

Gutter og jenter med fragilt X syndrom

En studie av væremåte i sosial samhandling

Simen Aabøe



Masteroppgave i spesialpedagogikk

Institutt for spesialpedagogikk

Det utdanningsvitenskaplige fakultet

UNIVERSITETET I OSLO

Vår 2013

Gutter og jenter med fragilt X syndrom

En studie av væremåte i sosial samhandling

Simen Aabøe

Masteroppgave i spesialpedagogikk

Institutt for spesialpedagogikk

Det utdanningsvitenskaplige fakultet

UNIVERSITETET I OSLO

Vår 2013

Copyright Simen Aabøe

2013

Gutter og jenter med fragilt X syndrom.
En studie av væremåte i sosial samhandling.

<http://www.duo.uio.no>

Trykk: Reprosentralen, Universitetet i Oslo

Sammendrag

Bakgrunn

Fragilt X syndrom (FXS) er den mest vanlige kjente arvelige årsaken til utviklingshemning. Mennesker med FXS er en svært heterogen gruppe, og det er gjort en rekke studier for å undersøke kognitive og atferdsmessige særtrekk i gruppa. Spesielt utforskning av autismevansker har vært et mye utforsket felt de siste tiårene. Det har ikke vært gjennomført studier på den norske FXS populasjonen. Denne oppgaven har som formål å undersøke særtrekk i væremåte, med utgangspunkt i en bred kartlegging av væremåte i sosial samhandling. Kartleggingen tar utgangspunkt i forskjeller mellom kjønn, da jenter beskrives å ha mindre spesialpedagogiske behov enn gutter med FXS. Hensikten med studien er å fremskaffe pedagogisk anvendbare resultater som kan være til nytte for nærpersoner og fagfolk rundt barn og unge med FXS. Studien åpner også for sammenligning med andre grupper.

Metode

Studien er ikke-eksperimentell og deskriptiv. Det benyttes tre spørreskjemaer: Væremåteskjema, Social Communication Questionnaire og et Diagnosespesifikt spørreskjema. Utvalget i studien er foresatte til 23 barn og unge med FXS, 16 gutter og 7 jenter i alderen 10-21 år. Respondentene er hentet fra Frambus dataregister. Svarprosent i studien er cirka 40 %. Spørreskjemaene består i stor grad av kontekstualiserte spørsmål om væremåte, og analysen tar for seg både enkeltspørsmål og sumvariabler der flere spørsmål er satt sammen for å måle områder innenfor væremåte.

Resultater

Undersøkelsen viser noe overraskende ikke store forskjeller mellom jenter og gutter slik som først antatt. Derimot viser resultatene at de eldre i utvalget viser større væremåtemessige særtrekk, og beskrives å ha større grad av vansker enn de yngre i utvalget. Behovet for gode strukturelle betingelser kommer tydelig frem i studien. Barn og unge med FXS i studien beskrives generelt som svært opptatt av å vite hva som skal skje, hvem man skal være sammen med og hvor aktiviteter skal finne sted. Flere målpersoner viser ømfintlighet for sensoriske stimuli, men resultatene er lavere enn forventet. Grad av autismevansker er sammenfallende med tidligere studier, og jentene i studien viser lavere forekomst enn guttene. I denne studien skårer 9 av 16 gutter, og 2 av 7 jenter over cut-off på ASF. Samvariasjonen

mellom autismevansker og utviklingshemning kommer ikke tydelig frem i denne studien. Autisnevansker viser derimot signifikante samvariasjoner med å være opptatt og avhengig av struktur og tvangsmessige handlinger for både gutter og jenter. Samtidig viser barn og unge med FXS seg som mer kontaktsøkende, sosiale og omgjengelige sammenlignet med studier på barn med autisme gjennom bruk av samme forskningsverktøy.

Konklusjon

Studien indikerer at barn og unge med FXS er en svært heterogen gruppe, samtidig som det fremkommer en rekke særtrekk som kan være typiske hos mange med FXS sammenlignet med andre grupper. Studien viser signifikante sammenhenger mellom flere av sidene av væremåte, og behovet for gode strukturelle betingelser kan være et behov som er særskilt viktig å imøtekomme for at barn og unge med FXS får muligheten til å oppleve gode og meningsfylte dager. Funn fra studien gir klare pedagogiske implikasjoner, og gir støtte til betydningen av individuell kartlegging av den enkeltes forutsetninger og behov. Spesielt funn knyttet til økende vansker med alder viser at det er viktig med gode strukturelle og miljømessige betingelser og sensitivitet hos voksne nærpersioner for mennesker med FXS fra ung alder av.

Forord

Arbeidet med masteroppgaven har vært en spennende prosess. Valget om å skrive om barn og unge med FXS gav muligheten til å fordype meg om et tema jeg er svært interessert i. Spesielt den praktiske pedagogiske dimensjonen i studien har vært inspirerende, og det er et stort ønske om at kunnskapen som fremkommer i studien vil gagne barna og ungdommene som studien gjelder.

Først og fremst må det rettes stor takknemlighet til alle foreldrene som gjorde denne undersøkelsen til et faktum. Dere har i en travel hverdag tatt dere tid til å besvare side opp og side ned med spørsmål. Studien kunne ikke vært gjennomført uten deres bidrag. Tusen takk.

Stor takk til prosjektets leder Terje Nærland ved Autismeenheten for stort engasjement og lærerike diskusjoner. Takk også til Lage Jonsborg ved Institutt for Spesialpedagogikk for bidrag til strukturering av oppgaven og statistiske stalltips. På Frambu må det rettes en spesiell takk Gunn Pedersen for hjelp i rekrutteringsfasen og Øyvind Kanavin, for at du som forskningsansvarlig hadde tro på prosjektet. Takk også til Monica Andresen for gode diskusjoner og uvurderlig hjelp i siste del av prosessen.

Vi har vært to stykker som har samlet inn datamateriale i denne studien. Dette har gitt muligheten for gode diskusjoner og grundighet i datainnsamlingen. Børge Pallesen, takk for laget!

5 år ved Helga Engs hus har gitt meg muligheten til å bli kjent med en gjeng utenom det vanlige. Jeg har pådratt meg en kaffeavhengighet uten sidestykke. Kaffe er godt, men den smaker best i lag med dere.

Sist men langt ifra minst: takk til mor og far for at dere tok dere tid til korrekturlesning selv om dere hadde noen uleste krimbøker i skuffen.

Simen Aabøe

Mai 2013

Innholdsfortegnelse

1	Introduksjon	1
1.1	Presentasjon av tema og hensikt	1
1.1.1	Hensikt	2
1.2	Presentasjon av forskningsspørsmål	2
1.3	Avgrensing og avklaring av begreper	3
1.4	Oppgavens oppbygging	4
2	Teoretisk grunnlag	5
2.1	Om fragilt X syndrom	5
2.1.1	Forekomst / prevalens	6
2.1.2	Årsak	6
2.1.3	Diagnostisering og kliniske kjennetegn	7
2.1.4	Medisinske forhold	7
2.1.1	Kognisjon	8
2.1.2	Språk	9
2.1.3	Særtrekk i væremåte	10
2.2	Autismespekterforstyrrelser	13
2.2.1	Særtrekk og definatoriske kjennetegn	13
2.2.2	Væremåte hos mennesker med autisme	14
2.2.3	Forekomst av ASF hos mennesker med FXS	16
2.3	Sansebesvær	17
2.3.1	Ulike typer sansebesvær	18
2.3.2	Ulike reaksjonsmønstre på sansestimuli	18
2.3.3	Sensoriske vansker hos mennesker med fragilt X syndrom	20
2.4	Sosial samhandling og miljøets påvirkning	21
2.4.1	Samspill mellom barn og voksen	22
2.4.2	Tilrettelegging av omgivelsene	24
3	Metodiske betraktninger	26
3.1	Metodologisk tilnærming og studiens design	26
3.2	Deltagere	27
3.2.1	Utvalg og svarprosent	27
3.3	Verktøy til datainnsamling	28
3.3.1	Beskrivelse og operasjonalisering av Væremåteskjema	28
3.3.2	Social Communication Questionnaire	34
3.3.3	Diagnosespesifikt spørreskjema	35
3.4	Analytiske mål	36
3.5	Etiske vurderinger	38
4	Studiens validitet og reliabilitet	40
4.1.1	Begrepsvaliditet	40
4.1.2	Statistisk validitet	41
4.1.3	Ytre validitet	42
5	Presentasjon av resultater	44
5.1	Alder og kjønn i utvalget	44
5.2	Utviklingshemning	44
5.3	Autismespektervansker	45
5.4	Ømfintlighet for sensoriske stimuli	45
5.5	Væremåtevariabler	47

5.5.1	Avhengighet og opptatthet av struktur	48
5.5.2	Andre sumvariabler knyttet til væremåte	49
5.6	Korrelasjonsanalyser	53
5.6.1	Autismespektervansker og samvariasjon	53
5.6.2	Sansebesvær og samvariasjon	54
5.6.3	Strukturavhengighet og samvariasjon	56
6	Diskusjon	58
6.1	Økende utfordringer med økt alder	58
6.2	Autismespektervansker	60
6.3	Sansebesvær	62
6.4	Avhengighet og opptatthet av struktur	66
6.5	Pedagogiske implikasjoner av studien.....	68
6.5.1	Behov for struktur og oversikt	69
6.5.2	Tiltak basert på ASF forskning	71
6.6	Avsluttende kommentar	72
6.6.1	Videre forskning.....	73
	Referanser	74
	Vedlegg 1 Informasjonsskriv.....	82
	Vedlegg 2 Samtykkeerklæringer.....	84
	Vedlegg 3 Svarbrev REK.....	87
	Vedlegg 4 Svarbrev personvernombud OUS.....	89
	Vedlegg 5 Diagnosespesifikt spørreskjema	91
	Vedlegg 6 Væremåteskjema	92

Tabeller

Tabell 1: Spørsmål som inngår i SumØmfintligStimuli.	s.30
Tabell 2: Spørsmål som inngår i SumTvang.	s.31
Tabell 3: Spørsmål som inngår i SumForventning.	s.31
Tabell 4: Spørsmål som inngår i SumStruktur.	s.32
Tabell 5: Spørsmål som inngår i SumFRU.	s.32
Tabell 6: Spørsmål som inngår i SumOmgjengelighet.	s.33
Tabell 7: Spørsmål som inngår i SumIgangsetting.	s.33
Tabell 8: Spørsmål som inngår i SumMotivasjon.	s.33
Tabell 9: Spørsmål som inngår i SumInteresser.	s.34
Tabell 10: Grad av utviklingshemning i utvalget.	s.44
Tabell 11: Oversikt over SCQ totalskårer og delskårer, samt fordeling mellom kjønn.	s.45
Tabell 12: Oversikt for SumØmfintligStimuli fordelt på kjønn.	s.45
Tabell 13: Gjennomsnittsskåre fordelt på kjønn for spørsmålene i SumØmfintligStimuli.	s.46
Tabell 14: Frekvenstabell: Om målpersonen har få eller svake uttrykk for opplevelse av smerte (spørsmål 46).	s.46
Tabell 15: Reliabilitetstest av sumvariabler med Cronbach alpha.	s.47
Tabell 16: T-test av gjennomsnittsverdier for målpersoner over og under 16 år.	s.48
Tabell 17: Gjennomsnitt fordelt på kjønn for SumStruktur.	s.48
Tabell 18: Gjennomsnitt fordelt på kjønn for SumStrukturOpptatt og SumStrukturAvhengig.	s.49
Tabell 19: Gjennomsnittsfordeling og standardavvik på spørsmål 331, 62a og 62b, fordelt på kjønn.	s.49
Tabell 20: Gjennomsnitt fordelt på kjønn for SumTvang.	s.50
Tabell 21: Gjennomsnitt fordelt på kjønn for SumForventning.	s.50

Tabell 22: Gjennomsnitt fordelt på kjønn for SumFRU.	s.50
Tabell 23: Gjennomsnitt fordelt på kjønn for SumOmgjengelighet.	s.51
Tabell 24: Gjennomsnitt fordelt på kjønn for SumIgangsetting.	s.51
Tabell 25: Gjennomsnitt fordelt på kjønn for SumMotivasjon.	s.51
Tabell 26: Gjennomsnitt fordelt på kjønn for SumInteresser.	s.52
Tabell 27: Om målpersonen har redsel for situasjoner der han/hun kan tiltrekke seg andres oppmerksomhet.	s. 52
Tabell 28: Grad av ASF korrelert med utviklingshemning fordelt på kjønn.	s. 53
Tabell 29: Grad av ASF korrelert med SumØmfintligStimuli og SumStruktur fordelt på kjønn.	s.53
Tabell 30: Grad av ASF korrelert med sumvariabler fra VM.	s. 54
Tabell 31: SumØmfintligStimuli korrelert med grad av utviklingshemning.	s.55
Tabell 32: SumØmfintligStimuli korrelert med <i>sosial fobi</i> og <i>smerteuttrykk</i> .	s.56
Tabell 33: SumØmfintligStimuli korrelert med sumvariabler fra VM.	s. 56
Tabell 34: SumStruktur korrelert med sumskårer fra VM.	s. 57

1 Introduksjon

Fragilt X syndrom (FXS) er den vanligste kjente formen for arvelig utviklingshemning. Siden Martin og Bell (1943) gav sin første beskrivelse av FXS, har særtrekk blitt forsøkt manifestert gjennom en rekke studier av kognisjon, autismetrekk og sosiale og emosjonelle, samt medisinske forhold ved diagnosen. Med en spesialpedagogisk fagvinkel er det viktig å se menneskene i et bredere perspektiv, noe som er hensikten med denne studien. Mennesker med FXS beskrives å være en svært heterogen gruppe. Unyanserte oppfatninger av diagnoser kan føre til at det legges for stor vekt på beskrevne særtrekk og diagnostiske kjennetegn. Med en deskriptiv kvantitativ studie av FXS gruppa er det et ønske å finne særtrekk som virker inn på væremåte, og som derigjennom er vesentlig for spesialpedagogisk tilrettelegging.

1.1 Presentasjon av tema og hensikt

Praktiske erfaringer har vært avgjørende i valg av tema for denne oppgaven. Gjennom arbeid på Frambu – senter for sjeldne funksjonshemninger har jeg fått kjennskap til gruppa. Det er et ønske at denne studien skal bidra til å styrke egen kompetanse, og å bidra til økt fokus og spre kjennskap om FXS til foresatte og fagpersoner.

Det er i den senere tid oppstått et økt fokus på komorbiditet mellom sjeldne genetiske tilstander og autismespekterforstyrrelser (ASF), blant annet gjennom samarbeidet ”autisme og genetiske syndromer” mellom Autisemeenheten og Frambu. Både internasjonale studier, samt egne praktiske erfaringer viser at mennesker med FXS kan ha trekk som er forenelige med autismespekterforstyrrelser (ASF). Når trekk ved FXS beskrives som *autistiske* kan det medføre at man stiller spørsmål om tiltak rettet mot mennesker med ASF kan benyttes også for FXS gruppa. Spørsmålet om autisme er en del av særtrekkene hos mennesker med FXS, eller om autismediagnose er relevant for å fasilitere gode tilbud til mennesker med FXS, er et komplekst tema i litteraturen (Hall, Lightbody, Hirt, Rezvani & Reiss, 2010). Dette gir et ønske om å utforske forskjeller og likheter mellom gruppene. Det er også av stor interesse å undersøke variasjoner mellom kjønn, og hvordan særtrekk viser seg i ulike alderssegmenter. Kjønnsmessige forskjeller er beskrevet i litteraturen (Hagerman, 2004), og kognitive evner har vist seg å falle med alder sammenlignet med jevnaldrende (Mæhle & Houge, 2011). Det er derfor av stor interesse å undersøke hvordan disse ulikhetene og forandringene kan komme til uttrykk i væremåte.

Ømfintlighet for sensoriske stimuli er beskrevet hos mennesker med FXS, og linkes til hypersensitive reaksjoner på sansestimuli, vansker med å agere adekvat på ulike stimuli, og sosial fobi hos eldre mennesker med FXS (Baranek et al., 2008; Hagerman, 2002b). Selv om forekomsten av disse vanskene er høyere hos mennesker med FXS enn hos de fleste andre barn, er det uklart hvordan det virker inn og samvarierer med andre særtrekk.

Det er et sterkt ønske i studien at beskrivelser av barn og unge med FXS skal bygge på nære omsorgspersoners rapporteringer. Oppgaven har en spesialpedagogisk dimensjon, ved at særtrekk i væremåte kartlegges basert på kontekstualisert informasjon fra foreldre/foresatte. Dette gir muligheten til å diskutere væremåte hos mennesker med FXS basert på nære omsorgspersoners beskrivelser av væremåte i ulike sammenhenger.

1.1.1 Hensikt

Det er ikke gjennomført noen systematisk forskning på den norske populasjonen med FXS tidligere. Derfor er det et ønske om at denne studien kan være et bidrag til kartlegging av norske forhold, for så å kunne se resultatene i sammenheng med internasjonale studier. Tematisk forsøker oppgaven å knytte forskning og praksis nært sammen. Valget er basert på et ønske om at empiri kan ha praktiske implikasjoner for nærpersoner rundt mennesker med FXS. Verktøyene som benyttes i studien kan brukes på andre populasjoner og utvalg. Dette gir muligheten for sammenligninger på tvers av grupper, og studien kan derfor ha kumulative egenskaper ved at resultatene får gyldighet gjennom sammenligning med andre grupper.

1.2 Presentasjon av forskningsspørsmål

Med utgangspunkt i bakgrunn og hensikt for studien, er det produsert tre forskningsspørsmål som skal belyse tematikken. Disse lyder som følger:

- Hva kjennetegner væremåte i sosial samhandling hos gutter og jenter med FXS?
- I hvilken utstrekning har sansebesvær sammenheng med væremåte hos barn og unge med FXS?
- Hvilke pedagogiske implikasjoner fremkommer av studien?

1.3 Avgrensning og avklaring av begreper

Den diagnostiske beskrivelsen av fragilt X syndrom og autismspekterforstyrrelser i oppgaven er fokusert mot særtrekk i væremåte som har konsekvenser for samhandling. Medisinske forhold og lignende karakteristika er tatt med i beskrivelsen for å gi en mer fullverdig teoretisk beskrivelse av gruppa. Beskrivelser av autismspektervansker er relevant for å vise samvariasjon og ulikheter mellom FXS og ASF. Diskusjon av pedagogiske implikasjoner bygger på teorier om samhandling, egne erfaringer og praktiske konsekvenser av resultatene i undersøkelsen. Bruken av metodiske verktøy vies stor plass ettersom spørreskjemaene som brukes i denne studien er relativt ukjente. Samtidig krever de operasjonalisering gjennom summering av skårer for å bedre studiens reliabilitet. Nedenfor følger en avgrensning av sentrale begreper i oppgaven.

Væremåte

Mye av oppgavens avgrensning ligger i operasjonaliseringen av begreper som brukes. *Væremåtebegrepet* kan tolkes med tilsvarende innhold som atferdsbegrepet i psykologien. Likevel er begrepet *atferd* knyttet til hva mennesker gjør, og kan på den måten fremstå som noe begrensende i denne sammenheng. Samspill er sentralt for en persons væremåte, ettersom det innebærer en dynamikk, der samspillspartnere formes gjennom interaksjon, både med andre mennesker, og det omgående miljøet. Det atferdsmessige aspektet ved væremåte omhandler det personen foretar seg som svar på indre og ytre påvirkning (Bø & Helle, 2008). Mennesker er i konstant relasjon til sine omgivelser, og vi oppfører oss sjeldent uavhengig av våre omgivelser. Væremåte i denne oppgaven innebærer en persons væremåte i sosialt samspill med andre mennesker. Væremåtebegrepet er operasjonalisert gjennom spørsmål i spørreskjemaene, og det legges spesielt stor vekt på resultater som er sammenlignbare med andre studier. Dette kan medføre at vesentlige særtrekk hos den enkelte ikke inngår i resultatbeskrivelsene fra studien.

Utviklingshemning

Opgavens bruk av begrepet utviklingshemning tar utgangspunkt i det internasjonale klassifikasjonssystemet International Classification of Diseases (ICD-10). I dette klassifikasjonssystemet er graden av utviklingshemning fastsatt etter resultat på intelligenstester, samtidig som det er et krav om kartlegging av adaptive ferdigheter (vansker med å tilpasse seg krav fra vanlige sosiale miljøer), som må foreligge før en kan

diagnostisere utviklingshemning. Dette innebærer at klassifiseringen tar utgangspunkt i en kombinasjon av testet intelligens og atferdsbeskrivelse. Den kognitive svekkelsen viser seg gjennom hemning av ferdigheter som påvirker det generelle intelligensnivået, som da innebærer kognitive, språklige, sosiale og motoriske utviklingsdomener. ICD-10 deler inn utviklingshemning i fire ulike grader; lett, moderat, alvorlig og dyp (Helsedirektoratet, 2012). Utviklingshemning kjennetegnes ved svekkede ferdigheter som påvirker det generelle intelligensnivået (Rognhaug & Gonnæs, 2008). Dette kan være ferdigheter som omfatter språk, kognisjon og motorikk (Helsedirektoratet, 2012). Som oftest er det snakk om en sammensatt problematikk av ferdighetene nevnt overfor. Den nedsatte kognitiv fungeringen karakteriseres ved en varierende grad av redusert evne til tenkning, problemløsning, hukommelse og persepsjon. Variasjon og individualitet hos hver enkelt elev setter krav til en kartlegging av elevens kognitive og fysiske evner og forutsetninger (Melgård, 2000).

