GD (Nabbijohn e.a. 2019).

DISCUSSIE

Methodologische beperkingen

Ondanks de toegenomen interesse in het gelijktijdig vóórkomen van ASS en GV/GD blijft het aanbod aan literatuur over dit onderwerp bij kinderen en adolescenten beperkt. Onze systematische analyse toont bovendien aan dat de beschikbare studies moeilijk met elkaar

te vergelijken zijn door belangrijke methodologische verschillen. Zo zijn de diagnostische trajecten voor het bepalen van ASS en GD vaak onder- of niet gerapporteerd (Akgül e.a. 2018; Janssen e.a. 2016; Nabbijohn e.a. 2019; van der Miesen e.a. 2018a) of werd een diagnose gebaseerd op ouderrapportage (Janssen e.a. 2016; Nabbijohn e.a. 2019; Skagerberg e.a. 2015; Strang e.a. 2014; VanderLaan e.a. 2015a; b; Zucker e.a. 2017). Een controlegroep ontbrak soms (de Vries e.a. 2010; Nabbijohn e.a. 2019; Shumer e.a. 2016; VanderLaan e.a. 2015a) en verschillende data werden retrospectief verzameld (Janssen e.a. 2016; Shumer e.a. 2016; Strang e.a. 2014; VanderLaan e.a. 2015a; b; Zucker e.a. 2017), wat een zwakkere insteek is. Studiepowaer is soms laag, waardoor groepen niet representatief kunnen zijn (Akgül e.a. 2018; Shumer e.a. 2016; VanderLaan e.a. 2015a).

Bevindingen

Ondanks deze beperkingen kunnen we toch besluiten dat er wetenschappelijke evidentie is voor het vaker gelijktijdig vóórkomen van (kenmerken van) ASS en GV/GD. Met de nodige voorzichtigheid voor interpretatie in het achterhoofd variëren de cijfers tussen 4 tot 7 maal de prevalentiecijfers van wat verwacht wordt in de algemene populatie.

Wanneer we kijken naar specifieke symptoomdomeinen (rigiditeit, compulsies en obsessies) levert dit duidelijk overlappende klinische kenmerken op tussen beide diagnoses (Akgül e.a. 2018; Nabbijohn e.a. 2019; van der Miesen e.a. 2018a; VanderLaan e.a. 2015b; Zucker e.a. 2017). Dit is een interessant denkspoor en zou kunnen wijzen op een gedeelde pathofysiologie.

Verklaringen

In de literatuur worden verschillende hypothesen geformuleerd die deze bevindingen trachten te verklaren. Volgens de theorie van het 'extreem mannelijke brein' (EMB) vertonen individuen met ASS een meer extreme uiting van het typisch mannelijke cognitieve en gedragspatroon vanwege hoge foetale testosteronniveaus (Auyeung e.a. 2009; Baron-Cohen 2002). De EMB-theorie kan verklaren waarom biologische meisjes met ASS meer kans hebben op het ontstaan van GV, maar geeft geen verklaring waarom er ook bij biologische jongens met ASS vaker GV voorkomt.

Het begrip genderidentiteit beperken tot biologische factoren zou echter overmatig restrictief zijn. Bepaalde ASS-specifieke sociale en psychologische kenmerken kunnen de kans op de ontwikkeling van GD eventueel verhogen. De ontwikkeling van het zelfbewustzijn speelt ook in de genderidentiteitsontwikkeling een rol. Negatieve sociale ervaringen (of het gevoel anders te zijn dan leeftijdsgenoten van hetzelfde biologisch geslacht) zouden de ontwikkeling van GV-gevoelens in de hand kunnen werken (Van Der Miesen e.a. 2016). Anderen suggereren daarentegen dat de moeilijkheden in de sociale vaardigheden secundair zijn aan de sociale stress en isolatie ten gevolge van non-conformiteit op het

gebied van gender (Skagerberg e.a. 2015; Turban & van Schalkwyk 2018).