1.4 Oppgavens oppbygging

Oppgaven består videre av 5 hoveddeler; teoretisk grunnlag, metodiske betraktninger, en vurdering rundt studiens validitet og reliabilitet, presentasjon av resultater og diskusjon. Den teoretiske delen gir en innføring i fire sentrale temaer; fragilt X syndrom, autismspekterforstyrrelser, sansebesvær og teori om samspill og miljøets betydning. Metodiske betraktninger gir beskrivelser av metodiske valg, og hvordan undersøkelsen er gjennomført. Vurderinger av studiens validitet og reliabilitet er viet plass etter metodiske betraktninger. Resultatene gir et relativt stort tallmateriale som presenteres i oppgavens tredje del. Siste del av oppgaven er en diskusjon basert på studiens funn.

2 Teoretisk grunnlag

Teori om fragilt X syndrom er viktig for å kunne besvare forskningsspørsmålene presentert innledningsvis. Teoretiske perspektiver som inngår i væremåte er sentralt for å kunne se resultater i lys av tidligere studier. Etersom resultatene baserer seg på et relativt lite utvalg, blir resultatene mer gyldige om en ser de i sammenheng med andre studier på andre grupper. Beskrivelser av autismespekterforstyrrelser vies stor plass i teorikapittelet. Årsaken til dette er den store forskningsmessige fokuseringen på sammenhenger mellom autisme og FXS.

Med bakgrunn i dette har det spesialpedagogiske aspektet ved tilrettelegging to hovedtemaer som presenteres til slutt i teorikapittelet: (1) den voksnes rolle i samspillet, og (2) hvordan en legger til rette omgivelsene slik at barnet best kan være bedre i stand til å forstå sine omgivelser.

2.1 Om fragilt X syndrom

Fragilt X syndrom (FXS) er den mest vanlige arvelige genetisk betingede tilstanden som innebærer utviklingshemning (Mæhle & Houge, 2011). Martin og Bell, to fysikere fra England, var de første til å beskrive tilstanden da de omtalte 11 gutter med utviklingshemning gjennom flere generasjoner i samme familie (Martin & Bell, 1943). Senere publiserte Herbert Lubs (1969) en artikkel som beskriver utviklingshemning hos to gutter, der enden av X kromosomet var fragilt (skjørt). I 1991 ble genet Fragile X Mental Retardation 1 (FMR1) funnet på X kromosomet (Hatton et al., 2002), det samme året som DNA tester ble tilgjengelig (Hagerman, 2000b).

FXS er assosiert med svekkelse i en rekke sentrale utviklingsmessige domener, inkludert arbeidsminne, oppmerksomhet, adaptive ferdigheter og sosiale ferdigheter (Garrett, Menon, MacKenzie & Reiss, 2004). De sosiale vanskene blir ofte sammenlignet med autismelignende trekk, og fremstår som en av de tidligste kjennetegnene på FXS (Garrett et al., 2004). Jenter vises ofte å være mindre påvirket av tilstanden enn guttene, og fungerer ofte kognitivt innenfor normalområdet (Frambu, 2012; Mæhle & Houge, 2011).

2.1.1 Forekomst / prevalens

Beregnet forekomst estimeres til cirka 1:3500-4000 gutter og 1:6000-8000 jenter (Cornish et al., 2005; Frambu, 2012; Mæhle & Houge, 2011). Hagerman (2008) argumenterer for at disse estimatene er noe lave, ettersom slike tall på forekomst ofte er basert på mennesker med kognitive vansker og utviklingshemning som mottar opplæring i spesialklasser eller lignende. Spesielt forekomsten hos jenter kan være underestimert da flere jenter med FXS ikke har noen form for spesielle behov for tilrettelegging, og derfor ikke mottar spesialpedagogiske tiltak (Hagerman, 2008).

Omregnet for Norge, som har en befolkning på i overkant av 5 millioner (SSB, 2011), og en fødselsrate i 2011 på 60 000 (Folkehelseinstituttet, 2013), vil dette tilsi cirka 660 menn og 360 kvinner med FXS, med en anslagsvis fødselsrate på 8 gutter og 4 jenter i Norge hvert år.

2.1.2 Årsak

Årsaken til FXS skyldes en mutasjon i FMR1 genen (Fragile X Mental Retardation 1) som ligger på X-kromosomet. Dette genet er sentralt i hjernens utvikling og danner et mRNA transportprotein som påvirker hvordan nerveceller arbeider sammen (Mæhle & Houge, 2011). Denne mutasjonen gjør at en sekvens av arvestoffet (CGG repetisjoner) opptrer unormalt mange ganger hos samme person. Hos den vanlige befolkningen inneholder denne sekvensen 6-40 repetisjoner. Hos mennesker med fullmutasjon FXS er antallet CGG repetisjoner uvanlig mange (over 200), noe som resulterer i at genet ikke klarer å lage sitt genprodukt, som kalles Fragile X Mental Retardation Protein (FMRP). CGG repetisjoner fra 55-200 omtales som premutasjon, og hindrer ikke selve avlesningen av genet, men gjør den vanskelig nedbrytbar for cellen, og bidrar til at enkelte celler er sårbare gjennom livsløpet. Særlig celler i lillehjernen er utsatt, og for menn med premutasjon kan dette føre til såkalt Fragile X Tremor Ataxia Syndrom (FXTAS), som er en neurologisk sykdom med et beslektet klinisk bilde til parkinsons sykdom (Hall et al., 2010). 40% av mannlige premutasjonsbærere har FXTAS ved 67 års alder, mens kvinner med premutasjon har 20 % økt sjanse for å oppleve overgangsalder før fylte 40 år (Mæhle & Houge, 2011). Mennesker med FXS premutasjon har ellers oftere vansker med konsentrasjon, oppmerksomhet og impuls kontroll enn ellers i befolkningen (Cornish, Li, et al., 2008).

Som oftest er det moren som er arvebærer av FXS genet. Jenter har to X kromosomer, og virker derfor noe beskyttet mot konsekvensene av manglende FMRP produksjon med bakgrunn i at de har et ekstra X-kromosom som til dels kan kompensere for det andre (Berry-Kravis & Knox, 2011).

2.1.3 Diagnostisering og kliniske kjennetegn

I dag foregår diagnostisering gjennom testing av DNA ved blodprøver. Klinisk diagnostisering er i dag uvanlig, da genetisk testing er stadig mer tilgjengelig og mindre kostnadsfylt enn tidligere. Det er beskrevet en rekke fysiske kjennetegn, men mange med FXS, da spesielt jentene, har ofte ingen spesielle fysiske særtrekk. Likevel er det enkelte kjennetegn som er typiske for gruppa, der noen kjennetegn er mer fremtredende enn andre (Hagerman, 2002b). Fysiske særtrekk er mest vanlig hos gutter, og det er spesielt tre særtrekk som er vanlige; langt ansikt, store ører, store testikler, men kun 80-90% av guttene har klare tilfeller av en eller flere av de tre nevnte hovedtrekkene i utseende. Det er klare eksempler på klassiske tilfeller av FXS, men ofte er de fysiske trekkene så alminnelige hver for seg, at de har marginal nytteverdi når en skal stille klinisk diagnose (Hagerman, 2000b). Likevel kan unge gutter med disse fysiske kjennetegnene, sammen med utviklingshemning, føre diagnostikere på tanken om FXS.

De siste årene har det vært en stor økning av forsøk på å isolere kjernevansker hos mennesker med FXS (Cornish, Sudhalter & Turk, 2004). Videre i beskrivelsen av FXS rettes fokus mot medisinske, sosiale og emosjonelle, kognitive og språkmessige forhold ved diagnosen.

2.1.4 Medisinske forhold

Medisinske forhold handler om kroppslige og fysiske særtrekk som virker inn på personens fungering, og derigjennom væremåte. Mange mennesker med FXS har hypermobile ledd og plattfot, samt overstrekkbare ledd som særlig finnes i ytterste fingerledd. Bilyder på hjertet stammer ofte fra mitralklaffene, og har som regel ingen praktisk betydning, men kan ofte være årsak til bekymring hos foreldre til barn med FXS. Skjeling og brytningsfeil i øynene er generelt vanlig hos mennesker med utviklingshemning, også for denne gruppa. I småbarnsalderen er mellomørebetennelser relativt vanlig, og kan føre til mange legebesøk (Frambu, 2012; Mæhle & Houge, 2011).

15-20% av gutter med FXS har krampeanfall som konsekvens av epilepsi, mens dette er tilfelle hos kun cirka 5% av jentene (Frambu, 2012; Hagerman, 2000b). Hos mange barn med FXS forsvinner disse anfallene med økt alder, mens andre har det gjennom ungdomstiden og voksenlivet. Anfallene er oftest av en type som er mulig å redusere med bruk av medisiner (Hagerman, 2002a).

Søvnvansker er vanlig hos småbarn med FXS (Hagerman, 2002a). Både innsovningsvansker og hyppige oppvåkninger er vanlig (Frambu, 2012). Dersom nivået av Melatonin (kroppens søvnhormon) er lavt, kan medisiner som øker melatonin-nivået være til hjelp.

Hypermobile ledd og slappe muskler kan påvirke kroppsholdning og evnen til å stabilisere rygg og mage. Dette kan påvirke balanse og derigjennom evnen til finmotorisk aktivitet hos småbarn med FXS. I småbarnsalderen kan den sene motoriske utviklingen komme til uttrykk gjennom at barn med FXS sitter oppreist alene og griper leker senere enn andre barn. De er også ofte godt ute i sitt andre leveår før de tar sine første skritt (Hagerman, 2004).

2.1.1 Kognisjon

Det er forskjellige rapporteringer fra fagfeltet når funksjonsnivå basert på grad av utviklingshemning skal anslås for gutter og jenter. Blant gutter med fullmutasjon har 90% mild til moderat utviklingshemning, gjerne med et fall i IQ med årene (Hagerman et al., 2009; Mæhle & Houge, 2011). Fall i IQ innebærer at avstanden mellom mental alder og kronologisk jevnaldrende øker (Grøsvik, 2008). Guttene skårer oftest mellom 20 og 60 poeng på generelle intelligenstagere, men det finnes også mange gutter som befinner seg i borderline/ normalområdet for intelligens (Mæhle & Houge, 2011). Jenter med fullmutasjon har ofte lærevansker, og beskrevet forekomst av utviklingshemning varierer fra 25-60% (Hagerman et al., 2009; Mæhle & Houge, 2011; Powell, 2004).

Flere studier indikerer et mønster i den kognitive profilen til mennesker med FXS, og det er spesielt interessant at det er beskrevet store likheter mellom jenter og gutter, selv om individuelle forskjeller på andre utviklingsdomener er tilstede (Cornish et al., 2004). Undersøkelser av kognitive profiler på intelligenstagere viser at mennesker med FXS generelt presterer dårligere på oppgaver som krever å plassere informasjon i en viss rekkefølge når

man sammenligner med oppgaver som involverer integrert informasjon i en holistisk gestaltisk form (Cornish et al., 2004).

Et av de mest vanlige, konsistente fenotypiske trekkene hos unge barn med FXS er vansker med oppmerksomhet og hyperaktivitet. Disse vanskene er knyttet til områder innen konsentrasjon, overaktivitet og impulsivitet (Hagerman et al., 2009). Denne triaden av symptomer fører ofte til at barn med FXS blir klinisk diagnostisert med ADHD (Cornish et al., 2004). Spesielt guttene viser mer svikt i oppmerksomhet, urolighet, er mer impulsive, og kan oftere bli distraheret enn andre barn på samme utviklingsnivå uten FXS (Hagerman, 2004).

Mennesker med FXS beskrives ofte som gode til å gjenkjenne vanlige emosjonelle uttrykk hos andre. Denne evnen innebærer også en styrke i å gjenkjenne mennesker de har sett i den senere tid, eller som de har lagret i langtidshukommelsen (Turk & Cornish, 1998). Nettopp hukommelse for meningsfulle inntrykk er en generell styrke hos mennesker med FXS, og dette er også en styrke når en kompenserer for grad av utviklingshemning og lærevansker. Spesielt den visuelle hukommelsen gjør at mennesker med FXS kan gjenkjenne komplekse detaljer fra miljøet de er i (Cornish et al., 2004).

2.1.2 Språk

Gutter med FXS beskrives å ha en forsinket og atypisk språkproduksjon (Belser & Sudhalter, 2001). En forsinket språkutvikling refereres ofte til en generell kognitiv forsinkelse som ikke er spesiell for FXS gruppa, og vil derfor ikke beskrives nærmere i denne oppgaven. Jenter med FXS beskrives å ha relativt sterke verbale ferdigheter, men kan likevel inneha flere av karakteristikkene som beskrives nedenfor (Belser & Sudhalter, 2001). Videre vil beskrivelsen av språk konsentrere seg om hvordan spesielt gutter med FXS kan ha en atypisk språkutvikling, og hvordan dette implementerer seg videre i språkproduksjon.

Mot slutten av første leveår begynner barn i større grad å rette fokus mot det som befinner seg i de nærmeste omgivelsene. Dette fokuset oppnås ved å benytte ulike ferdigheter, som peking, blikkalternering, å vise gjenstander, samt å gi bort ting til andre (Smith, 2002). Slike ferdigheter inngår i hva som kalles felles oppmerksomhetsferdigheter, som tilegnes relativt naturlig hos barn med normal utvikling. Symbiotiske inntrykk fra auditive og visuelle stimuli

bidrar til innlæring av ord i småbarnsalderen (Tomasello, 1995). Barn med FXS beskrives ofte å ha vansker med å manøvrere flere sensoriske stimuli på en gang, noe som kan gjøre felles oppmerksomhet til en ferdighet som kan være vanskelig å beherske i ung alder. Barn med FXS har som nevnt en overhyppighet for mellomørebetennelser, noe som kan ha en negativ innvirkning på språkutviklingen (Rygqvold, 2008).

Den atypiske språkproduksjonen til gutter med FXS inndeles av Belser & Sudhalter (2001) i tangentiell, persevererende og repeterende tale. *Tangentiell* tale innebærer å innføre elementer i samtalen som ikke er berørt tidligere i dialogen, og å gi responser som ikke følger den logiske oppbyggingen i samtalen forøvrig. *Perseverende* språk innebærer å reinføre sine favorittemaer repeterende gjennom samtalen, uavhengig av samtaleemne. *Repeterende* tale er gjentakelser av ord, fraser eller lyder i samme ytring eller turtaking i samtalen (Belser & Sudhalter, 2001).

2.1.3 Særtrekk i væremåte

Høyt nivå av angst er vanlig hos mennesker med FXS (Cornish et al., 2004), og er den karakteristika som hyppigst benyttes når sosiale og emosjonelle forhold hos mennesker med FXS skal beskrives. De har en tendens til å virke blikksky og engstelige i sosiale lag. De kan vegre seg for å møte andres blick direkte, og vender seg ofte halvt bort når de hilser. Til tross for at mennesker med FXS ofte kan synes direkte øyekontakt er plagsomt, bør ikke dette tas som indikasjon på at man ikke er interessert i andre (Mæhle & Houge, 2011). Noe av skyhetskarakteristikken hos mennesker med FXS kan antageligvis tilskrives angst og men også overfølsomhet for sanseintrykk kan være en kilde til at mennesker med FXS beskrives som blikksky. Sanseømfintlighet beskrives under punkt 2.3 senere i oppgaven.

Angst

I en studie av Cordeiro, Ballinger & Hagerman (2011) med 58 gutter og 39 jenter med FXS, var det høye funn av angstsymptomer i gruppa. Forekomsten var høyere hos mennesker med FXS enn hos mennesker med idiopatisk autisme og mennesker med Williams syndrom. 82,5% av FXS gruppa fylte kriteriene for en angstlidelse, mens 58,3 % møtte kriteriene for flere angstlidelser. De vanligste formene for angst var spesifikk fobi (46,9% av gutter og 51,4% av jentene) sosial fobi (34,5 % av gutter og 39,5 % av jenter) og selektiv mutisme (At man ikke snakker i bestemte sammenhenger ikke snakker, 28,1 % av gutter og 25,3 % av jenter). Samme undersøkelse viste at 53,6 % av utvalget brukte medisiner mot

angstsymptomer (Cordeiro et al., 2011). Forekomst av angstlidelser var ikke avhengig av grad av utviklingshemning og autismespektervansker. Kun selektiv mutisme var signifikant mer vanlig hos mennesker med FXS og autisme. Selv om ikke selektiv mutisme er klassifisert diagnostisk som en angstlidelse, er selektiv mutisme ifølge Cordeiro et al. (2011), å betrakte som en alvorlig form for sosial angst.

Tvangsmessig atferd og behov for struktur i omgivelsene

Moss, Oliver, Arron, Burbidge & Berg (2009), beskrev at barn med FXS viste høy forekomst av stereotypiske håndbevegelser (å bevege hendene i bestemte, repeterende mønstre). De var også mer opptatt av at objekter hadde sine faste plasser, og hadde tendenser til å repetere ord og setningsfraser. Barn med FXS ble beskrevet å insisterte mer enn barn med andre genetiske syndromer på å ha samme struktur på dagene sine, og at ting i omgivelsene skulle ha sine faste plasser.

Barn med FXS kan oppleve at det er vanskelig å sortere informasjon fra omgivelsene. Dette kan bidra til at faste rutiner og en tydelig struktur i hverdagen kan være svært viktig. Kjente landemerker, som kan bestå av kjente tider, aktiviteter og mennesker, kan gi opplevelsen av å kjenne igjen og identifisere trygge markører i hverdagen (Moor, 2000). Det er publisert lite empirisk forskning om behovet for struktur hos barn med FXS. Å være opptatt av struktur og forutsigbarhet betinger miljømessige hensyn, og hjelpen må være virkemidler basert på behov hos den enkelte person. Sansevarhet, angstrelaterte vansker, samt kognitiv svekkelse er alle særtrekk der vanlige tiltak fokuserer på struktur og forutsigbarhet som mål og virkemiddel.

Øyekontakt

Som nevnt tidligere beskrives ofte mange mennesker med FXS som blikksky. Når de møter nye mennesker har de en tendens til å ha ulike fremtredener som gjør at de unngår å møte andres blikk mer enn i korte trekk (Hagerman et al., 2009). På tross av generelt lite initiativ til direkte øyekontakt, fremstår de fleste mennesker med FXS som vanlig interessert i andre mennesker (Mæhle & Houge, 2011). Terapeutiske former rettet mot mennesker med autisme har ofte fokus på høy grad av struktur og fokus på blikkontakt som en viktig brikke i sosialt samspill (Cohen, Vietze, Sudhahalter, Jenkins & Brown, 1991). Blikkontakt i felles oppmerksomhetssituasjoner gjør at barnet er i stand til å ikke bare fordype seg i gjenstander

eller handlinger på egenhånd, men at barnet da har egenskaper til å inngå i relasjonell oppmerksomhet om noe sammen med andre (Jones & Carr, 2004; Tomasello, 1995).

Tolkningen av blikkontakt som en grunnleggende sosial ferdighet, har en utforskende dimensjon ved at man ønsker å forstå hvorfor enkelte unngår å møte blikket til andre mennesker. Dette har medført intervensjonsmessige konsekvenser for mennesker med autisme (Cohen et al., 1991). Strukturerte intensive intervensjoner begrunnes i at de tar for seg kjernevansker hos barn med autisme, og gjennom å påvirke kjernevanskene kan intervensjonen også ha effekt for andre utviklingsdomener. For mennesker med FXS, som ofte beskrives som mer sosialt kontaktsøkende enn mennesker med autisme (Mæhle & Houge, 2011), må slike intervensjoner begrunnes i den enkeltes individuelle forutsetninger, og eventuelle sosiale interaksjonsvansker.

Sosiale ferdigheter

En studie av Cornish et al. (2005) viste at selv om barn med FXS ble diagnostisert med idiopatisk autisme, hadde de større evne til å gjenkjenne ansiktsuttrykk og følelser i ansiktsuttrykk enn barn med autisme (Cornish et al., 2005). En nyere undersøkelse fra amerikanske forskere gav også støtte til at en rekke sosiale ferdigheter skilte barn med dobbeltdiagnosen FXS og autisme fra barn med autisme (Hall et al., 2010). Blant ferdighetene var sosiale smil, kvaliteten i sosiale relasjoner, felles oppmerksomhet, samt kommunikative ferdigheter som peking og imitasjon. Undersøkelsen gir støtte til tidligere antagelser om at barn med FXS viser bedre gjensidige sosiale og kommunikative ferdigheter enn barn med idiopatisk autisme (Hall et al., 2010).

Forekomst av tvangspreget atferd er beskrevet både hos mennesker med FXS (Moss et al., 2009). Dersom man deler stereotyp og tvangsmessig atferd i ulike segmenter, er det kun et segment som barna med FXS (N=191) viste, som samvarierte med ASF. Samvariasjonen bestod av at de barna med FXS som skåret høyt på ASQ (Autism Screening Questionnaire) også skåret høyt på forekomst av at de insisterte på at objekter alltid skulle ha samme plass i omgivelsene (Moss et al., 2009).

2.2 Autismespekterforstyrrelser

Flere av særtrekkene hos mennesker med FXS som er beskrevet tidligere, er forenelig med beskrivelser av autismespektervansker. Det er gjort en rekke studier om sammenhengen mellom FXS og autisme, samtidig som litteraturen innen autismeforskningen er svært omfattende. Det er grunn til å anta at kunnskap gjennom studier på mennesker med autisme også kan være relevant med tanke på barn og unge med FXS.

2.2.1 Særtrekk og definatoriske kjennetegn

Autisme er definert som et atferdssyndrom, og etter at Leo Kanner (1943) beskrev autisme for første gang, har de diagnostiske kriteriene for autisme stadig utviklet seg. De er i dag samlet i diagnosemanualene "International Classification of Diseases" (ICD-10), og Diagnostic and Statistic Manual (DSM IV). Mennesker med autisme innehar omfattende vansker innen språk og kommunikasjon. De har avvikende relasjoner til andre mennesker, samt at de viser spesielle reaksjoner på omgivelsene. For hver av de atferdsmessige kjennetegnene er det et sett særtrekk som inngår i hver av dimensjonene. I diagnosemanualene fungerer disse kriteriene som sjekklister, der en krysser av på kjennetegn som personen innehar. Dersom en krysser av på tilstrekkelig antall særtrekk, blir autisme diagnostisert (American Psychiatric Organisation, 1994; Statens Helsetilsyn, 1999). Sjekklister åpner for at noen kjennetegn passer noen, men ikke for alle, og det er store individuelle forskjeller knyttet til særtrekkene som kjennetegner autisme (Eilertsen et al., 2007). De autistiske vanskene omtales ofte gjennom *den autistiske triaden*, og karakteriseres gjennom alvorlige forstyrrelser i sosial kommunikasjon, gjensidig sosial interaksjon samt begrenset og repeterende atferd og forestillingsevne (Helverschou & Steindal, 2011).

Den kvalitative svekkelsen i *kommunikasjon* kjennetegnes ved blant annet manglende evne til å initiere eller opprettholde samtaler med andre, samt en sen eller mangelfull utvikling av talespråk og mangel på spontan fantasilek og imitasjon (American Psychiatric Organisation, 1994).

Avvik i *sosialt samspill* kan vise seg på ulike måter. Alt fra å være fullt tilbaketrukket i sin egen tilstand, videre til passiv respondering på andres initiativer, frem til de som ønsker å initiere til sosialt samspill, men som mangler sosiale ferdigheter til å interagere adekvat med andre (Jordan & Powell, 1995). Personer med ASF beskrives ofte å ha en grunnleggende vanske og manglende interesse for sosial kontakt og oppmerksomhet (Jordan & Powell,

1995) En mastergradsstudie av Hoëm og Andresen (2012) viste at barn med Cornelia de Langes Syndrom ble beskrevet som mer sosiale og kontaktsøkende ($M=3.3$, $SD=0.99$) enn barn med autisme ($M=2.8$, $SD=0.87$). Resultatene er basert på samme spørreskjema og variabler som brukes i denne studien.

Ensporet *atferd og interesser* er et karakteristisk trekk hos mange med autismspektervansker, og er det siste domenet i den autistiske triaden. Dette domenet omhandler sterke relasjoner til objekter, temaer og interessefelt (Helverschou & Steindal, 2011). Noen kan bli uvanlig oppslukt av spesielle interesser, og har evnen til å innhente store mengder informasjon om det som interesserer dem (Kaland, 2010). Væremåte kan også innebære å utvikle rigide forhold til objekter og temaer som viser seg for omgivelsene gjennom en stereotyp og repeterende atferd (Kasari, Freeman & Paparella, 2000).

Noen barn viser tydelige tegn på autisme allerede før de fyller 1 år, mens andre har en relativt normal utvikling frem til 3 års alder (Holden, 2005). Et av de tidlige tegnene på autisme er en mangelfull utvikling av felles oppmerksomhetsferdigheter, mens andre karakteristiske kjennetegn, slik som stereotyp og repeterende atferd ofte oppstår noe senere (Corsello, 2005).

2.2.2 Væremåte hos mennesker med autisme

Autisme som diagnose predikerer ikke med sikkerhet noen bestemte utviklingsscenarioer. Alle barn forandrer seg gjennom utvikling, noen mer drastisk enn andre. Enkelte barn som får autismediagnose i tidlig alder har relativt normal utvikling, og kan delta i generell undervisning på lik linje med de fleste andre barn, mens andre ikke utvikler grunnleggende sosiale, kognitive og språklige ferdigheter (Jordan & Powell, 1995). Innenfor samme aldergruppe er det store behovsforskjeller hos barn med autisme. En 2 åring som viser lite samspill med andre, som snakker lite og viser få ansiktsuttrykk, har svært forskjellige behov og forutsetninger enn 3 åringen som kan lese opp-ned og sitere lange tegnefilmer utenat. Ulike grupper i autismebefolkningen trenger forskjellige tiltak der den enkeltes individualitet må være utgangspunkt for å skape et godt behandlingstilbud (Eilertsen et al., 2007).

Begrepet autismspekterforstyrrelser (ASF) viser at tilstandene i denne gruppa befinner seg langs et kontinuum, samtidig som tilstander i gruppa bygger på likhetene beskrevet overfor. Alvorlighetsgrad varierer også; språklige ferdigheter kan variere fra språkløshet til stort

vokabular og flytende setninger, og relasjonen til andre mennesker kan variere fra normal interesse for andre mennesker, til de som har et sterkt ønske om å være for seg selv (Eilertsen et al., 2007).

Fokusrelaterte utførelsesvansker

Fokusrelaterte utførelsesvansker (FRU) har fått økt oppmerksomhet i forskningen på autisme i Norge de siste 10-15 årene (Autismeenheten, 2011). FRU beskrives gjennom to karakteristiske kjennetegn: (1) Vansker knyttet til utførelsen av bevegelser og handlinger, samt at (2) utførelsesvanskene blir utløst når personens oppmerksomhet blir fokusert på ens egen utførelse av bevegelser og handlinger (Martinsen, Gårder & Hildebrand, 2008). Når barna med FRU fokuserer oppmerksomheten mot spesielle bevegelser eller handlinger klarer de ofte ikke å gjennomføre dem. De tenderer til å avbryte seg selv, og fremstår som klossete, urytmisk og stakkato i fokuserte bevegelser. Når de derimot ikke er bevisste på det de utfører, kan bevegelsene ofte være smidige og naturlige (Martinsen, Gårder, et al., 2008). Pedagogiske prinsipper rettet mot FRU kan stå i direkte kontrast til oppmerksomhetsdirigerende og eksplisitt undervisning som er vanlige tiltak for barn med autisme (Storvik, Martinsen, Nærland & Wigaard, 2011).

Strukturavhengighet og opptatthet

Martinsen og kollegaer (2007c) undersøkte væremåte hos 201 mennesker med autisme, der foreldrene beskrev hvordan sine barn reagerer på det fysiske og sosiale miljøet. Studien er basert på samme verktøy som denne undersøkelsen på barn med FXS. Resultatene av analysen resulterte i to faktorer som beskriver reaksjoner på strukturering; StrukturAvhengig og StrukturOpptatt. *StrukturOpptatt* gjenspeiler at personen er opptatt av at omgivelsene er strukturerte og ordnet på spesielle måter, at aktiviteter foregår på faste steder med faste gjenstander, at rekkefølgen på aktiviteter ikke varierer, og at gjenstander har sin faste plass. Kort summert handler det om personens opptatthet av å få oversikt. *StrukturAvhengig* vises ved at brudd på struktureringen av omgivelsene gir negative reaksjoner hos barn og unge med autisme. Resultatene fra undersøkelsen viste at det var flere som var strukturopptatte enn strukturavhengige, og beskrivelsene kjennetegnet en undergruppe i utvalget. Omtrent 25 % ble beskrevet som strukturopptatte, og cirka 15 % ble beskrevet som strukturavhengige (Martinsen et al., 2007c).

I en studie med bruk av samme verktøy, fant Andresen, Hoem & Nærland (2013) at barn med Cornelia de Lange syndrom ble beskrevet å være signifikant mer avhengig og opptatt av struktur enn barn med autisme. Gjennomsnittskåre for ASF gruppa (N=14) var 2.17, mens barn med CdLs (N=7) skåret 2.98 på en samlet variabel som målte *både* opptatthet og avhengighet av struktur.

Svingninger i dagsform

Mange mennesker med autisme har betydelige variasjoner i dagsform. Dårlige dager kan være preget av større konsentrasjonsvansker, ubehag, trøtthet og nedsatt læringsevne. Aktiviteter, som på en god dag er interessante og motiverende, kan virke uoverkommelige og ubehagelige dagen etterpå (H. Martinsen, D. E. Eilertsen, K. Hildebrand & E. Norberg, 2007b). I ”Prosjekt væremåte” fant Martinsen og kollegaer (2007b) at 43% av et utvalg på 183 mennesker med autisme hadde betydelige variasjoner i dagsform. Slike utfordrende dager kan utløse et behov for alternative dagsplaner, dersom personen bruker dette i hverdagen. Med utgangspunkt i undersøkelsen overfor, tilsier dette at mer enn 1/3 av autismepopulasjonen har behov for alternative dagsplaner. Samtidig må en se mulige årsaksforklaringer på svingninger i dagsform. Reguleringsvansker i fordøyelsessystemet og menstruasjonsmerter hos kvinner er eksempler som understreker betydningen av gode medisinske utredninger av mennesker med autisme, spesielt i ungdomsalderen.

2.2.3 Forekomst av ASF hos mennesker med FXS

Tidligere eksisterte en generell tanke om å tilskrive sosiale, emosjonelle og atferdsmessige særtrekk hos mennesker med FXS til syndromet selv, og derfor ikke se det i sammenheng med andre tilstander. Fokuset i den senere tid er i større grad rettet mot tilfeller av samvariasjon mellom flere tilstander (komorbiditet), (Moss & Howlin, 2009). Dette innebærer at det er sameksistens mellom diagnosene, men ikke nødvendigvis at det eksisterer en årsakssammenheng mellom to tilstander.

Brown og kollegaer (1982) var de første til å beskrive sammenhengen mellom FXS og ASF. De fant at 18,5% av et utvalg på 22 gutter med FXS møtte kriteriene for autisme. Senere estimater for forekomst av ASF hos med mennesker med FXS har variert fra 5-60% (Clifford et al., 2007).

I litteraturen er det konsensus om at tidlig identifisering av autismevansker kan gi mulighet for intervensjoner som har større effekt jo tidligere de settes inn. Spesielt guttene med FXS viser høyere risiko for ASF, også sammenlignet med andre genetiske tilstander og normalt utviklede barn (Brock & Hatton, 2010; Hagerman et al., 2009). Prevalens for autisme hos gutter varierer fra 18-47% avhengig av størrelse på utvalget, og verktøy benyttet i undersøkelsene (Brock & Hatton, 2010). Flere fenotypiske trekk beskrives ofte som autismelignende (Mæhle & Houge, 2011), og ifølge Hagerman (2002b) innehar 90 % av guttene minst et karakteristisk kjennetegn på autisme. Med bakgrunn i Hagerman sine utsagn innebærer det at også de som ikke tilfredsstillt diagnostiske kriterier for autisme innehar enkelte autismelignende trekk.

En undersøkelse av 120 barn med FXS utført av Hall og kollegaer (2010) viste signifikant samvariasjon mellom intelligens og ASF for både gutter og jenter med FXS (Hall et al., 2010). Mennesker med FXS og autisme viste mer nedsatt kognitiv fungering enn barna med FXS uten autisme. Dermed antyder studien at høye forekomster av ASF karakteristikk i FXS gruppa kan være knyttet til alvorlighetsgraden av utviklingshemningen. –Desto mer alvorlig grad av utviklingshemning personen har, desto mer sannsynlig er det at han har ASF.

2.3 Sansebesvær

Uvanlige reaksjoner på sensoriske stimuli har vært en del av forskningen på autisme siden 60 tallet, men er i dag ikke en del av de diagnostiske kriteriene for ASF. Sansebesvær beskrives ofte som knyttet til stereotype bevegelser og spesielle reaksjoner på omgivelsene, som er kjente autismetrekk (Rogers, Hepburn & Wehner, 2003). Det avvikende responsmønsteret kan være til stor bekymring for foresatte (Oslo Universitetssykehus, 2012) Beskrivelser av ømfintlighet for sensoriske stimuli handler ofte om en overreaksjon eller underreaksjon i kontakt med noe. Det kan bety at opplevelser av lukt, smak, lyd, syn, taktile eller vestibulære inntrykk kan være svært vanskelig å forstå, eller oppleves som ubehagelige (Rogers & Ozonoff, 2005). Likevel kan sanseømfintlighet være en kilde til glede og begeistring. Lukter, lyder eller bevegelser som man i utgangspunktet kan synes er overveldende eller skremmende, kan også bli en særinteresse (Nærland, 2013).

Hos barn og unge med Asperger syndrom ble sensitivitet for sanseintrykk funnet hos ca 50%. Av 179 barn med Asperger syndrom var 79 (42%) registrert som vare for

sanseinntrykk. Sansevarhet i svært alvorlig og hemmende grad var registrert hos 23 personer (13 %) i utvalget (Martinsen, Jensen & Johannessen, 2008).

2.3.1 Ulike typer sansebesvær

Auditive stimuli omhandler lyder og inntrykk som påvirker hørselssansen. Æmfintlighet for lyder kan innebære å ikke klare å filtrere ut viktig informasjon fra lydbilde. Høye lyder, spesielt i høyt toneleie, kan også være brysomt, særskilt om de kommer overraskende på personen (Hagerman, 2000b).

Visuelle stimuli påvirker synet, og en æmfintlighet for det visuelle kan gi spesielle reaksjoner på blant annet lys, prikker, kontraster og annet. Et aspekt ved sensitivitet gjennom synet kan være at personen har vansker med å filtrere ut uviktige deler av synsinformasjonen (Nærland, 2013). En kan for eksempel bli forvirret eller ukomfortabel av skinnende lys, lys fra tv-skjermer, eller en kan bli overveldet dersom mange visuelle inntrykk kommer samtidig.

Dersom en person viser varhet for *vestibulære stimuli* kan dette innebære ubehag når balansesystemet utfordres i karuseller, eller når en blir kastet opp i luften av sine foreldre (Martinsen, Eilertsen, Hildebrand & Norberg, 2007a). Prosessering gjennom vestibulærsystemet hjelper mennesker å kontrollere balansen, holdningen og muskeltonus (Hagerman, 2000b).

Lukt og smak er også vanlige kilder til sanseerfaringer som må bearbeides og integreres slik at den enkelte kan forstå sin opplevelse av omgivelsene (Martinsen et al., 2007a).

Selv om de fleste som er overfølsomme for en stimuli ofte er overfølsomme for flere stimuli, behøver ikke det å bety at en er overfølsom for alle typer stimuli. På denne måten trenger det ikke være snakk om en generell overfølsomhet i nervesystemet, men heller spesifikke oppmerksomhetsregulerende vansker (Nærland, 2013).

2.3.2 Ulike reaksjonsmønstre på sansestimuli

Selv om hypotesene om at sensoriske vansker påvirker motoriske, sosiale og kognitive funksjoner hos mennesker med autisme startet på 1960 tallet, ble det først et økt fokus på disse vanskene fra starten av 1990 tallet (Rogers & Ozonoff, 2005). Da ble det beskrevet flere

førstehandsberetninger, av blant andre Williams (1994) og Grandin (1992), som med praktiske erfaringer gav et grunnlag for å undersøke om sensorisk overstimulering økte de sosiale vanskene hos mennesker med autisme. Teoriene fra 1960 tallet er fortsatt relevante, og videre vil jeg gi en kort beskrivelse av to hovedretninger som handler om ulike reaksjonsmønstre på sensoriske stimuli.

Oversensitivitet

Teorier om oversensitivitet baserer seg på to hypoteser. (1) Barn som er oversensitive reagerer mer aktivt og blir lettere overengasjert av sansestimuli, og (2) barn som er oversensitive har større vansker med å tilvenne seg sansestimuli enn andre barn (Rogers & Ozonoff, 2005). Teorienes empiriske opprinnelse kommer fra EEG undersøkelser der verdier på aktivisering av aktivitet i hjernen ble høyere ved sansemessig belastning hos mennesker med autisme enn hos andre. Slike EEG undersøkelser har i den senere tid styrket denne teorien, da mennesker med FXS viser større reaktivitet for sensoriske stimuli enn kontrollgrupper (Miller et al., 1999). Mennesker med FXS tenderer også til å være mer sensitive for sensoriske stimuli jo eldre de blir (Baranek et al., 2008). Disse spesielle reaksjonene på omgivelsene kan, ifølge Martinsen, Nærland, Steindal and Tetzchner (2006) være indirekte følger av et skjevt oppmerksomhetsfokus, som innebærer at oppmerksomheten fanges av uvanlige forhold. Dermed kan oppmerksomheten utløses av selektivt sterk stimulering, som gjør at enkelte kan ha perseptuelle referanser som er annerledes enn barn med normal utvikling (Martinsen et al., 2007c).

Undersensitivitet

Teorier om undersensitivitet handler om at enkelte barn har en svekkelse i det retikulære aktiveringssystemet, som gjør at barnet har vansker med å knytte sammen tidligere og nye erfaringer (Rogers & Ozonoff, 2005). Baranek og kollegaer (2008) fant i sin studie av småbarn med FXS at de yngste barna (9-12 måneder) ble beskrevet som passive barn av sine foreldre. Dette kan tyde på at barna med FXS var undersensitive for sansestimuli i ung alder. I førskolealder så det ut til at denne karakteristikken forandret seg, og at barna ofte viste mer oversensitivitet når de startet på skolen. Disse funnene er i tråd med annen forskning, der underreaktiviteten var dominerende i småbarnsalderen, men avtok i sammenheng med økt alder (Rogers et al., 2003).

Smertereaksjon

Smerte kan beskrives som et uttrykk for ubehag gjennom sanseintrykk. Når det tidligere er beskrevet at ømfintlighet kan innebære oversensitivitet og undersensitivitet, vil dette også inkludere reaksjoner på smerte. Med teorier om over –og undersensitivitet for sansestimuli som referanseramme, kan reaksjoner på smerte innebære både underreaksjon og overreaksjon på opplevelse av ubehag. Med bakgrunn i dette, er det urimelig å anta at barn har høy smerteterskel, selv om de reagerer lite på smerte i utgangspunktet (Nader, Oberlander, Chambers & Craig, 2004).

2.3.3 Sensoriske vansker hos mennesker med fragilt X syndrom

Ifølge Hagerman (2000b) er mennesker med FXS særlig sårbare for sanseintrykk gjennom berøring, syn, hørsel og bevegelse. En av årsakene til forhøyet sensitivitet for sansestimuli kan ifølge Hagerman ha sin årsak i at cerebellum er en del av hjernen som spiller en sentral rolle i prosesseringen av sensorisk informasjon, og at mennesker med FXS har en mindre cerebellum enn vanlig (Hagerman, 2000b).

En longitudinell studie av 13 gutter med FXS i småbarnsalderen viste at sensoriske prosesseringsvansker var tilstede allerede i svært ung alder (Baranek et al., 2008). Likevel viste undersøkelsen at vanskene tiltok når barna ble eldre. Variabler, som alder, kognitive evner og motoriske ferdigheter påvirket graden av sansebesvær, og kan derfor influere barnets evne til å respondere og prosessere sensoriske stimuli. Med slike undersøkelser er det nærliggende å anta at tidlige tiltak rettet mot evnen til å prosessere sanseinformasjon kan virke positivt inn på barnets senere evner til å interagere og lære fra omgivelsene sine (Baranek et al., 2008).

I en annen studie, undersøkte Rogers og kollegaer (2003) 20 småbarn (gjennomsnittsalder 34 måneder) med FXS i en komparativ studie av sensoriske vansker hos barn med autisme, ukjent utviklingsforstyrrelse og barn med normal utvikling. Resultatene fra studien viste at barn med FXS og autisme (N=7) viste mer uvanlige reaksjoner på sensoriske stimuli enn barna med kun FXS (N=13). Korrelasjonsanalyser i samme studie viste at FXS var den eneste gruppa der sansemessige vansker hadde sammenheng med IQ skåre ($r=-.48$). Studien viste også sammenheng mellom sensoriske vansker og sosiale / kommunikative ferdigheter

skåret på ADIr ($r=.50$)(Rogers et al., 2003). Studien viste generelt en tydelig sammenheng mellom klinisk diagnose (enten ASF eller FXS) og grad av sensoriske vansker.

Det er naturlig at mennesker med sansemessig ømfintlighet ofte ikke selv gir beskjed om når ting er vanskelig, eller hvordan det oppleves. Derfor kan det ofte være behov for at foreldre, andre nærpåsoner eller fagfolk bidrar til etterforskning av om sansebesvær kan være årsak til at omgivelsene kan oppleves vanskelige. Spesielt om barnets væremåte og fungeringsevne forandrer seg i spesielle kontekster vil det være naturlig at sansebesvær vurderes som en kilde til varierende væremåte (Nærland, 2013).

2.4 Sosial samhandling og miljøets påvirkning

Forskningsspørsmålene i denne oppgaven antyder at væremåte hos den enkelte må sees i både en relasjonell og transaksjonell kontekst. Selv om væremåte innebærer beskrivelser av individuelle karakteristikk, fremvises væremåte i sosiale sammenhenger, samtidig som relasjoner påvirker og former den enkeltes væremåte gjennom sosial omgang med miljømessige betingelser. Derfor vies siste del av teoretiske fremstillinger til interaksjonelle teorier og fokuset rettes mot samspill og fysiske miljøet rundt individet. Spørreskjemaene som brukes i denne studien fremstår som en individorientert kartlegging. Likevel presiseres det i manualen til væremåteskjema at individer formes av de regler, normer, kodymer og samværsformer de beveger seg i (Martinsen et al., 2007a). Slike holdninger antyder at væremåte alltid må sees i en relasjonell kontekst, og det er gjennom samvær med andre at den enkeltes væremåte kommer frem.