Genderidentiteitsontwikkeling wordt vanuit het cognitief psychologisch denkkader beschreven als opeenvolgende fasen waarin 2- tot 5-jarigen rigide genderconstructies maken die na de leeftijd van 6 jaar plaats maken voor een flexibeler construct met variant gendergedrag (Ruble e.a. 2007). De Vries e.a. (2010) opperen de hypothese dat individuen met ASS nooit een niveau van deze flexibiliteit kunnen bereiken die noodzakelijk is in de verwerking van GV-gevoelens. Een minder flexibel cognitief construct enerzijds en toenemende sociaal en psychologisch complexe interacties tijdens de puberteit anderzijds zouden GD in de hand kunnen werken.

In werkelijkheid kennen we de relatie tussen ASS en GD op dit moment onvoldoende. Vermoedelijk is er een samenspel van verschillende factoren die de genderbeleving beïnvloeden, factoren die ook bij een zich typisch ontwikkelende populatie niet volledig bekend zijn. In ieder geval vraagt het gelijktijdig vóórkomen van ASS en GD aangepaste diagnostische en begeleidingsstrategieën. ASS-kenmerken beïnvloeden flexibiliteit in denken en handelen, executieve functies en sociaal-communicatieve vaardigheden.

Experts uit beide klinische domeinen ontwikkelden professionele richtlijnen waarin het belang van samenwerking centraal staat samen met participatie van de doelgroep om diagnostiek en beleid af te stemmen op hun specifieke noden. Psycho-educatie voor jongere en omgeving is cruciaal. Samen met het exploreren van vele mogelijkheden van genderuiting en het voorzien van structuur en bereikbare doelen, worden gevoelens van non-conformiteit wat betreft gender het beste herhaaldelijk getoetst en geïntegreerd in bredere thema's zoals seksuele oriëntatie/verlangens en relatievorming (Strang e.a. 2018; 2020).

CONCLUSIE

Op basis van dit literatuuroverzicht kunnen we concluderen dat er een verhoogde prevalentie is in het gelijktijdig vóórkomen van ASS en GV/GD bij kinderen en adolescenten. De oorzaak hiervan is niet bekend. Experts adviseren om beide condities afzonderlijk te onderzoeken, te erkennen en te integreren in een aangepast therapeutisch traject. Aanvullend langetermijnonderzoek naar de impact van deze behandeling op de uitkomst van GD/GV en het welbevinden bij kinderen en jongeren met ASS is aangewezen.