Det transaksjonelle aspektet i teorifremstillingen dreier seg om den gjensidige påvirkningen mellom individ og miljø. Barnet og miljøet påvirkes over tid, og kan ikke forstås uavhengig av hverandre. Gjensidigheten innebærer at hvert enkelt barn kan virke inn på miljøet på ulike måter (Smith & Ulvund, 1999). Kulturen barnet vokser opp i, bidrar til å forme den kognitive utviklingen ved at den bestemmer hva barnet utsettes for i verden. En av den russiske psykologen Lev Vygotsky sine hovedtanker var at mentale strukturer og prosesser stammer fra vår samhandling med andre, og utvikling defineres som omforming av felles aktiviteter til internaliserte prosesser (Woolfolk, 2004). De sosiale møtene med andre mennesker fremstår i sosiale tilknytningsteorier, som byggesteiner i barnets indre forståelse av seg selv og andre (Hart & Schwartz, 2009).

2.4.1 Samspill mellom barn og voksen

I 1960 og 1970 tallet var det vanlig å fokusere på den dyadiske mor-barn kontakten i forskning på kommunikasjon og samspill. I dag er det et fokus på betydningen av kontakten mellom barnet og flere omsorgspersoner, der fokus også rettes mot både far og andre viktige personer i barnets liv (Rye, 2002) Et transaksjonelt syn krever et bredt utviklingspsykologisk perspektiv, og er ifølge Grøttland, Jacobsen & Larsen (2009) særlig aktuelt for barn med store utviklingsforstyrrelser. Barnet er som oftest den part som i samspillet som har mindre forutsetninger for å mestre samspillet, og det er den voksnes ansvar å besvare barnets initiativ. På den ene siden har barnet behov for å bli sett, anerkjent og forstått, samtidig som en trenger å bli respektert for sine grenser, oppfatninger og holdninger (Rye, 2002). Dette innebærer at barnet i større grad er avhengig av at den voksne er støttende og utvidende i samværet med barnet. Rye (2002) presiserer at den voksne må vise sensitivitet i møte med barnet, og på den måten utvide og utfylle barnets kapasitet. Dette kan innebære at den voksne må være bevisst sin fremtreden, slik at man justerer sin atferd basert på barnets forutsetninger og behov. Vanligvis beskrives barn å være særlig sårbare for omsorgspersoners sensitivitet de første 3-4 årene av sitt liv (Tetzchner, 2001). Det er nærliggende å anta at barn med utviklingshemning har varierende grad av behov for denne sensitiviteten i større deler av livet.

I en teoretisk refleksjon rundt tema samspill, er begrepet *relasjon* i Gregory Batesons kommunikasjonsteori et sentralt holdepunkt. Relasjoner foregår ikke inne i den enkelte person, men er noe som foregår mellom mennesker (Bateson, 1979). Dette er overførbart til hvordan vi beskriver mennesker rundt oss, noe som ofte legges til grunn for tiltak og oppfølging av barn og unge i skole og barnehage. Som pedagog kan en beskrive barn som rigide eller oppmerksomhetssvake. Med Batesons relasjonsperspektiv rettes disse beskrivelsene til relasjonen, og det er viktig at beskrivelser av væremåte hos den enkelte ikke baseres på snevre erfaringsgrunnlag. Dette fordrer et nært samarbeid mellom mennesker rundt barn og unge med FXS. Slik kan hvert enkelt, enten det er foreldre, andre nære omsorgspersoner eller opplæringspersonell, ha utbytte av de andres erfaringer med styrker og utfordringer hos barnet eller ungdommen.

Samspill er ifølge Bateson, en sirkulær prosess der begge parter påvirker hverandre, og bidrar til en felles regulering av samspillet. Ifølge Rye (2007) må omsorgspersoner inneha en sensitivitet slik at en utfyller og utvider barnets kapasitet. Barn og unge med FXS har større

risiko knyttet til egne biologiske forutsetninger og er i større grad avhengig av voksnes sensitivitet og støtte i samspillet. Ainsworth (1967), ref i Tetzchner (2001) omtaler tre egenskaper som gir barnet trygghet i relasjon til voksne: tilgjengelighet, pålitelighet og forutsigbarhet.

Jerome Bruners begrep om ”stillasbygging” er et begrep som er relevant når man snakker om utvikling og sosial læring. Her tar den voksne tar utgangspunkt i barnets nivå, og bygger videre på dette. Relasjonen blir her et middel for læringen, og den voksne gir barnet, som er den lærende i samspillperspektivet, støtte i læringsprosessen (Woolfolk, 2004). Da har den voksne sin støttende rolle en omvendt funksjon i forhold til barnets kompetansenivå: jo større utfordringer barnet har, jo mer støtte har man behov for, og omvendt. Dette innebærer at den voksne må ha kjennskap til hva barnet klarer alene, og hva man klarer med hjelp fra andre. I Vygotskys tekster refererer dette til den *proksimale utviklingszone*. Dette er det området hvor barnet ikke klarer å løse utfordringer alene, men kan lykkes under veiledning eller i samarbeid med en voksen eller kompetent jevnaldrende (Woolfolk, 2004). Her går barnets utvikling fra det sosiale til det individuelle. I opplæringsammenheng innebærer dette at barna stimuleres til å være aktive i læringsfellesskaper, og at innlæring av sosiale ferdigheter skjer i den dialogiske prosessen mellom felles aktiviteter og individuell utvikling (Thurmann-Moe, 1996).

Denne studien omfatter personer med FXS i ungdomsalderen. I denne perioden av menneskers liv skjer det en rekke forandringer i fysisk og følelsesmessig utrusting. Fra tidlig alder er det viktig å tilrettelegge gjennom positive tilbakemeldinger på egen kropp, og gjennom øving av sosialt akseptable samværsformer (Vildalen, 2011). Fokusering av kunnskap og ferdigheter den enkelte kan ha praktisk nytte av senere i livet krever prioriteringer av læringsmål i skolen. I *opplæringslovens* formålsparagraf (Kunnskapsdepartementet, 1998) er det slått fast at opplæring skal tilpasses evner og forutsetninger hos den enkelte elev (§2-1). For mange barn og unge med FXS vil dette innebære individuelt tilpassede opplæringsmål, og at man oftere har nytte av et undervisningstilbud som helt eller delvis kan foregå utenfor det ordinære opplæringstilbudet i den vanlige skolen.

2.4.2 Tilrettelegging av omgivelsene

Å motivere og engasjere barnet handler også om å skape et miljø hvor barna får utfolde seg basert på sine evner og forutsetninger. Man kan ha en sosiokulturell forståelse for motivasjon for samspill der barnet møter kulturen og det samfunnet det er en del av, med sine forutsetninger og forventinger. For at barnet skal oppleve mening og ha motivasjon for interaksjon, er det viktig at barnet opplever sammenheng mellom de ulike arenaene de lever i.

Mennesker med FXS kan som nevnt ha sansemessige vansker. Dette kan innvirke på hvordan barna samhandler, og vanskeliggjøre prosesser med kommunikasjon og interaksjon med andre. For å møte et slikt spesifikt behov, bruker Frambu (2012) begrepet ”tilpasset sensorisk stimulering” (TSS) for å beskrive tilrettelegging av aktiviteter for barn med sansebesvær. Fokuset er rettet mot å tilpasse mengde og type stimulering slik at barnet kan oppleve bedre konsentrasjon og oppmerksomhet. TSS kan sees i sammenheng med ”Sensory Integrative Therapy” (SIT). Terapeuten har da som mål å adressere uvanlige former for sensorisk prosessering ved å styrke sanseerfaringer, slik at de fremstår som lite truende og dermed gjøre selvreguleringen lettere for den enkelte. På denne måten kan en hjelpe barnet med å ivareta et adekvat responsnivå når man opplever ulike stimuli (Green, 2004).

Sansevarhet kan betraktes i relasjon til angstsymptomer. Et angstreduserende moment, kan være at personen har en plan b – for eksempel å vite at en har mulighet til å forlate aktiviteter eller områder som kan oppleves som truende. Det kan i mange sammenhenger være situasjoner hvor bestemte sanseintrykk ikke kan unngås. Samtidig kan det gjennom bruk av hjelpemidler være mulig å redusere det ubehagelige i situasjonen. For mennesker som viser varhet for visuelle stimuli kan dette innebære bruk av solbriller eller caps, selv om det ikke er naturlig i situasjonen (Nærland, 2013).

Individuelle særtrekk hos den enkelte bør, ifølge Baranek et al. (2008) tas i betraktning med sensoriske styrker eller svakheter når en planlegger et behandlingstilbud. Tilpasninger av sensoriske stimuli for oversensitive barn med FXS kan integreres i daglige rutiner og leksituasjoner. Støtte i omgivelsene til barnet, samt praktisk støtte og rådgiving til foreldre kan styrke barnet evne til å engasjere seg i sosiale aktiviteter og gi barnet større mening i opplevelsen av sine omgivelser.

Noen tiltak, slik som solbriller og caps har ulempen ved seg, at de kan virke stigmatiserende. Dette kan i stor grad reduseres med god informasjon til omgivelsene (Nærland, 2013). Andre mennesker, enten det er medelever eller andre, bør derfor få rik informasjon om hvorfor man har behov for disse hjelpemidlene.

3 Metodiske betraktninger

Denne studien inngår i et samarbeid mellom Autismeenheten – nasjonal kompetanseenhet for autisme og Frambu –senter for sjeldne funksjonshemninger. Sammen med medstudent Børge Pallesen ved Universitetet i Oslo har metodevalg, datainnsamling, samt tolkning og behandling av data blitt gjort i dialog med partene i samarbeidsprosjektet.

Sammen med Frambu og Autismeenheten har vi kommet frem til en egnet metode for å samle inn informasjon om væremåte hos mennesker med FXS.

3.1 Metodologisk tilnærming og studiens design

Studien har design som en kvantitativ kartleggingsundersøkelse. Opplysningene som innhentes vil omformes til tall, og det gjennomføres en analyse av mønstre i dette tallmaterialet. Samtidig har studien en ikke-eksperimentell design, da den har som formål å beskrive tingenes tilstand slik de er, og har ikke som formål å skape direkte forandringer. Slik deskriptiv kvantitativ forskning er, ifølge Vedeler (2009) viktig i pedagogisk forskning da man ønsker å beskrive pedagogiske fenomener på en grundig måte. Kvantitativ forskning dreier seg ofte om å studere populasjoner eller utvalg av populasjoner for å bruke statistiske mål og ha et objektivt syn på det som forskes på (Gall, Gall & Borg, 2007). Ifølge Kleven (2002b) gir kvantitative studier en avstand mellom forsker og forsøkspersonene, og på den måten oppnår man objektive tilnærminger til datamateriale. Kvantitative undersøkelser benyttes ofte når man ønsker sammenlignbare opplysninger om flere forskningsobjekter (De Vaus, 2002). Denne studien har som formål å gi en best mulig representasjon av væremåte hos barn og unge med fragilt X syndrom, og det er derfor viktig å få med flest mulig personer fra FXS populasjonen i studien. Da populasjonen bor spredt i landet, var det gunstig med en metode som vil sikre tilstrekkelig med data på tross av lang avstand mellom informantene.

Vi ønsket å gi informantene muligheten til å svare i eget tempo, noe som gjorde det mulig at spørsmålene kunne være mer omfattende og ha flere svaralternativer enn ved for eksempel telefonintervju, som ble vurdert tidligere i prosessen. Samtidig gav det mulighet til absolutt anonymitet for informantene.

Spørsmålene i spørreskjemaene etterspør mer omfattende informasjon enn hva som er nødvendig i denne masteroppgaven, ettersom en bred kartlegging av gruppa er ønskelig for Frambu og Autismeenheten.

3.2 Deltagere

Informanter i denne studien er foreldre/ foresatte til barn og unge med FXS fullmutasjon i barn –og ungdomsalderen. Nedre grense på 5 år er valgt på grunn av begrensninger i SCQ skjema, mens øvre grense på 21 år er valgt ettersom personer opp til denne alderen kan ha utvidet rett til videregående opplæring. Informantene i studien er foreldre/ foresatte, og valget av informanter er basert på et ønske om at de som kjenner og står målpersonene nærmest besvarer spørreskjemaene. Frambu, som er kompetansesenteret for diagnosen, er hovedkilde til rekruttering av informanter. Pr november 2012 var det registrert 150 mennesker med FXS hos kompetansesenteret. 58 av disse befant seg i aldersgruppa 5-21 år. Vi kontaktet også Forening for Fragilt X syndrom i Norge (FRAX), og det ble lagt ut informasjon om studien på foreningens nettside (www.frax.no). Det ble gitt informasjon om at potensielle informanter kunne ta kontakt med prosjektets medarbeidere dersom de ønsket å ta del i studien. Vi fikk ingen ytterligere informanter gjennom FRAX.

3.2.1 Utvalg og svarprosent

16 november 2012 sendte vi ut spørreskjemaer til 58 foresatte. Det ble foretatt en påminnelse om undersøkelsen medio desember. Det ble ikke satt noen svarfrist i informasjonsskrivet, men det ble informert i purringen om at datainnsamlingen avsluttes i slutten av januar. Ved datainnsamlingens slutt hadde vi mottatt 23 eksemplarer av hvert spørreskjema. Dette tilsvarer en svarprosent på omtrent 40%. Beregnet svarprosent vil være noe lav, da Frambu sitt register består av adresser fra sist de var i kontakt med kompetansesenteret. For feilsendte skjemaer som ble returnert fra posten ble adresser undersøkt i folkeregisteret, og nye spørreskjemaer ble sendt ut.

Barn og unge med FXS er *målpersoner* i denne undersøkelsen. *Informantene* er foreldre/ foresatte som har besvart spørreskjemaene. Deltagerne i studien er i utgangspunktet bosatt over hele Norge, ettersom Frambu er en landsdekkende kompetansesenteret.

3.3 Verktøy til datainnsamling

Det benyttes tre ulike spørreskjemaer i datainnsamlingen; væremåteskjema (vedlegg 6), Social Communication Questionnaire (SCQ), og et egenprodusert Diagnosespesifikt Spørreskjema (Vedlegg 5). SCQ ligger ikke som vedlegg da det er ulovlig å kopiere, men er tilgjengelig å bestille for alle (Hogrefe, 2013).

3.3.1 Beskrivelse og operasjonalisering av Væremåteskjema

Væremåteskjemaet er i første omgang utviklet for å kartlegge væremåte hos mennesker med autisme (Martinsen et al., 2007a). Skjemaet er et resultat av *Prosjekt Væremåte*, etablert på oppdrag av Autismeenheten. Væremåteskjema er ikke et diagnostisk verktøy eller evnetest, men gir informasjon om særtrekk ved målpersonen. Skjemaet stiller spørsmål om målpersonens atferd i bestemte situasjoner. Slik kontekstualisert informasjon er nyttig for å få frem viktige nyanser i væremåtebeskrivelser. Væremåteskjemaet er videreutviklet gjennom flere faser, og det er gjort en rekke endringer på bakgrunn av tilbakemeldinger, analyser og evalueringer av tidligere versjoner. I dette prosjektet benyttes siste versjon av Væremåteskjemaet, versjon 6, 2010.

Væremåteskjemaet er relativt omfattende, med 99 spørsmål. 58 er enkeltspørsmål og 41 spørsmål har 2-20 underspørsmål. Det er utarbeidet et skjema for gutter og et skjema for jenter for å gi respondenten en mer personlig følelse i utfylling av skjema. Guttene får skjemaer med påstander for "Lars", og jentene mottar et skjema med påstander for "Anne".

Det følger med en veiledning til utfylling av skjema, samtidig som vi informasjonsskrivet gav informantene anledning til å kontakte prosjektets medarbeidere dersom noe var uklart. En hovedregel for skjemaet er at alle spørsmål skal besvares. Fra spørsmål 5-18 krysses det av for "ja" på ja/ nei spørsmål, mens spørsmål 19-99 inneholder graderte svaralternativer basert på en likert-skala (Befring, 2007) der meninger uttrykkes gjennom spesifikke påstander. På disse spesifikke påstandene uttrykkes svarene gjennom hvor enig informanten er i forhold til utsagnet. Disse er gradert med fem mulige besvarelser: "passer svært dårlig", "passer dårlig", "passer både og", "passer bra" og "passer svært bra".

Spørsmål 18 i væremåteskjema krysses av dersom målpersonen har ”betydelig variasjon i dagsform”. Dersom dette spørsmålet besvares med ja, bes det om at det fylles ut i to rubrikker gjennom resten av spørreskjemaet, et for gode perioder og et for dårlige perioder:

Utklipp fra væremåteskjema, spørsmål 18.

18. Lars har betydelig variasjon i dagsform. (Enten fra dag til dag eller i løpet av dagen)

NB: Hvis det skåres ut ja på spørsmål 18, at han har betydelig variasjon i dagsform, skal det fylles ut i både grå og hvite felt gjennom resten av spørreskjemaet. Hvite felt for gode perioder og grå felt for dårlige perioder.

I skjemaet brukes doble avkrysningsbokser av denne typen:

Alle skal krysse av i de øverste *hvite* rutene.

De *grå* rutene under er derimot **kun** for de personene som har **betydelig** variasjon i dagsform, og skal krysses av i tillegg til de hvite for alle spørsmål, som mål på de dårlige periodene.

(Martinsen et al., 2007a)

Skjemaet består av tre hoveddeler. Del en inneholder generelle opplysninger med blant annet kjønn, alder og kommunikasjonsferdigheter, i tillegg til spørsmål om angst, reaksjonstid og formsvingninger. Del to er den mest sentrale delen for denne oppgaven, og gir informasjon om væremåte hos målpersonen i bred forstand, med spørsmål om omgjengelighet, sansebevis, strukturavhengighet, interesser, og motivasjon med mer. Del tre har spørsmål knyttet til spesielle grupper og atferdsmønstre som en finner hos mennesker med autisme.

Væremåteskjemaet er ikke et standardisert spørreskjema, men det er foretatt en begrepsanalyse av spørsmålene som bygger på korrelasjonsanalyser og reliabilitetstesting av sumvariabler. Sumvariablene er laget i samarbeid med prosjektleder, og bygger til en viss grad på tidligere bruk av skjemaet, selv om det ikke er laget noen bestemt manual for hvordan data fra Væremåteskjemaet skal benyttes.

Bruk av Væremåteskjema

I denne oppgaven er det benyttet enkeltspørsmål og sumvariabler for å beskrive væremåte hos mennesker med FXS. Spørsmålene er valgt ut på bakgrunn av tidligere litterære beskrivelser av gruppa, samt kliniske erfaringer som gir antagelser for væremåte. Fremtredende funn i datamateriale var også kilde til utvelgelse av data.

I Væremåteskjema bes respondenten fyller ut for ”gode” og ”dårlige” dager dersom det er store svingninger i dagsform. Deretter oppfordres det til at de som svarte ja på dette spørsmålet fyller ut resterende spørsmål i væremåteskjema etter gode og dårlige dager. I

denne oppgaven presenteres gjennomsnitt for hele gruppa og for kjønn, og det er da tatt utgangspunkt i ”gode dager” for å skape et mest mulig representativt bilde av målpersonenes væremåte i en vanlig hverdag.

Svarene på spørsmål 5-18 er kodet med 1 for ”ja”, og 2 for ”nei”. For resterende spørsmål er svarene kodet med 1=Passer svært dårlig, 2= passer dårlig, 3= passer både og, 4= passer godt, og 5= passer svært godt.

For Sumvariablene fra Væremåteskjema, er flere spørsmål snudd for å skape samme verdiretning i sumvariabelen. Et eksempel på dette er spørsmål 30 j, som spør om målpersonen ”karakteriseres ved at han/ hun er fraværende”. For at dette skal ha samme verdiretning som for eksempel spørsmål 30i (om målpersonen karakteriseres ved at han/ hun er kontaktsøkende), gjøres kodingen i motsatt retning. Dermed gis besvarelsen høyere skåre dersom målpersonen beskrives som mindre fraværende. Spørsmålene som er snudd, angis med ”(sn)” etter spørsmålet.

Sumvariablenes spørsmålsinnhold

Sumvariablene baserer seg på samlet gjennomsnittsskåre fra flere enkeltspørsmål i væremåteskjema. Videre presenteres sumvariablene, som baserer seg på gjennomsnittsskåre på 2-11 spørsmål fra Væremåteskjemaet:

Sansebesvær

Sumvariabelen for sansebesvær (*SumØmfintligStimuli*) baserer seg på 6 spørsmål fra væremåteskjema. Disse er knyttet til om målpersonen beskrives som ”ømfintlig” for seks ulike typer sensoriske stimuli.

Tabell 1: spørsmål som inngår i SumØmfintligStimuli.

Spørsmål	Anne/ Lars er:
45 a	Overømfintlig for auditive stimuli (stimuli som påvirker hørselen)
45 b	Overømfintlig for visuelle stimuli (stimuli som påvirker synet)
45 c	Overømfintlig for taktile/ haptiske stimuli (stimuli som påvirker berøringssansene)
45 d	Overømfintlig for vestibulære stimuli (stimuli som påvirker balansesystemet)
45 e	Overømfintlig for lukt
45 f	Overømfintlig for smak

Tvangsmessige handlinger

SumTvang er laget for å beregne tvangspregget atferd. Spørsmålene omhandler aspekter knyttet til problemer med å gjennomføre en aktivitet på grunn av tvangshandlinger, og om han/ hun lett blir opphengt i noe han/ hun ser på.

Tabell 2: spørsmål som inngår i SumTvang.

Spørsmål	Anne/ Lars stopper opp fordi:
86 a	Han/hun må gjenta deler av handlingen flere ganger
86 b	Han/hun gjentar handlinger eller bevegelsesmønstre som ikke er en del av aktiviteten
86 c	Han/hun avbryter seg selv før han/ hun er ferdig med en aktivitet han/hun er motivert for å gjennomføre
86 d	Han/hun blir opphengt i noe han/hun ser på

Forventning

SumForventning er benyttet for å vise om målpersonene gir uttrykk for forventninger til noe som skal skje, og om en reagerer med oppgitthet/frustrasjon/sinne når forventninger blir brutt.

Tabell 3: spørsmål som inngår i SumForventning.

Spørsmål	Spørsmålslyd:
69	Anne/Lars lager seg sterke forventninger til det som skal skje
70	Anne/Lars reagerer med oppgitthet på at hennes forventninger blir brutt
71	Anne/Lars reagerer med frustrasjon/ sinne på at hennes forventninger blir brutt

Strukturavhengighet/ opptatthet

SumStruktur er knyttet til om barn og unge med FXS beskrives som opptatt av struktur og særskilt tilrettelegging i omgivelsene, samt om målpersonen reagerer med motstand når strukturen i hverdagen blir forandret. Sumvariabelen baseres på 11 spørsmål fra varemåteskjema (neste side).

Tabell 4: spørsmål som inngår i SumStruktur.

Spørsmål	Spørsmålslyd:
62 a	Anne/Lars er opptatt av å få vite hva som skal skje i løpet av dagen
62 b	Anne/Lars er opptatt av å få vite hvem han/hun skal være sammen med
33 l	Anne/Lars karakteriseres ved at han/hun er fornøyd når han/hun vet hva han/hun skal gjøre
81 a	Det er viktig for Anne/Lars at gjenstander står på faste plasser
81 b	Det er viktig for Anne/Lars at aktiviteter foregår på faste plasser
63 a	Anne/Lars reagerer negativt når rutiner blir brutt
63 b	Anne/Lars reagerer negativt når han/hun er i ustrukturerte situasjoner
63 c	Anne/Lars reagerer negativt når rekkefølgen på ulike aktiviteter i løpet av dagen varieres(rammestrukturen)
63 d	Anne/Lars reagerer negativt når rekkefølgen på de enkelte delhandlingene i en situasjon varieres (situasjonsstrukturen)
63 e	Anne/Lars reagerer negativt når nye gjenstander innføres i omgivelsene
63 f	Anne/Lars reagerer negativt når han/hun kommer til nye steder

Fokusrelaterte utførelsesvansker

SumFRU omhandler vansker med å utføre viljestyrte handlinger når samspillspartneren retter fokus mot utførelsen. Sumvariabelen er rettet mot samspillsaspekter ved FRU, og gir antydninger om at spesielle samværsformer er gunstige ved høy skåre på sumvariabelen.

Tabell 5: spørsmål som inngår i SumFRU.

Spørsmål	Spørsmålslyd
75	Anne/Lars gjør mange ting overraskende bra når han/hun er for seg selv og ingen maser
83c	For at Anne/Lars skal komme i gang med en aktivitet er det lettere å få han/ henne med når man gir beskjed på en indirekte måte, sammenlignet med når man gir en direkte ordre
82d	Når Anne/Lars blir satt til å utføre en aktivitet/oppgave gir han/hun inntrykk av å trives best når andre ikke er for tett på han/henne for å se hva han/hun gjør
88c	Hvis Anne/ Lars, og den han/hun er sammen med, skal et sted, og har dårlig tid, er han/hun raskere hvis den han/hun er sammen med fleiper eller spøker
87c	Når Anne/Lars skal si noe går han/hun ofte i stå hvis man retter fokus på han/henne
88b	Hvis Anne/ Lars, og den han/hun er sammen med, skal et sted, og har dårlig tid, er han/ hun raskere til å komme seg ut med noen fremfor andre

Omgjengelighet

I Væremåteskjema beskrives omgjengelighet som ulike karakteristiske måter å være på i sosial samhandling. For spørsmål 30j/o/t er verdiene snudd for å få samme retning i beregningen av *SumOmgjengelighet*.

Tabell 6: spørsmål som inngår i SumOmgjengelighet

Spørsmål	Spørsmålslyd:
30 j (sn)	Anne/Lars karakteriseres ved at han/hun er fraværende
30 t (sn)	Anne/Lars karakteriseres ved at han/hun er uoppmerksom
30 i	Anne/Lars karakteriseres ved at han/hun er kontaktsøkende
30 l	Anne/Lars karakteriseres ved at han/hun er utadvendt
30 o (sn)	Anne/Lars karakteriseres ved at han/hun er usosial
30 r	Anne/Lars karakteriseres ved at han/hun er sosial

Igangsetting

SumIgangsetting gir et mål på hvordan målpersonene har vansker med å komme i gang med en aktivitet, og hvilket behov det er for støtte ved igangsetting av nye aktiviteter. Sumvariabelen er tatt med for å beskrive behovet for at andre hjelper målpersonen med å komme i gang med aktiviteter.

Tabell 7: spørsmål som inngår i SumIgangsetting

Spørsmål	Spørsmålslyd:
77	Anne/Lars har ofte behov for at andre hjelper han/henne med å ta initiativ til å gjøre noe
83 a	For at Anne/Lars skal komme i gang med en aktivitet trenger han/hun at noen setter han/henne i gang

Motivasjon og interesser

Sumvariabelen for *motivasjon* gir et mål for hvor lett det er å få med seg vedkommende på en aktivitet. *SumInteresser* gir et mål for hvor interessert målpersonen er i aktivitet, og om målpersonen har flere interesser.

Tabell 8: spørsmål som inngår i SumMotivasjon

Spørsmål	Spørsmålslyd:
33 a	Anne/Lars karakteriseres ved at han/hun er lett å få med på ting
33 i	Anne/Lars karakteriseres ved at han/hun er lett å motivere
68	Anne/Lars blir greit med på uventede aktiviteter som bryter med rutiner/tidligere avtaler

Tabell 9: spørsmål som inngår i SumInteresser

Spørsmål	Spørsmålslyd:
33 c (sn)	Anne/Lars karakteriseres ved at han/hun er interesseløs
33 e	Anne/Lars karakteriseres ved at han/hun er interessert i mye

Det er tre enkeltspørsmål som benyttes fra væremåteskjema. Det første spørsmål er om målpersonen har få eller svake uttrykk for opplevelse av smerte (spørsmål 46). Det andre enkeltspørsmålet fra væremåteskjema er spørsmål 12, og spør om målpersonen har redsel for situasjoner der han/ hun kan tiltrekke seg andres oppmerksomhet. Det siste spørsmålet fra væremåteskjema er knyttet til variasjon i dagsform (spørsmål 18).

3.3.2 Social Communication Questionnaire

Social Communication Questionnaire (SCQ) er laget av Rutter Bailey, Berument, Lord og Pickles (2010). SCQ er et standardisert screeningverktøy for vurdering av autismespekterforstyrrelser (ASF), og tar for seg utviklingsområdene språk, kommunikasjon og sosial fungering. SCQ er basert på "Autism Diagnostic Interview Revised (ADI-R(1994)), og formålet med instrumentet er å identifisere barn som har indikasjoner på utviklingsforstyrrelser, der det er behov for ytterligere utredning av vansker (Lee, David, Rusyniak, Landa & Newschaffer, 2007). I manualen til SCQ antyder Rutter et. al (2010) at skjemaet også kan benyttes for å sammenligne forekomst av autismespekterforstyrrelser i ulike utvalg, både i forskningssammenheng og for utvikling av pedagogiske tiltak. SCQ er således ikke et diagnostisk verktøy, men et verktøy egnet til å angi omfanget av ASF-vansker i et utvalg. Dette gir et grunnlag for å vurdere væremåte hos personer med FXS med mye eller lite autismespektervansker. I tillegg til et generelt anslag på grad av autismespektervansker gir SCQ informasjon om hvilke hovedområder målpersonen viser autisnevansker (profil av autisnevansker).

SCQ inneholder 40 spørsmål, og er validert på 200 barn (Allen, Silove, Williams & Hutchins, 2007). Skjemaet fylles ut av foreldre eller personale som kjenner barnet godt. Det krever ingen sertifisering for å bruke SCQ. Spørsmålene er relevant for barn fra fire års alder, og har spørsmål knyttet til hele barnets utviklingshistorie.

Fra spørreskjema gis det 1 poeng pr spørsmål som er indikasjon på ASF. Maks total skåre på SCQ er 39 poeng. SCQ gir som nevnt også delskårer innen de tre domenene i den autistiske

triaden. Maks skåre innen hvert domene varierer; Maks skåre for kommunikasjon er 14, maks skåre for sosial interaksjon er 15, og for stereotyp og repeterende atferd er maks skåre 9. To spørsmål inngår ikke i delskårene, men benyttes i total SCQ skåre.

Bruk av SCQ

SCQ ble først og fremst benyttet for å undersøke forekomst og samvariasjon mellom ASF og FXS. I den sammenheng er total SCQ skåre det relevante parameteret, og er det som er brukt i korrelasjonsanalyser. En studie av Berument, Lord, Rutter, Pickles og Bailey (1999) argumenterte for en cut-off grense mellom ikke ASF og de som sannsynlige hadde ASF på 15 poeng. Lee og kollegaer (2007) studerte effekten av ulike cut-off verdier på SCQ. De fant at en høyere cut-off verdi ga bedre validitet i undersøkelsen (maksimerte antall korrekt klassifiserte personer i undersøkelsen). Selv om flere studier indikerer at lavere grenser kan benyttes, er det valgt å beholde cut-off grense på 15. Dette er gjort med bakgrunn i at tidligere studier av FXS har vist større forekomst av ASF enn hos andre genetiske syndromer (Hatton et al., 2006), og en generell vurdering på at kjennetegn på ASF vel så gjerne er vanlige særtrekk ved FXS (Mæhle & Houge, 2011).

SCQ gir også profil av autismevansker. Det vil si hvordan målpersonene skårer innen de tre domenene i den autistiske triaden. Det er som nevnt ulike maksskårer for de tre. For å måle styrken regnes det ut prosent av maks skåre for hvert enkelt domene.

3.3.3 Diagnosespesifikt spørreskjema

Spesifikt for denne studien er det utarbeidet et Diagnosespesifikt Spørreskjema (DSS) som omfatter informasjon spesielt interessant i denne undersøkelsen som ikke blir ivarettatt gjennom væremåteskjemaet og SCQ. DSS inneholder 4 hovedspørsmål, men kun ett av spørsmålene inngår i denne studien; grad av utviklingshemning.

Variabelen ”utviklingshemning” er kodet gjennom følgende; 1=lett grad, 2=moderat grad, 3=alvorlig grad, og 4= dyp grad av utviklingshemning. ”ikke kjent”, eller ikke besvart kodes som ”missing”.

3.4 Analytiske mål

For å analysere, bearbeide og fremstille datamaterialet er det benyttet dataprogrammet Statistical Package for the Social Science (SPSS). For å redegjøre for hvordan svar i datamaterialet fordeler seg på enkeltspørsmål og sumvariabler benyttes deskriptiv statistikk. Både aritmetisk gjennomsnitt (M) og standardavvik (SD) er kilder til beskrivelser av utvalget. Resultatene er presentert gjennomgående i teksten eller i tabeller med tallverdier. Videre presenteres korrelasjonskoeffisienter, signifikanstester og reliabilitetsmål som er brukt i studien.

Korrelasjoner

En korrelasjonskoeffisient viser grad av samvariasjon mellom to variabler (Kleven, 2002b). Dette er en statistisk størrelse som forteller om endringer i verdi på en variabel går systematisk sammen endringer på en annen variabel (Befring, 2007). Korrelasjonsmålet varierer mellom grensene -1,00 og +1,00, og angir grad av samvariasjon mellom variablene. Ved fullstendig samvariasjon er $r=1,00$ eller $r=-1,00$ (Kleven, 2002b). Dersom korrelasjonskoeffisienten er positiv, øker variablenes verdi sammen. Dersom den er negativ, øker en variabel mens den andre synker. De Vaus (2002) fremstiller i sin bok en oversikt over hvordan en kan tolke styrken i korrelasjonsmålet i samfunnsvitenskapen. Dersom $r=0$ er det absolutt ingen sammenheng. Fra 0,01-0,09 er det svært liten sammenheng, fra 0,1-0,29 er det lav/ moderat sammenheng, 0,30-0,49 innebærer moderat til betydelig sammenheng, 0,50-0,569 tilsvarer betydelig eller svært sterk sammenheng, 0,70-0,89 er svært sterk samvariasjon, mens 0,90+ tilsvarer nærmest perfekt samvariasjon.

Pearsons produkt-moment-korrelasjon (Pearsons r) er et mye brukt korrelasjonsmål (Johannessen, 2009), og benyttes når begge variablene vi ønsker å korrelere uttrykkes gjennom intervallvariabler (Gall et al., 2007). Utregning med pearsons r omfatter både aritmetisk gjennomsnitt og standardavvik, og ifølge Kleven (2002b) innebærer dette at tallmaterialet må være på intervallnivå for å gi meningsfull tolkning. Likevel kan pearsons r være akseptabel dersom fordelinger på ordinalnivå er relativt symmetrisk (Befring, 2007) Spearman's rangdifferensmetode (ρ) kan benyttes om et materiale er relativt lite der man antar at det ikke er normalfordeling i utvalget (De Vaus, 2002).

Variablene i denne studien omfatter variabler på ordinalnivå. Ni av variablene som benyttes i studien er sumvariabler, der flere variabler er slått sammen og forteller noe om samme fenomen. Det argumenteres for at variablene kan tolkes som intervallvariabler selv om en ikke kan si noe om differansen mellom verdiene. Ettersom det er brukt enkeltspørsmål, risikerer vi at flere besvarelser innehar samme rang. I andre studier fra Frambu og Autismeenheten basert på samme undersøkelsesverktøy, benyttes pearsons r som korrelasjonsmål, og det er svært hensiktsmessig at det åpnes for sammenligning mellom de ulike studiene. Derfor benyttes både pearsons r og Spearmans rho som koeffisienter i samtlige korrelasjonsanalyser.

Signifikans og t-test

Korrelasjoner må sees i sammenheng med hvor sikker sammenhengen er mellom variablene, altså muligheten for at et statistisk resultat i et utvalg er feil (De Vaus, 2002). I SPSS er det to grenser for signifikans som flagges dersom korrelasjonen er signifikant; .05 og .01. Dersom signifikans er .05 betyr det at det er 95 % sjanse for at resultatet ikke er tilfeldig, og vi kan akseptere at resultatet ikke skyldes tilfeldige målingsfeil (De Vaus, 2002). Signifikans vises for korrelasjonsmål og for signifikanstester for differanse mellom gjennomsnittsskårer. For sistnevnte er det relevante spørsmålet om forskjeller i gjennomsnittsskårer i grupper er store nok til å reflektere forskjeller i populasjonen, eller om disse forskjellene skyldes tilfeldigheter (De Vaus, 2002). I denne oppgaven brukes t-test for uavhengige utvalg for å undersøke forskjeller i gjennomsnittsskåre mellom gutter og jenter, samt mellom de eldre og de yngre i utvalget. Parameteren som deler utvalget basert på alder er median, middelverdien som deler utvalget i to like store deler (De Vaus, 2002).

Reliabilitetsmål

I denne undersøkelsen benyttes Cronbachs alpha som reliabilitetsmål på sumvariabler der flere variabler er slått sammen. Betingelsen for bruk av Cronbach alpha er at spørsmålene skal være uavhengige fra hverandre, og inngå i målingen av samme begrep (Kleven, 2002a). Cronbachs alpha gir et mål på indre konsistens av målpersonenes svar på flere spørsmål (item-item korrelasjoner). I denne sammenheng gir Cronbach alpha et mål for om spørsmålene i sumvariabelen er tilfeldig valgt (Kleven, 2002a), og varierer mellom verdiene 0 og 1. De Vaus (2002) angir en tommelfingerregel der Cronbach alpha bør være 0,7 før vi kan si at den er pålitelig. Det er viktig å presisere at Cronbach alpha baserer seg på

gjennomsnitt, noe som derfor ikke nødvendigvis betyr at man måler samme fenomen i sumvariablene (Kleven, 2002a).

3.5 Etiske vurderinger

Forskning på mennesker vil alltid inneholde etiske spørsmål knyttet til undersøkelsens gjennomføring, mål og presentasjon. Samfunnsforskning bør tjene både vitenskapelige og menneskelige interesser (Kvale & Brinkmann, 2009). Derfor bør det være en klar overvekt av positive konsekvenser, både vitenskapelig og for den enkelte undersøkelsen gjelder.

I denne studien behandles sensitive personopplysninger. Studien ble først sendt til Regional komite for medisinsk og helsefaglig forskningsetikk (REK). Prosjektet ble vurdert til å være utenfor REKs etiske vurderingsmandat (Vedlegg 3). Prosjektet ble derfor sendt videre til, og godkjent, av personvernombud ved Oslo Universitetssykehus (vedlegg 4). Prosjektet er gjennomført i henhold til prosjektplanen. Alle informanter mottok et detaljert informasjonsskriv (vedlegg 1), der det ble informert om at de når som helst, og uten å oppgi grunn, kunne trekke seg fra deltagelse i prosjektet. Samtlige informanter har levert samtykkeskjema tilbake til prosjektet, og ingen trakk seg i løpet av studiens foreløpige løpetid.

Det ble i informasjonsskrivet informert om at opplysninger om den enkelte ble oppbevart innlåst ved Autismeenheten på Rikshospitalet. Informasjonen fra spørreskjemaene ble konvertert til datafiler, der den enkelte informant fikk en kode knyttet til besvarelsen. Navn og annen personinformasjon ble ikke hentet frem igjen etter innkoding av data. Dataen som er kodet vil oppbevares i anonymisert form i 20 år, med den hensikt om å være sammenligningsgrunnlag for fremtidige studier på andre utvalg.

I samtykkeskjemaet var det mulighet for to avkryssninger, en for å delta i prosjektet, og en for å godkjenne at data blir registrert og lagret i databasen til ”prosjekt væremåte”. Dette er en avtale mellom prosjekt væremåte og foresatte, og har ingen innvirkning på denne studien. Gjennom prosjekt væremåte fikk foreldrene tilbud om tilbakemelding på resultatene av undersøkelsen med anbefaling om pedagogiske tiltak. Dersom foreldrene ønsket tilbakemelding, kunne de få dette pr e-post, eller i posten.

Undersøkelsen tok relativt lang tid å fylle ut. Informantene ble informert om en beregnet tid på cirka 1,5 time sammenlagt på tre spørreskjemaer. Dette krevde at foreldrene tok seg tid til spørreskjemaene i en hverdag som allerede kunne være travel og krevende. Enkelte av spørsmålene kunne også oppleves som vanskelige å svare på, eller ha liten relevans for sitt barn. Tilbakemeldinger fra foresatte indikerte at enkelte hadde opplevd dette, og vi kan derfor ikke utelukke at undersøkelsen kan ha blitt oppfattet som utfordrende eller belastende å være med på.

For personer med begrenset eller manglende samtykkekompetanse, er det visse etiske problemstillinger en må ta stilling til (NESH, 2006). I studien var målpersonene fra 10-21 år, og foreldrene som stilte som informanter.. Der målpersonene var over 16 år, ble det gitt mulighet for samtykke hos ungdommen. I aldersgruppa 18-21 ble målpersonen oppfordret til å underskrive, og foreldrene kunne gi samtykke dersom dette ikke var mulig (Vedlegg 2).

Et siste sentralt poeng, er å vurdere hvilken skade det enkelte barn eventuelt kan påføres (De Vaus, 2002). I undersøkelsen er målpersonene ikke deltagende, men blir beskrevet av sine foreldre. FXS befolkningen i Norge er relativt liten, men oppgavens fremstilling av data gir lite grunnlag for å gjenkjenne den enkelte målperson. Dette er gjort med bakgrunn i retningslinjene til NESH (2006). Risikoen for å gjenkjenne den enkelte målperson har likevel bidratt til at presentasjon og drøfting av resultatene ikke tar for seg enkeltfunn. Det er delt inn i kjønn og laget korrelasjonsverdier basert på alder, men dette anses av forfatter å være i tråd med NESH sine retningslinjer.

4 Studiens validitet og reliabilitet

Validitet omhandler to sentrale aspekter vedrørende å trekke slutninger fra en studie. For det første er det hvilke slutninger som kan trekkes fra en studie, og for det andre om de kan anses som gyldige slutninger (Lund, 2002). I denne oppgaven tas det utgangspunkt i Cook og Campbells validitetssystem for å vurdere validitet og reliabilitet. Validitetssystemet er vanlig brukt i kvantitativ forskning, og omfatter fire typer validitet; statistisk validitet, begrepsvaliditet, ytre validitet og indre validitet. Indre validitet omhandler kausale sammenhenger, og vil ikke drøftes eller redegjøres for da oppgaven ikke har som formål å identifisere årsaker til væremåte. Nedenfor følger validitetskriterier, samt kommentarer og vurderinger knyttet til studiens validitet og reliabilitet.

4.1.1 Begrepsvaliditet

Begrepsvaliditet handler om innhold og operasjonalisering av begreper (Befring, 2007). Begrepsinnhold må være klart definert slik at det kommer tydelig frem hva som måles. Operasjonaliseringen av et begrep omfatter hvilke sett av atferdsindikasjoner begrepet identifiseres av (Befring, 2007; Kleven, 2002a). Ved operasjonalisering av begreper i samfunnsvitenskapelig forskning dekker man alltid mer eller mindre av det teoretiske innholdet en ønsker å måle. Begrepsvaliditeten i væremåteskjema er sikret gjennom bruk av dagligdagse ord og begreper i spørsmålene. Det følger også med en veileder til væremåteskjemaet, med praktiske opplysninger om utfylling og tolking av skjemaet.