LITERATUUR

- Akgül GY, Ayaz AB, Yildirim B, e.a. Autistic traits and executive functions in children and adolescents with gender dysphoria. *J Sex Marital Ther* 2018; 44: 619-26.
- American Psychiatric Association. Diagnostic and statistical manual of mental disorders (DSM-5). Arlington: APA; 2013.
- Auyeung B, Wheelwright S, Allison C, e.a. The children's empathy quotient and systemizing quotient: Sex differences in typical development and in autism spectrum conditions. *J Autism Dev Disord* 2009; 39: 1509-21.
- Baetens L, Dhondt K. Psychosocial challenges and hormonal treatment in gender diverse children and adolescents. A narrative review. *Int J Impot Res* 2021; 33: 217-27.
- Baron-Cohen S. The extreme male brain theory of autism. *Trends Cogn Sci* 2002; 6: 248-54.
- Janssen A, Huang H, Duncan C. Gender variance among youth with autism spectrum disorders: A retrospective chart review. *Transgend Health* 2016; 1: 63-8.
- Kaltiala-Heino R, Bergman H, Tyolajarvi M, e.a. Gender dysphoria in adolescence: Current perspectives. *Adolesc Health Med Ther* 2018; 9: 31-41.
- Lai M, Lombardo MV, Auyeung B, e.a. Sex/gender differences and autism: Setting the scene for future research. *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry* 2015; 54: 11-24.
- Miesen AIR van der, de Vries ALC, Steensma TD, e.a. Autistic symptoms in children and adolescents with gender dysphoria. *J Autism Dev Disord* 2018a; 48: 1537-48.
- Miesen AIR van der, Hurley H, Bal AM, e.a. Prevalence of the wish to be of the opposite gender in adolescents and adults with autism spectrum disorder. *Arch Sex Behav* 2018b; 47: 2307-17.
- Miesen AIR van der, Hurley H, De Vries ALC. Gender dysphoria and autism spectrum disorder: A narrative review. *Int Rev Psychiatry* 2016; 28: 70-80.
- Nabbijohn AN, van der Miesen AIR, Santarossa A, e.a. Gender variance and the autism spectrum: An examination of children ages 6-12 years. *J Autism Dev Disord* 2019; 49: 1570-85.
- Ruble DN, Taylor LJ, Cyphers L, e.a. The role of gender constancy in early gender development. *Child Dev* 2007; 78: 1121-36.
- Shumer DE, Reisner SL, Edwards-Leeper L, e.a. Evaluation of asperger syndrome in youth presenting to a gender dysphoria clinic. *LGBT Health* 2016; 3: 387-90.
- Skagerberg E, Di Ceglie D, Carmichael P. Brief report: Autistic features in children and adolescents with gender dysphoria. *J Autism Dev Disord* 2015; 45: 2628-32.
- Strang JF, Kenworthy L, Dominska A, e.a. Increased gender variance in autism spectrum disorders and attention deficit hyperactivity disorder. *Arch Sex Behav* 2014; 43: 1525-33.
- Strang JF, Knauss M, van der Miesen AIR, e.a. A clinical program for transgender and gender-diverse neurodiverse/autistic adolescents developed through community-based participatory design. *J Clin Child Adolesc Psychol* 2020; doi: 10.1080/15374416.2020.1731817.
- Strang JF, Meagher H, Kenworthy L, e.a. Initial clinical guidelines for co-occurring autism spectrum disorder and gender dysphoria or incongruence in adolescents. *J Clin Child Adolesc Psychol* 2018; 47: 105-15.
- Turban JL, van Schalkwyk GI. 'Gender dysphoria' and autism spectrum disorder: Is the link real? *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry* 2018; 57: 8-9.e2.
- VanderLaan DP, Leef JH, Wood H, e.a. Autism spectrum disorder risk factors and autistic traits in gender dysphoric children. *J Autism Dev Disord* 2015a; 45: 1742-50.
- VanderLaan DP, Postema L, Wood H, e.a. Do children with gender dysphoria have intense/obsessional interests? *J Sex Res* 2015b; 52: 213-9.
- Vries ALC de, Noens ILJ, Cohen-Kettenis PT, e.a. Autism spectrum disorders in gender dysphoric children and adolescents. *J Autism Dev Disord* 2010; 40: 930-6.
- Wigham S, McConachie H, Tandos J, e.a. The reliability and validity of the social responsiveness scale in a uk general child population. *Res Dev Disabil* 2012; 33: 944-50.
- Zhang Q, Goodman M, Adams N, e.a. Epidemiological considerations in transgender health: A systematic review with focus on higher quality data. *Int J Transgend Health* 2020; 21: 125-37.
- Zucker KJ, Nabbijohn AN, Santarossa A, e.a. Intense/obsessional interests in children with gender dysphoria: A cross-validation study using the teacher's report form. *Child Adolesc Psychiatry Ment Health* 2017; 11: 51.

SUMMARY

Gender variance or gender dysphoria and autism spectrum disorder in children and adolescents

M. Huys, K. Dhondt

- Background** Clinical experience suggests that gender variance (GV) and/or gender dysphoria (GD) and autism spectrum disorder (ASD) characteristics co-occur more frequently than expected.
- Aim** This literature review examines the available publications focusing on the co-occurrence of GD/GV and ASD in children and adolescents.
- Method** PubMed and Embase were systematically searched for relevant publications with search terms related to 'autism spectrum disorder' and 'gender dysphoria/gender variance'.
- Results** A total of 12 publications were included. A higher incidence of comorbidity was reported compared to what is epidemiologically expected, starting from an ASD study population and a population of children and adolescents with GD/GV. The results should be interpreted with caution due to methodological limitations in the studies as e.g. in the diagnostic assessment and the frequent lack of a control group.
- Conclusion** The more frequent co-occurrence of ASD and GD/GV has consequences for clinical practice. In both diagnostic and supportive care pathways, it is advisable to recognize and acknowledge both conditions and to work out an adapted pathway. More targeted research into specific characteristics in this group is necessary in order to fine-tune (mental) health care and long-term perspectives.