Utviklingshemning er valgt som operasjonaliseringsvariabel for kognitiv fungering i denne studien. Språklig fungering, som kartlegges i væremåteskjema, kunne også vært en mulig variabel knyttet til utviklingsnivå, men denne viste liten variasjon og ble valgt bort. Foreldrene har krysset av for grad av utviklingshemning, men kunne også benytte seg av alternativene ”ikke kjent” og ”har ikke utviklingshemning”. Dette fant sted i to besvarelser. Bruken av utviklingshemning som variabel forutsetter at respondentene har kjennskap til målpersonens grad av utviklingshemning. Prosjektet baserer seg på foreldrenes rapportering, noe som gjør det usikkert om grad av utviklingshemning er satt på bakgrunn av foreldrenes egen vurdering eller om rapporteringen baserer seg på klinisk dokumentasjon.

De ulike sumvariablene representerer begreper som de enkelte spørsmålene i sumvariabelen skal dekke. I flere tilfeller er det utelukket spørsmål som ikke tilfredsstillter eller trekker ned

resultatet på reliabilitetsanalysen. Dette gjør at spørsmål som er tiltenkt en utfyllende rolle i sumvariabelen er tatt bort for å sikre begrepsvaliditeten.

Reliabilitet

Spørsmålet om hvilken grad data er uten tilfeldige målingsfeil, og dermed hvor nøyaktig en måler det en forsøker å måle, er spørsmålet om reliabilitet (Kleven, 2002a). I innhenting av data kan det forekomme målingsfeil i enkelte testsituasjoner. Eksempler på slike målingsfeil kan være informantens dagsform, eller andre aspekter som påvirker informanten under gjennomføring av undersøkelsen, men som ikke ville inntruffet ved andre anledninger. Det må tas høyde for at foresattes dagsform, eller andre tilfeldige målingsfeil kan inntreffe i denne typen undersøkelser.

Reliabilitet omhandler også om undersøkelsens indre konsistens. (Kleven, 2002a) I dette tilfelle omhandler indre konsistens om utfallet ville blitt det samme om en bytter ut spørsmålene en bruker i sumvariablene med andre spørsmål. I denne oppgaven brukes kun sumvariabler som tilfredsstillende krav ved testing av reliabilitet med Cronbach alpha som reliabilitetsmål (De Vaus, 2002), og enkeltspørsmål som bidrar negativt er tatt bort. Sumvariablene viste tilfredsstillende verdier, og varierte mellom 0.7 og 0.89 på Cronbach alpha.

I SCQ etterspørres informasjon fra den tiden barnet var fire/fem år gammelt. Det kan være vanskelig, spesielt for foresatte med eldre barn, å huske tilbake for å svare på konkrete kontekstuelle spørsmål fra denne perioden. Disse spørsmålene er også årsaken til at t-test for uavhengige utvalg basert på alder ikke utføres på SCQ skårene. Selv om det er muligheter for at det er forskjeller i ASF-vansker for de som er eldre og yngre enn 16 år, ble det ansett at spørreskjemaets kontekstualiserte form ville utgjøre en trussel mot studiens reliabilitet ved bruk av t-test som statistisk mål på SCQ.

4.1.2 Statistisk validitet

Statistisk validitet omhandler sammenhenger mellom variablene som undersøkes, og hvor sterk denne sammenhengen er. Dersom den statistiske validiteten er god, vil det si at resultatene skyldes en reell sammenheng, og ikke tilfeldigheter (Lund, 2002). I denne undersøkelsen brukes pearsons produkt-moment- korrelasjon (pearsons r) og Spearman's Rho

(rho) som korrelasjonsmål. Styrken i korrelasjonen varierer mellom -1,00 til 1,00. I presentasjon av resultater *flagges* resultater som er signifikante på .05 og .01 nivå. Resultatene må vise svært sterk samvariasjon for å oppnå signifikans, ettersom utvalget er relativt lite. Ved signifikanstesting av samvariasjon blir styrken av signifikans lavere med mindre utvalg og større variasjon i gruppa (Lund, 2002). For å styrke statistisk validitet er det viktig å minimere andre faktorer som kan svekke statistisk styrke (Lund, 2002).

På spørsmål om målpersonen har betydelig variasjon i dagsform, ble resten av skjemaet fylt ut i to eksemplarer dersom en svarte ja; et for gode dager og et for dårlige dager. Dette gir statistiske utfordringer. 11 respondenter svarte ja på spørsmål om betydelig variasjon i dagsform, men det var kun var fire som fylte ut skjemaet videre med et svar for gode og et svar for dårlige perioder. Ettersom statistiske beregninger i oppgaven stort sett baserer seg på gjennomsnittsmål, er det nødvendig at det kun er en besvarelse per målperson som inngår i beregningene. I denne oppgaven tas det utgangspunkt i ”gode perioder” hos alle respondenter for å gi en redelig beskrivelse av hverdagslig væremåte.

4.1.3 Ytre validitet

Spørsmålet om undersøkelsen er gyldig utover undersøkelsens utvalg, er knyttet til spørsmålet om *ytre validitet* (De Vaus, 2002). Generalisering er sentralt for ytre validitet, og kan gjelde generalisering til andre relevante individer, situasjoner og tider. Lund (2002) utdyper dette, med at *ytre validitet er tilstede dersom man kan generalisere til og over relevante individer, situasjoner og tid* (Lund, 2002, s. 121). Å generalisere *til* er generalisering til en bestemt populasjon, situasjon eller tid. Å generalisere *over* er interessant i forhold til hvor langt eller bredt generaliseringen kan trekkes.

Svarprosenten i undersøkelsen er på cirka 40 %. Det er likevel knyttet usikkerhet til hvor generaliserbar undersøkelsen er til den totale populasjonen, som er barn og unge med fragil X syndrom i alderen 5-21 år. Dette er en bred målgruppe aldersmessig i forhold til andre studier, og forutsatte at det var god spredning i alder på innsamlet datamateriale.. Utvalget vi mottok spørreskjemaer fra varierte fra 10 til 21 år, og studien vil derfor ikke være representativ for barn med FXS under 10 år. Det er vanskelig å se noe om årsaken til at vi ikke mottok svar fra foresatte til potensielle målpersoner i alderen 5-9 år. Dette gir mindre spredning enn vi antok når vi sendte ut undersøkelsen. Samtidig kan spredningen i alder blant

målpersonene gi større grunnlag for å si noe om væremåtemessige endringer i ungdomsalderen.

Utviklingshemning var tilstede hos samtlige jenter i utvalget, noe som ikke er konsistent med tidligere forskning på jenter med FXS (Hatton et al., 2006). Det kan være at frafallet i studien har vært større hos foreldre til jenter med best kognitiv fungering, og at foreldrene da synes undersøkelsen var lite relevant for sitt barn. At ingen informanter krysset av for ”har ikke utviklingshemning, gir studien en større mulighet til å vurdere forskjeller og ulikheter mellom gutter og jenter på samme utviklingsnivå. At foresatte vurderer målpersonenes væremåte, styrker den ytre validiteten til situasjoner, da foreldre og foresatte oftest er de som kjenner barnets væremåte best.

5 Presentasjon av resultater

I resultatbeskrivelsen brukes forkortelser av navn på spørreskjemaene:

VM – Væremåteskjema.

SCQ – Social Communication Questionnaire.

DSS Diagnosespesifikt spørreskjema.

5.1 Alder og kjønn i utvalget

Utvalget i studien er totalt 23 målpersoner i alderen 10-21 år, derav 16 gutter og 7 jenter. Gjennomsnittsalderen i utvalget er 15,57 med lite variasjon mellom kjønn (jenter: M=16.29, spredning fra 10-20 år. Gutter: M=15.25 spredning fra 10-21 år). Utvalgets spredning i alder gjorde det interessant med undersøkelser av forskjeller mellom de yngre og eldre i utvalget. Disse funnene er av stor pedagogisk interesse, og vies plass videre. Utforsking av alderssegmenter består av t-test der utvalget er delt i to like store deler, basert på median. Median av alder i utvalget er 16 år. T-test av gjennomsnittsforskjeller mellom gutter og jenter på variablene fra VM viste ingen signifikante resultater, og presenteres derfor ikke i resultatene.

5.2 Utviklingshemning

Det er en jevn fordeling mellom kjønn på grad av utviklingshemning. Ingen foresatte rapporterte at målpersonen har dyp grad av utviklingshemning. En av foreldrene til guttene besvarte spørsmålet med ”ikke kjent”, og en informant lot feltet stå åpent. Disse ble kodet som ”missing”. Se oversikt over de enkelte målpersoners grad av utviklingshemning i tabellen nedenfor.

Tabell 10: grad av utviklingshemning i utvalget.

Grad av utviklingshemning	Gutter (N=16)	Jenter (N=7)	Sum
Lett grad	4	3	7
Moderat grad	7	3	10
Alvorlig grad	3	1	4
Missing	2	0	2

5.3 Autismespektervansker

Samtlige i utvalget (n=23) har besvart spørreskjemaet SCQ. En av informantene til jentene fylte ikke ut baksiden av SCQ skjema, og oppnår derfor ikke skåre på ”kommunikasjon” Resultatene viser at 11 av 23 målpersoner skårer over cut-off på 15. Variasjon basert på kjønn viser at jentene gjennomsnittlig skårer klart lavere enn guttene. Likevel skårer 2 av 7 jenter over cut-off, mens 9 av 16 gutter skårer >15 i samlet SCQ skåre, se tabell 11.

Tabell 11: oversikt over SCQ skåre, samt fordeling mellom kjønn på delskårer i SCQ.

	Jenter	Gj.snitt	SD	Gutter	Gj. snitt	SD
SCQ skåre	N= 7	9.42	7.52	N= 16	16.62	7.70
Stereotyp atf	N= 7	2.85	2.47	N= 16	5.37	2.60
Sos interak	N= 7	3.00	3.60	N= 16	5.00	3.61
Kommunikasjon	N= 6	3.66	2.94	N= 16	5.56	2.89

Det er gjennomført t-test for å undersøke signifikante forskjeller mellom jenter og gutter på samlet grad av ASF vansker. T-test av samlet SCQ skåre viste signifikant forskjell mellom gutter og jenter ($t=-2.075$, $df=21$, $p=0.050$). Det er undersøkt hvordan gutter og jenter skårer i forhold til maks skåre på hvert domene, (maks skåre på stereotyp atf=9, Sos interak=14 og Kommunikasjon = 15). Dette viser at guttene skårer 60% av maks skåre på stereotyp atferd, 37% av maks skåre på kommunikasjon og 36% av maks skåre på sosial interaksjon. Jentene viser en noe jevnere fordeling, (stereotyp atferd=32%, Sosial interaksjon= 21% og Kommunikasjon=24%). Utregningene viser at stereotyp atferd er mer dominerende enn vansker innen sosial interaksjon og kommunikasjon for guttenes profil av autismevansker, mens jentene generelt har en noe lavere og jevnere profil.

5.4 Ømfintlighet for sensoriske stimuli

SumØmfintligStimuli er et mål for hvor ømfintlig målpersonene er for sansemessige stimuli. Guttene viste gjennomsnittlig noe større varhet for sensoriske stimuli enn jentene, og variasjonen i gruppa er relativt stor basert på standardavviket (se tabell 12). Reliabilitetsanalysen er svært tilfredsstillende for denne sumvariabelen (tabell 15).

Tabell 12: oversikt for SumØmfintligStimuli fordelt på kjønn.

Sumvariabel	Jenter		Gutter	
	Gj. snitt	SD	Gj. snitt	SD
SumØmfintligStimuli	2.78	1.29	3.09	1.03

Samlet skåre for hele utvalget på SumØmfintligStimuli er 2.99 med et standardavvik på 1.09.

Analysen viser tendenser til forskjeller mellom kjønn. Sumskåren er t-testet for forskjeller mellom de eldre og yngre målpersonene. Resultater på t-test viser en gjennomsnittsskåre for >16 år=3.38, og <16 år=2.50. T-testen viste tendenser, men forskjeller mellom de eldre og yngre i utvalget er ikke signifikante (tabell 16).

SumØmfintligStimuli er satt sammen av totalt 6 spørsmål fra VM. Spørsmålene er knyttet til ulike typer sansestimuli som målpersonene kan være ømfintlige for. Både gutter og jenter viser størst grad av ømfintlighet for auditive og vestibulære stimuli (spørsmål 45a/d). Se gjennomsnitt og standardavvik for gutter og jenter på spørsmålene i SumØmfintligStimuli i tabell 13.

Tabell 13: gjennomsnittsskåre fordelt på kjønn for spørsmålene i SumØmfintligStimuli.

Spørsmål	Gj. Snitt jenter (N=7)	SD	Gj. Snitt gutter (N=16)	SD
45 a	3.29	1.38	3.69	1.45
45b	2.86	1.67	2.81	1.38
45c	2.29	1.49	3.06	1.34
45d	3.00	1.91	3.33	1.40
45e	2.57	1.27	2.88	1.36
45f	2.71	1.38	2.81	1.22

Spørsmål 46 i VM spør om målpersonen har "...få eller svake uttrykk for smerte". Svarene på dette spørsmålet er spesielt interessant å se i relasjon til ømfintlighet for ulike stimuli. Svarene på dette spørsmålet ga lite variasjon mellom kjønn, med gjennomsnitt på 2,57 og standardavvik på 1,47. Se frekvenstabell for spørsmål 46 i tabell 14.

Tabell 14: Frekvenstabell: om målpersonen har få eller svake uttrykk for opplevelse av smerte (spm 46).

Svaralternativet passer:	Frekvens	Prosent
Svært dårlig	8	34,8
Dårlig	4	17,4
Både og	4	17,4
Bra	4	17,4
Svært bra	3	13,0
Totalt	23	100,0

I tilknytning til resultatene i tabell 14, svarer flere av respondentene at målpersonene også liker sensoriske stimuli. 14 av 23 besvarte spørsmålet om en ”liker auditive stimuli (stimuli som påvirker hørselen, for eksempel musikk, støvsuger og annet)” med at eksemplet passer ”godt” eller ”svært godt”. Guttene beskrives å like auditive stimuli bedre enn jentene (gutter: $M=3,94$ og jenter: $M=2,86$). I 6 tilfeller besvares spørsmålene med ”svært bra” eller ”bra” for både ømfintlig for auditive stimuli, og at en liker auditive stimuli. På spørsmål om målpersonen liker vestibulære stimuli (stimuli som påvirker balansesystemet) svarer informantene til seks av syv jenter at de liker slik stimuli svært dårlig. 11 av 16 gutter setter heller ikke pris på vestibulære stimuli, og foresatte besvarte spørsmålet med ”svært dårlig” eller ”dårlig”.

5.5 Væremåtevariabler

Under dette punktet presenteres resultater knyttet til særtrekk i væremåte. Det presenteres åtte sumvariabler, og tre enkeltspørsmål fra væremåte. Spørsmål knyttet til strukturavhengighet/opptatthet er viet et eget avsnitt grunnet markante funn i datamaterialet. Sumvariablene er samlet for å vise reliabilitetstest (tabell 15). Reliabilitetsanalysen viser at samtlige sumvariabler har tilfredsstillende reliabilitet.

Tabell 15: reliabilitetstest av sumvariabler med Cronbach alpha.

Sumvariabel	Spørsmål	Cronbach alpha
SumØmfintligStimuli	45 a/b/c/d/e/f	.88
SumStruktur	33, 62 a/b, 63 a/b/c/d/e/f, 81 a/b	.89
SumTvang	86 a/b/c/d	.86
SumForventning	69, 71, 79	.82
SumFRU	75, 88 b/c, 83c, 82 d, 87 c	.70
SumOmgjengelig	30i/j(sn)/l/r/t(sn)	.79
SumIgangsetting	77, 83a	.85
SumMotivasjon	33 a/i, 68	.86
SumInteresser	33 c(sn)/33 e	.81

T-test basert på to alderssegmenter i utvalget viser store forskjeller mellom de yngre og de eldre målpersonene. Tabell 16 (neste side) viser at målpersoner over 16 år skårer signifikant høyere enn målpersoner under 16 år på fire av ni sumvariabler. Gjennomsnittsverdier for de eldre og yngre i utvalget presenteres i tekst sammen med tabellfremviste gjennomsnittskårer for kjønn videre i oppgaven.

Tabell 16: t-test av gjennomsnittsverdier for målpersoner over og under 16 år.

Sumvariabel	t- verdi	frihetsgrader	Sig. (2 halet)
SumØmfintligStimuli	2.054	21	.053
SumStruktur	2.673	21	.014*
SumFRU	2.853	21	.011*
SumForventning	1.177	21	.252
SumOmgjengelighet	-3.968	21	.001**
SumIgangsetting	2.939	12	.012*
SumTvang	1.915	21	.069
SumMotivasjon	-1.885	21	.073
SumInteresser	-1.756	21	.100

* Forskjellen er signifikant på .05 nivå (2-halet test)

**Forskjellen er signifikant på .01 nivå (2-halet test)

5.5.1 Avhengighet og opptatthet av struktur

Resultatene på SumStruktur er knyttet til om barn og unge med FXS beskrives som opptatt av struktur og særskilt tilrettelegging i omgivelsene, samt om målpersonen reagerer med motstand når strukturen i hverdagen blir forandret. Sumvariabelen er satt sammen av 11 enkeltspørsmål fra VM, og viser tilfredsstillende reliabilitetsskåre på Cronbach alpha. Samlet skåre for SumStruktur viser svært liten forskjell mellom kjønn, se tabell 17.

Tabell 17: Gjennomsnitt fordelt på kjønn for SumStruktur.

Sumvariabel	Jenter		Gutter	
	Gj. snitt	SD	Gj. snitt	SD
SumStruktur	3.44	.67	3.42	.73

Samlet skåre for SumStruktur=3.43. Resultatet på t-test viser at gjennomsnittsverdien for de >16= 3.73, og for <16= 3.04. Målpersonene som er eldre enn 16 år viser signifikant mer opptatthet og avhengighet for struktur i hverdagen, samt at de reagerer i større grad med motstand dersom rutiner blir brutt (tabell 15).

For å undersøke om det er forskjell på om målpersonene er *opptatt* av struktur og om de viser *negative reaksjoner* på brutte rutiner, er spørsmålene delt inn i to underkategoriserte sumvariabler; SumStrukturOpptatt (spørsmål 62a, 62b og 33l, Cronbach alpha=.78) og SumStrukturAvhengig (spørsmål 81a/b, 63a/b/c/d/e/f, Cronbach alpha=.89). Det er tendenser til at målpersonene beskrives som mer opptatt av å vite hvem de skal være sammen med,

samt hva og hvor det skal foregå, enn at de reagerer negativt når rutinene blir brutt. Se oversikt over delsumvariablene SumStrukturOpptatt og SumStrukturAvhengig i tabell 18.

Tabell 18: gjennomsnitt fordelt på kjønn for SumStrukturVite og SumStrukturAvhengig.

Sumvariabel	Jenter		Gutter	
	Gj. snitt	SD	Gj. snitt	SD
SumStrukturOpptatt	4.05	.75	4.21	.81
SumStrukturAvhengig	3.20	.88	3.13	.75

I tilknytning til SumStruktur er det relevant å se enkelte spørsmålene som inngår i sumvariabelen. Spørsmål 331 etterspør om målpersonen karakteriseres ved at han/ hun er fornøyd når han/ hun vet hva en skal gjøre. Besvarelser for 13 gutter og 3 jenter viser at foreldrene mener denne karakteristikken passer ”svært bra” for sine barn, og gjennomsnitt for hele gruppa er 4.61. Målpersonene beskrives også å være opptatt av å få vite hva som skjer i løpet av dagen, samt hvem han/hun skal være sammen med (spørsmål 62a og 62b). Se gjennomsnitt og standardavvik fordelt på kjønn for spørsmål 331, 62a og 62 b i tabell 19.

Tabell 19: gjennomsnittsfordeling og standardavvik på spørsmål 331, 62a og 62b, fordelt på kjønn.

Spørsmål	Jenter		Gutter	
	Gj. snitt	SD	Gj. snitt	SD
33 l	4.29	.76	4.75	.56
62 a	3.86	1.07	4.06	1.06
62 b	4.00	1.15	3.81	1.05

5.5.2 Andre sumvariabler knyttet til væremåte

Tvangsmessig atferd

SumTvang er laget for å beskrive grad av tvangsmessig atferd hos målpersonene. Spørsmålene retter seg mot vansker med å gjennomføre handlinger og aktiviteter på grunn av tvangshandlinger, og om målpersonen blir lett opphengt i noe han eller hun ser på. Resultatet fra studien indikerer lite forskjell mellom kjønn, men det er tendenser til forskjell på t-test basert på alder (tabell 16). Målpersoner over 16 år oppnår gjennomsnittlig en sumskåre på 2.90, mens målpersoner under 16 år gjennomsnittlig skårer 2.20. Se resultater for SumTvang i tabell 20.

Tabell 20: gjennomsnitt fordelt på kjønn for SumTvang.

Sumvariabel	Jenter		Gutter	
	Gj. snitt	SD	Gj. snitt	SD
SumTvang	2.64	1.05	2.57	.90

Forventninger

SumForventning har som mål å beskrive hvorvidt målpersonen gir uttrykk om forventninger til noe som skal skje, og om en reagerer med oppgitthet, frustrasjon eller sinne når forventningene blir brutt. Resultatene i tabell 21 viser ingen differanse mellom gutter og jenter i undersøkelsen, men det er noe større standardavvik for jentene. Målpersoner over 16 år skårer gjennomsnittlig noe høyere enn de yngre i utvalget. Gjennomsnittsskåre for >16=2.90, mens <16=3.20.

Tabell 21: Gjennomsnitt fordelt på kjønn for SumForventning.

Sumvariabel	Jenter		Gutter	
	Gj. snitt	SD	Gj. snitt	SD
SumForventning	3.14	.878	3.14	1.24

Fokusrelaterte utførelsesvansker

Vansker med å utføre viljestyrte handlinger når fokus rettes mot utførelsen omtales ofte som fokusrelaterte utførelsesvansker (FRU). Jentene skårer noe høyere enn guttene på SumFRU. T-test for alder viser at den eldste delen av utvalget skårer signifikant høyere enn de yngre (tabell 16). Gjennomsnittsskåre for >16=3.39, mens <16=2.60. Se resultater for SumFRU i tabell 22.

Tabell 22: Gjennomsnitt fordelt på kjønn for SumFRU.

Sumvariabel	Jenter		Gutter	
	Gj. snitt	SD	Gj. snitt	SD
SumFRU	3.38	1.01	2.90	.63

Omgjengelighet

SumOmgjengelig beskriver ulike karakteristiske måter å være på i sosial samhandling. Spørsmålene knyttes til om målpersonen beskrives som sosial, kontaktsøkende, oppmerksom og tilstedeværende. Resultatene viser at jentene skårer lavere enn guttene i utvalget (tabell 23). Det er også av stor interesse at de eldste i utvalget skårer signifikant lavere enn de yngre

på SumOmgjengelig (tabell 16). Målpersoner over 16 år skårer gjennomsnittlig 2.88, mens målpersoner under 16 år har et gjennomsnitt på 3.86.

Tabell 23: Gjennomsnitt fordelt på kjønn for SumOmgjengelig.

Sumvariabel	Jenter		Gutter	
	Gj. snitt	SD	Gj. snitt	SD
SumOmgjengelig	3.07	.89	3.50	.78

Igangsetting

Sumvariabelen gir et mål for om målpersonen har vansker med å komme i gang med en aktivitet, eller om en har behov for hjelp til igangsetting av nye aktiviteter. Igjen viser resultatene lite variasjon for kjønn (tabell 24), men signifikante forskjeller for aldersgruppene (tabell 16). Gjennomsnittsskåre for målpersoner >16= 4.42, mens målpersoner <16 gjennomsnittlig skårer 3.35.

Tabell 24: gjennomsnitt fordelt på kjønn for SumIgangsetting

Sumvariabel	Jenter		Gutter	
	Gj. snitt	SD	Gj. snitt	SD
SumIgangsetting	3.92	.93	3.96	.99

Motivasjon

Sumvariabelen for motivasjon gir et mål for hvor lett det er å få med seg vedkommende på en aktivitet. Resultatene i tabell 25 viser små forskjeller basert på kjønn på SumMotivasjon. Gjennomgående beskrives de yngre i utvalget som lettere å få med på ting (spørsmål 33a), lettere å motivere (33i), samt at de oftere er med på aktiviteter som bryter med rutiner og planlagte avtaler (spørsmål 68). Dette kan skyldes tilfeldige målingsfeil da t-test ikke viser signifikante verdier (tabell 16). Gjennomsnitt for målpersoner over 16 år =2.66, mens målpersoner under 16 år skårer M=3.40.

Tabell 25: gjennomsnitt fordelt på kjønn for SumMotivasjon:

Sumvariabel	Jenter		Gutter	
	Gj. snitt	SD	Gj. snitt	SD
SumMotivasjon	2.90	1.08	3.02	.96

Interesser

Guttene beskrives som noe mer interessert i aktivitet, samt har oftere flere interesser de liker å gjøre (tabell 26), selv om forskjellen ikke er signifikant. Sumvariabelen består av spørsmål

33c(sn) og 33e. T-test viser at resultater for aldersforskjeller ikke er signifikante (tabell 16). Målpersoner >16 skårer gjennomsnittlig 2.88, mens målpersoner <16 skårer 3.50.

Tabell 26: gjennomsnitt fordelt på kjønn for SumInteresser

Sumvariabel	Jenter		Gutter	
	Gj. snitt	SD	Gj. snitt	SD
SumInteresser	2.85	.90	3.28	.85

Sosial forbi

Mange mennesker med FXS beskrives å ha sosial fobi og angstproblematikk i sosiale sammenhenger (Cordeiro et al., 2011). Spørsmål 12 i væremåteskjema spør om vedkommende ”har redsel for situasjoner der han/ hun kan tiltrekke seg andres oppmerksomhet”. Resultatene viser at det er lite variasjon basert på kjønn og alder. Se svarfordeling på spørsmål 12 for gutter og jenter og målpersoner over og under 16 i tabellen nedenfor.

Tabell 27: om målpersonen har redsel for situasjoner der han/hun kan tiltrekke seg andres oppmerksomhet:

Kjønn		Frekvens	Prosent
Jenter	Ja	2	28.6
	Nei	5	71.4
Gutter	Ja	5	31.3
	Nei	11	68.8
<16 år	Ja	3	25.0
	Nei	9	75.0
>16 år	Ja	5	38.5
	Nei	8	61.5

Dagsformsvingninger

Undersøkelsen viser at omtrent halvparten av barna med FXS viser betydelig variasjon i dagsform. 11 av 23 krysset av for ja. Av disse var det 9 gutter og 2 jenter. Dette tilsvarer at 56% av guttene viser betydelig variasjon i dagsform, mens dette er tilfelle for 28,5 % av jentene.

5.6 Korrelasjonsanalyser

5.6.1 Autismespektervansker og samvariasjon

Tabell 27 viser samvariasjon mellom total SCQ skåre og grad av utviklingshemning. Korrelasjonsanalysen viser sterk samvariasjon mellom utviklingshemning og SCQ for begge kjønn, men denne sammenhengen er kun signifikant for guttene.

Tabell 28: grad av ASF vansker korrelert med personvariabler fordelt på kjønn.

	SCQ Skåre jenter		SCQ skåre gutter	
	Pearsons r	Spearman`s rho	Pearsons r	Spearman`s rho
Utviklingshemning	.611	.584	.660*	.691**

* Korrelasjon er signifikant på .05 nivå (2-halet test)

**Korrelasjon er signifikant på .01 nivå (2-halet test)

Samvariasjon med variabler fra Væremåteskjema

For å vise sammenheng med variabler fra VM, er samvariasjon med samtlige Sumvariabler og enkeltspørsmål analysert. For å skape en oversiktlig fremstilling av data presenteres korrelasjoner med SumØmfintligStimuli og SumStruktur før resterende væremåtevariabler.

Tabell 29 viser at jenter som har høye skårer på SCQ er opptatte av struktur i hverdagen, at de vet hvem de er sammen med, og at de oftere reagerer negativt når rutiner blir brutt. Korrelasjonen er meget sterk, og signifikanstesten viser høy verdi. Jentene har også tendenser til at autismespektervansker og sansebesvær samvarierer. Guttene med høy SCQ skåre viser tendenser til å være opptatt og avhengig av struktur, mens samvariasjonen med sansebesvær er relativt lav.

Tabell 29: grad av ASF vansker korrelert med SumØmfintligStimuli og SumStruktur fordelt på kjønn:

	SCQ skåre jenter		SCQ skåre gutter	
	Pearsons r	Spearman`s rho	Pearsons r	Spearman`s rho
SumØmfintligStimuli	.649	.595	.268	.328
SumStruktur	.949**	.955**	.510	.406

* Korrelasjon er signifikant på .05 nivå (2-halet test)

**Korrelasjon er signifikant på .01 nivå (2-halet test)

Tvangsmessige handlinger ser ut til å vær tilsted hos de fleste av jentene med høye skårer på SCQ. Jenter som har flere interesser, og som er interessert i å være med på aktiviteter skårer

lavere på SCQ. Skåre på SCQ viser negativ samvariasjon med omgjengelig for jentene (tabell 30).

Korrelasjonstall for guttene, ser ut til å innebære at gutter med høy skåre på SCQ har mer tvangsmessig atferd (SumTvang) med signifikans på 0.05 nivå. Gutter med høye skårer på SCQ viser også en tendens til mindre motivasjon for å delta i aktiviteter (SumMotivasjon), og har oftere større behov for hjelp av andre til å komme i gang med aktiviteter (SumIgangsetting).

Tabell 30: grad av ASF vansker korrelert med 7 sumvariabler fra væremåteskjema:

	SCQ skåre jenter		SCQ skåre gutter	
	Pearsons r	Spearman`s rho	Pearsons r	Spearman`s rho
SumTvang	.885**	.936**	.520*	.480
SumOmgjengelighet	-.672	-.682	-.155	-.135
SumIgangsetting	.540	.318	.361	.258
SumFRU	.702	.550	.277	.200
SumMotivasjon	-.382	-.430	-.416	-.359
SumInteresser	-.851*	-.891**	-.185	-.153
SumForventning	.569	.445	.139	.098

* Korrelasjon er signifikant på .05 nivå (2-halet test)

**Korrelasjoner signifikant på .01 nivå (2-halet test)

I sammenheng med ASF, er det interessant å se sammenheng mellom skårer på SCQ og besvarelser på spørsmål om sosial fobi i VM. Korrelasjonsanalyser viser ingen sammenheng mellom skårer på SCQ og besvarelsen på spørsmål 12 i VM om sosial fobi for verken gutter eller jenter (rho=.036).

5.6.2 Sansebesvær og samvariasjon

Sammenhengen mellom sansebesvær og grad av utviklingshemning har en tendens til å samvariere hos guttene, men ikke jentene (tabell 31, neste side).

Tabell 31: SumØmfimtligStimuli korrelert med utviklingshemning.

	SumØmf. jenter		SumØmf. gutter	
	Pearsons r	Spearman`s rho	Pearsons r	Spearman`s rho
Utviklingshemning	.126	.039	.464	.518

* Korrelasjon er signifikant på .05 nivå (2-halet test)

**Korrelasjoner signifikant på .01 nivå (2-halet test)

Reaksjonsuttrykk på smerte og ubehag har en naturlig sammenheng med sansebesvær. Her viser korrelasjonsanalysen store forskjeller mellom gutter og jenter; mens jentene som beskrives som sansevare har få eller utydelige uttrykk for smerte, finnes ikke denne sammenhengen hos guttene. *Sosial fobi* kan sees i sammenheng med sansbesvær, ettersom situasjoner der en tiltrekker seg andres oppmerksomhet er en faktor som kan påvirke menneskets sanseapparat. I denne studien er det tendens til samvariasjon mellom sosial fobi og SumØmfintligStimuli for jentene, mens samvariasjonen er lavere hos guttene (tabell 32).

Tabell 32: SumØmfintligStimuli og samvariasjon med “sosial fobi” og “smerteuttrykk”.

	SumØmf. jenter		SumØmf. gutter	
	Pearsons r	Spearman's rho	Pearsons r	Spearman's rho
Sosial forbi	.599	.632	.322	.352
Smerteuttrykk	.866*	.945**	.053	.073

* Korrelasjon er signifikant på .05 nivå (2-halet test)

**Korrelasjoner signifikant på .01 nivå (2-halet test)

Siste del av korrelasjonsanalysen for SumØmfintligStimuli består av tallmateriale for samvariasjon med 8 sumvariabler fra VM. Resultatene viser signifikant samvariasjon med vansker for å utføre viljestyrte handlinger når fokuset rettes mot utførelsen (SumFRU) for begge kjønn. For målpersonene som beskrives som opptatt og avhengig av struktur (SumStruktur), samt målpersoner med større grad av tvangsmessige handlinger (SumTvang) viser i korrelasjonsanalysen en klar samvariasjon med ømfintlighet for sensoriske stimuli. Målpersoner som beskrives som sansevare har ofte også større behov for bistand i oppstart av aktiviteter (SumIgangsetting).

Guttene i studien som beskrives ømfintlige for sensoriske stimuli viser generelt større forventninger til ting som skal skje (SumForventning) enn jentene. SumØmfintligStimuli ikke har noen signifikant samvariasjon med SumInteresser. Jentene i studien med høy skåre på SumØmfintligStimuli viser generelt færre interesser og mindre motivasjon for å engasjere seg i aktiviteter (SumInteresser og SumMotivasjon). De viser også mer spesielle samværsformer, ved en negativ korrelasjon med SumOmgjengelighet, se tabell 33 (neste side).

Tabell 33: SumØmfintligStimuli og samvariasjon med sumvariabler fra væremåteskjema.

	SumØmf. jenter		SumØmf. gutter	
	Pearsons r	Spearman`s rho	Pearsons r	Spearman`s rho
SumStruktur	.645	.714	.535*	.675**
SumOmgjengelighet	-.721	-.721	-.388	-.313
SumIgangsetting	.713	.670	.554*	.638**
SumFRU	.768*	.750	.518*	.567*
SumMotivasjon	-.467	-.408	-.500*	-.468
SumInteresser	-.749	-.811*	-.203	-.168.
SumTvang	.738	.800*	.644**	.703**
SumForventning	.268	.162	.510*	.585*

* Korrelasjon er signifikant på .05 nivå (2-halet test)

**Korrelasjoner signifikant på .01 nivå (2-halet test)

5.6.3 Strukturavhengighet og samvariasjon

Strukturavhengighet/ opptatthet er av stor pedagogisk interesse å undersøke, og er viet plass i denne presentasjonen da funn i datamateriale er spesielt fremtredende. SumStruktur presenteres med samvariasjon med personvariabler og væremåtevariabler for hele utvalget og fordelinger basert på kjønn. Tidligere i kapittelet er sumvariabelen for strukturavhengighet/opptatthet korrelert med grad av ASF (skåre på SCQ) og sumvariabelen for sansebesvær (SumØmfintigStimuli). Resultatene viste nærmest perfekt samvariasjon mellom SumStruktur og SCQ skåre for jentene ($\rho \Rightarrow 0.9$).

Jentene i utvalget som skårer høyt på strukturvariabelen skårer signifikant lavere på sumvariabelen for omgjengelighet. De har også større behov for hjelp til å komme i gang med aktiviteter (SumIgangsetting). En naturlig samvariasjon skjer med SumForventning, som innebærer å ha forventninger til det som skal skje, og at målpersonen reagerer negativt når forventninger ikke blir innfridd. Resultatene viser også at jentene har større forekomst av tvangsmessige handlinger når de beskrives som avhengige/opptatte av struktur.

Guttene som viser høy grad av strukturavhengighet/opptatthet viser ikke samme tendens til å ha lite interesse for å delta i aktiviteter/ha få interesser (SumInteresser). Guttene viser høyere samvariasjon mellom SumStruktur og SumMotivasjon. Dette betyr at de som har høy skåre på SumStruktur oftere beskrives som vanskeligere å få med på aktiviteter (SumMotivasjon)

og har større behov for bistand for å komme i gang med aktiviteter (SumIgangsetting), se tabell 34.

Tabell 34: SumStruktur og samvariasjon med sumskårer fra væremåteskjema.

	SumStruktur jenter		SumStruktur gutter	
	Pearsons r	Spearman`s rho	Pearsons r	Spearmans rho
SumOmgjengelighet	-.812*	-.847*	-.496	-.600*
SumIgangsetting	.721	.512	.744**	.780**
SumMotivasjon	-.357	-.556	-.731**	-.631**
SumInteresser	-.815*	-.955**	.009	-.160
SumTvang	.965**	.982**	.612*	.593*
SumForventning	.771*	.577	.565*	.475

* Korrelasjon er signifikant på .05 nivå (2-halet test)

**Korrelasjoner signifikant på .01 nivå (2-halet test)

6 Diskusjon

Det primære målet med studien er å undersøke hva som kjennetegner væremåte i sosial samhandling hos gutter og jenter med FXS. I så måte er det spesielt interessant å se om det er undergrupper i utvalget som viser spesielle særtrekk i væremåte. Videre er det formålsfestet gjennom forskningsspørsmålene å undersøke hvordan sansebesvær kan virke inn på væremåte. Det tredje og siste forskningsspørsmålet har med utgangspunkt i en spesialpedagogisk fagvinkel, som formål å diskutere hvilke pedagogiske implikasjoner som fremkommer av studien.

Studien viser store variasjoner i væremåte hos mennesker med FXS. Relasjonen til andre mennesker, hvordan en forholder seg til hverdagslige aktiviteter, samt at hva som presenterer påkjenninger, varierer i stor grad. Basert på tidligere studier (Clifford et al., 2007), beskrivelser (Cornish et al., 2004; Cornish, Turk & Hagerman, 2008) og kliniske erfaringer var det forventet større forskjeller mellom gutter og jenter enn det som kommer frem i denne studien. Jenter med FXS viser ikke mindre væremåtemessige vansker eller mindre alvorlig grad av utviklingshemning enn gutter med FXS. Derimot er det alder som ser ut til å være en spesiell markør for å definere undergrupper i utvalget. Størrelsen på utvalget i studien er gjennomsnittlig i forhold til flere andre studier om særtrekk hos mennesker med FXS (Mazzocco, Bhatia & Lesniak-Karpiak, 2006; Moss et al., 2009). Det er hensiktsmessig for denne studien å se ulike forskningsarbeid i forhold til hverandre, ettersom utvalgene i de fleste studier på FXS er relativt små.

6.1 Økende utfordringer med økt alder

Gjennomgående viser de eldre i utvalget hyppigere vansker og et større behov for bistand i sosial samhandling enn de yngre i utvalget. Tidligere er beskrivelser av vansker som øker med alder i stor grad basert på rapporteringer om økende avstand mellom mental og kronologisk alder gjennom skårer på intelligens tester (Hagerman, 2004; Mæhle & Houge, 2011). I denne studien skårer ungdommer over 16 år signifikant høyere enn de yngre i utvalget på fire av ni sumvariabler. Disse fire sumvariablene viste at (1) de eldre i utvalget er mer opptatt av, og har større behov for struktur i omgivelsene. (2) De viser signifikant større vansker med å komme i gang med aktiviteter, og (3) de beskrives av informantene som mindre kontaktsøkende, oppmerksomme, sosiale og utadvendte enn de yngre i utvalget. Den

siste sumvariabelen (4) med denne variasjonen handlet om vansker knyttet til gjennomføring av aktiviteter når samspillspersoner rettet fokus mot utførelsen (SumFRU).

Generelt beskrives mange av personene med FXS i studien som sosiale, kontaktsøkende, oppmerksomme og tilstedeværende av sine foresatte. Samtidig antyder resultatene at det kan se ut til at omgjengelighet varierer betydelig i gruppa. Omgjengelighet kan være avhengig av den enkelte persons relasjonsferdigheter, men er også avhengig av hvordan andre tolker og imøtekommer barnets signaler. Mennesker med FXS i studien viser mindre omgjengelighet jo eldre de blir, og i pedagogisk sammenheng innebærer dette at det er viktig å legge til rette for sosial samhandling fra ung alder, slik at barn og unge med FXS får utnyttet sitt sosiale potensial.

Vansker knyttet til samspill i gjennomføring av aktiviteter når fokus rettes mot utførelsen (FRU) viser også signifikante forskjeller når målpersonene er eldre enn 16 år. Resultatene viser at den eldste aldersgruppa kan profittere på samspill som ikke retter fokus på utførelsen. Dersom disse resultatene er representative, gir det klare antydninger om at autismetiltak, som ofte baseres på detaljerte instruksjoner og intense opplærings situasjoner, kan være belastende og virke mot sin hensikt hos flere barn og unge med FXS som viser FRU. For utfyllende litteratur om FRU hos mennesker med FXS, se pågående masterstudie av Pallesen (2013).

Ungdomstiden er både spennende og vanskelig for de fleste. Kravene til sosial forståelse og samhandling øker (Tetzchner, 2001), og både kropp og ytre behov er i endring. Puberteten innebærer både kroppslige og følelsesmessige forandringer. Disse forandringene kan rokke ved manges strukturavhengighet og faste personlige struktur. Endringene, sammen med økte krav fra omgivelsene kan gi forandringer i fremtreden og evnen til å takle sosiale situasjoner (Vildalen, 2011). Ved 16 årsalderen skifter de fleste skoletilbud fra ungdomsskole til videregående opplæring. Overganger mellom ulike skoleslag innebærer utfordringer for alle elever. Det kan være spesielt vanskelig for elever med spesielle behov å tilpasse seg et nytt miljø med nye mennesker, nye samværsformer og nye aktiviteter (Norsk Forbund for Utviklingshemmede, 2010). Funn i denne studien indikerer at barn og unge med FXS kan ha vansker spesielt knyttet til strukturbetingede forandringer i omgivelsene (punkt 6.3), og at disse øker gjennom ungdomsårene.

Det er nærliggende å anta at utfordringene nevnt overfor kan føre til sosiale og emosjonelle vansker når barnet blir eldre. Spesielt jenter med FXS kan være sårbare for angst og depresjoner (Hagerman, 2000a). Selv om medisinsk oppfølging kan virke preventivt for disse symptomene, er det viktig å gi støtte, og forebygge slike vansker gjennom gode strukturelle betingelser. Gode relasjoner til voksne nærpåersoner og jevnaldrende er viktig for de fleste mennesker, og slik trygghet kan være spesielt viktig i sårbare perioder i livet.

6.2 Autismespektervansker

48 % av guttene i studien (11 av 23) skåret over cut-off for ASF, noe som er konsistent med tidligere studier av gruppa (Brock & Hatton, 2010; Hall et al., 2010), men også noe høyere enn andre studier på FXS med større utvalg (Hatton et al., 2006). Av jentene i undersøkelsen skåret 2 av 7 over cut-off på SCQ. Mazzocco, Kates, Baumgardner, Freund og Reiss (1997) fant ikke mer ASF-lignende atferd blant jenter med FXS enn en IQ-matchet kontrollgruppe. Sammenlignet med tidligere studier er forekomst av ASF hos jenter med FXS i denne studien høy. Samtidig viser studier av Hatton et al. (2006), at ASF kan forekomme også hos jenter med FXS, men med lavere frekvens enn hos gutter med FXS.

Undersøkelser basert på foreldres rapporteringer viser at særtrekk typiske for autismebefolkningen også i stor grad finnes hos mennesker med FXS. Tidligere studier av blant annet Clifford et al. (2007) og Brock og Hatton (2010) indikerer at stereotyp og repeterende atferd er den delen av den autistiske triaden som i størst grad forklarer autismespektervansker hos mennesker med FXS. Resultatene i studien gir støtte til at stereotyp atferd er den delen av autismetriaden som er mest vanlig for gutter med FXS. Det gis derimot ikke støtte til at dette er tilfelle for jentene, som viser en generelt jevnere, men lavere profil av autisnevansker enn guttene.

SCQ skåre og tvangsmessige handlinger er to markører seg viser nærmest perfekt samvariasjon for jentene i studien, og svært sterk samvariasjon for guttene. Disse funnene gir støtte til at stereotyp atferd er en markant del av autisnevansker hos både gutter og jenter med FXS, som tidligere rapportert av blant andre Moss et al. (2009). Det var derimot ingen tydelige funn knyttet til ensporede interessefelt hos gutter som skåret høyt på SCQ. Dette kan tyde på at høye skårer på stereotyp atferd mest sannsynlig skyldes rigide bevegelsesformer og tvangsmessige handlinger fremfor at guttene med FXS i studien har få interesser, eller blir

uvanlig oppslukt av snevre interessefelt. For jentene i studien derimot, ser interesser ut til å korrelere svært tydelig med ASF. I motsetning til guttene i studien, viser de oftere få og snevre interesser når de viser flere kjennetegn på ASF, selv om stereotyp atferd for jentene er like fremtredende som sosial interaksjon og kommunikasjon på profil av autismevansker.

Disse funnene kan sees i sammenheng med en studie av barn med Cornelia de Lange syndrom og barn med autisme av Hoëm og Andresen (2012), Sammenlignet med funn hos Hoëm og Andresen (2012), som brukte samme forskningsverktøy, viser studien at spesielt gutter med FXS viser større grad av omgjengelighet enn barn med ASF. SumOmgjengelighet for ASF gruppa var 2.8. Dette er betydelig lavere tall enn hos guttene med FXS (3.5), og noe lavere enn jenter med FXS (3.07). Dette kan tyde på at selv om FXS gruppa har vansker knyttet til ASF, har de ikke de samme grunnleggende sosiale vanskene. Som nevnt tidligere beskrives de eldre i studien som mindre sosiale, kontaktsøkende, oppmerksomme og tilstedeværende enn de yngre barna, og målpersonene over 16 år skårer i samme område som barn med ASF på spørsmål om omgjengelighet. Det er viktig å understreke at funn hos Hoëm og Andresen (2012) viste gjennomsnitt for hele gruppen av barn med ASF i alderssegmentet 5-18 år. Det er uvisst om også barn med ASF, i likhet med barn med FXS, beskrives som mindre omgjengelige jo eldre de blir.

Studien viser samvariasjon mellom grad av utviklingshemning og ASF for guttene, men ikke jentene. En studie av Hall et al. (2010) viste at barn med FXS med mer alvorlig grad av utviklingshemning oftere viste mer ASF. Dette kan tyde på at en slik link mellom autisme og utviklingshemning kan være tilstede hos mange med FXS, men at det samtidig kan det være flere faktorer som virker inn på grad av ASF.

Barn med FXS viser klare tendenser til variasjon mellom gode og dårlige dager. 56 % av guttene og 28 % av jentene hadde betydelig variasjon i dagsform. Dermed viser guttene noe høyere funn enn barn med autisme, som i en studie av Martinsen et al. (2007b), viste samlet forekomst av betydelige dagsformsvingninger hos barn med autisme på cirka 43 %. Pedagogiske implikasjoner av disse funnene diskuteres mot slutten av oppgaven.

Når barn blir eldre møter de stadig flere utfordringer knyttet til sosiale ferdigheter og aldersadekvat væremåte. Også stereotyp og repeterende atferd kan være mer synlig i en skolesituasjon enn for eksempel i barnehagen. Det hadde vært av stor interesse å se om

autismevarer økte med alder hos barn og unge med FXS også mellom 10 og 20 årsalderen, slik det har vist seg hos yngre barn med FXS (Hatton et al., 2006). En stor del av spørsmålene i SCQ fokuserer på alderen 4-5 år, og SCQ kan derfor ikke brukes som mål på om ASF varer øker jo eldre barn med FXS blir.

6.3 Sansebesvær

Flere i FXS gruppa viser sensitivitet for sensoriske stimuli, men funn i studien er lavere enn blant annet mennesker Asperger syndrom, jmfør undersøkelse av Martinsen, Jensen, et al. (2008). Årsaken til den relativt lave sårbarheten kan til en viss grad forklares av at barn og unge med FXS har gode tiltak rundt seg, og at foreldre/ nære omsorgspersoner har tilgang på gode fagmiljøer. Samtidig viser standardavviket stor variasjon i gruppa. Det kan tyde på at målpersonene i stor grad enten skårer svært høyt eller svært lavt på sanseømfintlighet. Undersøkelsen viser at det er enkelte typer sanseømfintlighet som er mer vanlig i FXS gruppa enn andre. I denne studien er det flest i utvalget som viser sensitivitet for lyder og vestibulære sansepåvirkninger.

Det er usikkerhet knyttet til hvilke reaksjonsformer målpersonene har når lyder kan være ubehagelige. Generelt kan lyder som barnet er sensitiv mot være tilstede både i hjemlig atmosfære og opplæringssammenheng. Hjemme kan støvsugere, vaskemaskiner og tv være kilder til uro. I opplæringssammenheng kan man for eksempel bli forstyrret av tikkende klokker, fly som suser i det fjerne, eller støy fra medelever. Et interessant funn, er at seks av målpersonene som beskrives som svært ømfintlige for lyder også liker lyder veldig godt. Det kan være relevant i denne sammenheng å diskutere om ømfintlighet for visse lyder også kan føre til at en blir spesielt glad i, eller opphengt i samme lyd. For eksempel lyden av en vaskemaskin kan oppleves ubehagelig i starten, før en opparbeider seg en spesiell interesse for, og deretter lar seg fascinere hvordan vaskemaskinen fungerer i timevis i strekk. Tiltrekking mot spesifikke stimuli kan også føre til *skjevt fokus* der personen henger seg opp i enkelte inntrykk som ikke oppleves som vesentlige hos de fleste andre mennesker. Hos småbarn med autisme kan dette bidra til at oppmerksomheten blir rettet mot svært sterke eller svake stimuli, som lyskontraster eller lysreflekterende objekter (Martinsen et al., 2006). Dette kan gjøre kontakten mellom barn og voksen sårbar, da andre inntrykk enn morens ansikt virker mer spennende å engasjere seg i. Alderssegmentet som målpersonene i denne undersøkelsen befinner seg i er for gamle til å si noe om slike konsekvenser. Likevel kan

skjevt fokus hindre barnets oppmerksomhet fra fokusere på det omgivelsene anser som relevante inntrykk. I nære samspillsituasjoner kan dette innebære at fokuset rettes mot objekter eller hendelser som ikke naturlig inngår i den sosiale relasjonen.

Vestibulære stimuli, som er knyttet til opplevelser som påvirker balansen, er et annet stimuli som FXS gruppa virker spesielt vare for. Slikt ubehag kan være knyttet til kroppslige aktiviteter, som blant annet balansering eller svinghuske, eller karuseller og bussturer på humpete veier. For enkelte kan det innebære bekymring for å miste kontrollen over balansen i kroppen, og uberegnelig muskeltonus (Hagerman, 2000b). Om dette er genetisk betinget til forskjellige tilstander, eller er en reaksjon på vestibulær understimulering er vanskelig å si. Mennesker med FXS beskrives ofte som engstelige (Cordeiro et al., 2011). Dette kan bidra til at barn med FXS ikke prøver ut kroppslige grenser på samme måte som andre barn, og derfor kan inneha et mer begrenset kroppslig erfaringsgrunnlag.

Det er klare tendenser at sensoriske vansker i utvalget øker med alder. Dette gjenspeiler funn i en studie av Baranek et al. (2008). Baranek og kollegaer studerte yngre barn, noe som indikerer at sansevarhet kan tilta fra småbarnsalderen og frem til voksen alder. Samme studie (Baranek et al., 2008) viste at kognitive evner influerte evnen til sensorisk prosessering. Rogers og kollegaer fant at sanseømfintlighet var større hos barn med FXS som også hadde autisme (Rogers et al., 2003). Det er *tendenser* til slik samvariasjon for jentene med FXS, og noe lavere samvariasjon for guttene i denne studien. Slike forskjeller kan være resultat av små utvalg, og viser at en må lese resultater med forsiktighet. Studien gir ikke støtte til funn om at ømfintlighet for sansestimuli er vesentlig større hos mennesker med både FXS og ASF, og kan dermed vel så gjerne være et særtrekk knyttet til FXS gruppa.

Sammenheng mellom sanseømfintlighet og grad av utviklingshemning i studien viser tendenser til samvariasjon hos guttene, noe som er konsistent med funn hos Baranek et al. (2008) og Rogers et al. (2003). Denne samvariasjonen var ikke tilstede hos jentene med FXS i denne studien. En slik sammenheng kunne kanskje vært tydeligere om en brukte språk som utviklingsmål, da muligheten for å gjøre seg forstått og forstå andres språk kan bidra til at omgivelsene blir mer oversiktlige. Årsaken til at sanseømfintlighet ikke viste samvariasjon med grad av utviklingshemning hos jentene er vanskelig å forklare, da kognitive vansker er en naturlig årsak til vansker med å prosessere sensoriske stimuli. Spørsmålene i Væremåteskjema etterspør *overømfintlighet* for stimuli. Jentene kan ha andre mer usynlige

former for sansebesvær, der de ikke reagerer direkte med ømfintlighet overfor sensoriske inntrykk. Dette kan innebære en undersensitivitet for sensoriske stimuli, der vansker er relatert til det å knytte sammen tidligere og nye erfaringer (Rogers & Ozonoff, 2005). Slik undersensitivitet kan bidra til beskrivelser av *passive* barn. I klasseromssituasjoner kan dette være elevene som er stille i timen, og fremstår som mer sjenerte og vage i sitt reaksjonsmønster.

Det å se og gjenkjenne eventuelle uttrykk for sansevarhet krever ofte at nærpersoner kjenner den enkelte godt. Forekomsten av svake uttrykk for smerte viste små forskjeller mellom kjønn, men for de jentene som foreldrene beskrev som sansevare, var det svært høy samvariasjon med få eller utydelige uttrykk for smerte, noe som kan indikere en undersensitivitet for sansestimuli. Undersensitivitet kan være vanskeligere å oppdage for mennesker rundt, og kan gi utfordringer med å oppdage hvilke sanseintrykk som kan være ubehagelig for den enkelte. Det er viktig å presisere at selv om personen gir lite uttrykk for smerte, er det ikke automatisk at man har høy smerteterskel (Nader et al., 2004). Dette understreker betydningen av at omsorgspersoner har godt kjennskap til den enkeltes uttrykksformer for smerte.

Det kan være relevant å se for seg at oppmerksomheten til en person har en viss kapasitet som brukes i møte med inntrykk i omgivelsene. For å behandle disse inntrykkene, er en nødt til å kunne skru av irrelevante stimuli for å skille ut hva som er relevant for den enkelte person. For vanlige mennesker er det vanlig at irrelevante stimuli, som for eksempel lyden av et fly som er høyt over huset ikke opptar fokus, slik at en kan rette oppmerksomheten mot nyttige lyder. Senere i diskusjonen skal vi se at oversiktlige og forutsigbare dager generelt viktig for gruppa. Både å være opptatt av struktur og å reagere negativt om strukturen blir brutt, måles gjennom sumvariabelen *SumStruktur*. Denne sumvariabelen viser høy samvariasjon med sansebesvær. Korrelasjonen er interessant å diskutere som et kausalt fenomen; om en person er opptatt av hvem han skal være med, hva de skal gjøre og hvor de skal være, kan være en måte å forberede seg på hva som måtte komme av sensorisk informasjon, men det er ikke mulig å trekke konklusjonen ut fra resultatene i denne studien. Imidlertid kan oversikt og forutsigbarhet skape overskudd til å prosessere sensorisk informasjon. På denne måten slipper personer som er sanseømfintlige å bruke unødvendig kapasitet på å finne ut hvem en skal være sammen med, hva man skal gjøre, og hvor aktiviteter skal finne sted.

I studien viser tvangsmessige handlinger signifikant samvariasjon med sansebesvær uavhengig av kjønn. Uten å diskutere kausaliteten i slike sammenhenger, må en spekulere om at tvangsmessige handlinger kan være en mekanisme som kan ta fokuset vekk fra sansemessig ubehag. Det er viktig å understreke at det ikke er spesielt høye funn av forekomst for tvang i denne undersøkelsen, dette til tross for at Moss et al. (2009) i sin undersøkelse fant forhøyet forekomst av blant annet tvangsmessig atferd med objekter hos barn med FXS.

Jenter med høy grad av sansevarhet kan beskrives å ha tendenser til å være mindre kontaktsøkende, sosiale og interesserte i aktiviteter. At disse funnene ikke er gjeldende for guttene i studien er overraskende. En hypotetisk forklaring på resultatene kan være at fordi sanseømfintlighet er et beskrevet fenomen hos gutter med FXS, er det lagt bedre til rette for et miljø med begrensede sanseintrykk for gutter med FXS sammenlignet med jenter med samme diagnose. Dette kan bidra til at guttene har et større overskudd av sensorisk kapasitet, slik at man har bedre forutsetninger for å engasjere seg i samspill og meningsfulle aktiviteter.

En tidlig hypotese var at sansevarhet kan knyttes til sosial fobi (Cordeiro et al., 2011). Denne studien gir ikke støtte til at dette er tilfelle. Derimot viser sansevarhet å henge sammen med utfordringer med å komme i gang med aktiviteter på egenhånd. Å gi den enkelte støtte i opplevelser som er ukjente, eller som kan virke kaotiske å tre inn i, ser ut til å være viktig for barn og unge med FXS. Dersom en bruker mye prosesseringskapasitet på å skaffe seg oversikt, kan det være lite energi igjen til å ta initiativ og sette i gang med aktiviteter på egenhånd.

Sanseømfintlige barn og unge med FXS viser vansker med å utføre handlinger når samspillspartneren retter fokuset mot utførelsen (FRU). Menneskene med FXS i studien som har høy skåre på sansevarhet, viser større tendenser til ømfintlighet når fokuset rettes mot utførelsen av handlinger i sosialt samspill. Dette kan indikere at fokuset fra andre mennesker kan bidra til en mer belastende sansemessig opplevelse, og kan derfor være en kilde til ubehag. Dersom resultatene medfører riktighet, kan samspill basert på uformelle tilnærminger være svært gunstig for flere i utvalget. En uformell samspillsfokusering innebærer blant annet mer bruk av fleip og spøk der fokuset rettes bort fra utførelsen.

Selv om funnene i studien antyder at barn og unge med FXS kan være overømfintlige for sensoriske stimuli, kommer det ikke frem hvordan ømfintligheten uttrykkes. Ifølge Baranek et al., (2008) viste barn med FXS i skolealder en tendens til å være oversensitive, og reagere mer på sensoriske stimuli enn andre barn. Samtidig kan ømfintlighet for sansestimuli innebære både oversensitivitet og undersensitivitet for sensoriske stimuli. I væremåteskjema brukes begrepet ”overømfintlige”, og det er nærliggende å anta at foreldre kan tolke dette som å vise oversensitivitet. Man kan derfor ikke utelukke at barn med FXS også kan være undersensitive for sensoriske stimuli.

6.4 Avhengighet og opptatthet av struktur

Undersøkelsen viser at det er stor variasjon i reaksjoner på strukturelle forhold knyttet til organiseringen av det fysiske og sosiale miljøet. Å være opptatt og avhengig av struktur er særpregede atferdsmønstre som ofte knyttes til mennesker med autisme (Martinsen et al., 2007c). Barn og unge med FXS i studien kan beskrives å være opptatt av å ha oversikt i omgivelsene. Dette er konsistent med funn av Moss et al. (2009). Personene med FXS i studien viser seg ofte å være opptatt av hva som skjer i løpet av dagen, hvem de skal være sammen med, og hva de skal gjøre. Sumvariabelen er et direkte uttrykk for miljømessige behov som innvirker på opplevelsen av mening og sammenheng i omgivelsene. Barn med FXS i studien beskrives som mer opptatt av struktur enn at de viser spesielt negative reaksjoner når det oppstår brudd i forventninger og strukturelle betingelser i hverdagen. Dette kan tyde på at barna med FXS har spesielt stor nytte av gode strukturelle betingelser i hverdagen.

Selv om det er viktig å separere avhengighet og opptatthet av struktur, viser reliabilitetsanalysen høy grad av samsvar mellom spørsmål som omhandler begge fenomener; barn og unge med FXS som er opptatte av struktur, viser også ofte negative reaksjoner dersom rutiner og strukturer blir brutt. Dette resulterte i en samlet sumvariabel for både å være opptatt av struktur, samtidig som man har tendenser til å vise negative reaksjoner om rutinene blir brutt. Samlet skåre på sumvariabelen (SumStruktur) for personer med FXS i denne studien er høy når en sammenligner med kartlegging av andre grupper. Andresen et al. (2013) fant i sin undersøkelse hvor det ble benyttet samme verktøy og variabel, at barn med Cornelia de Langes Syndrom (CdLs) viste større tendenser til Strukturavhengighet/opptatthet enn barn med ASF på samme utviklingsnivå. Barna med CdLs skåret gjennomsnittlig 2.98 og

barna med ASF skåret 2.17 på SumStruktur. Denne studien, med gjennomsnitt for hele gruppa på 3.43, gir støtte til beskrivelsen om at barn og unge med FXS gjennomgående er både svært opptatt og avhengig av de strukturelle forholdene i omgivelsene - også i forhold til barn med autisme og barn med Cornelia de Langes syndrom.

Behovet for struktur hos mennesker med FXS har i litteraturen blitt beskrevet gjennom tvangsmessig og repeterende atferd (Moss et al., 2009). Her viste barn med FXS høy forekomst av blant annet behov for at ting i omgivelsene hadde sin faste plass (insistence on sameness). Resultater fra oppgavens studie viser sterk samvariasjon mellom behov og opptatthet av struktur, og tvangsmessige handlinger for både gutter og jenter. Dette kan tolkes som at barn og unge med FXS kan være svært opptatt av at ting skal foregå på spesielle steder, gjerne med spesielle mennesker, og at objekter bør ha faste plasser eller brukes på bestemte måter. Tvangsmessige handlinger kan være en rømningsvei til kjente og trygge handlingsformer, spesielt når personen gjør ting man ikke har gjort før. Dermed kan også dette være et uttrykk for at tvangsmessige handlinger kan være et redskap for å gi oversikt og mening til omgivelsene. Det er viktig å presisere at tvangsmessige handlinger likevel ikke er spesielt fremtredende trekk i FXS gruppa, verken for jenter eller gutter.

Motivasjon og interesser er faktorer som helt klart er vesentlige for barns initiativ og engasjement i aktiviteter og sosialt samspill. I studien er det stor variasjon i om målpersonene beskrives som motiverte og interesserte, og spørsmål knyttet til motivasjon og interesser viser ulike grader av samvariasjon med behov for og opptatthet av struktur. Jenter som beskrives å ha få og snevre interesser har ofte større behov for gode strukturelle betingelser. Resultatene viser ingen slik sammenheng for guttene med FXS. Det er tendenser til at jentene oftere har få og snevre interesser, men forskjellen mellom gutter og jenter er ikke signifikant. For samspillspartnere kan slike snevre interesser virke ensidig og det er lett å tenke at dette forstyrrer barnet fra et rikt interessefelt. Samtidig kan fordyping i spesielle interesser være et middel for å skape sammenheng og forutsigbarhet i sin tilværelse (Nærland, 2013). Guttene med FXS i studien viser sterk negativ samvariasjon mellom behov for struktur og spørsmål knyttet til motivasjon for aktiviteter. Funnene kan indikere at guttene blir lettere å få med på ting, er lettere å motivere, samt å få med på uventede aktiviteter som er nye, eller aktiviteter som bryter med tidligere planer når strukturelle betingelser gir trygghet og oversikt.

Med bakgrunn i forrige avsnitt gir funn i studien ikke entydige mønstre i væremåte knyttet til strukturelle betingelser på tvers av kjønn. Det er grunn til å tro at motivasjon er avhengig av at det er gode strukturelle betingelser tilstede for guttene i studien. Beskrivelser av væremåte hos jentene i studien tyder på at å ha få interesser kan gi opplevelser hos den enkelte av en mer forutsigbar og trygg tilværelse.

Beskrivelsene overfor kan bidra til å skape et pedantisk bilde av mennesker med FXS, som rigide og med sterke strukturelle behov. Likevel er det viktig å presisere at å ha oversikt over omgivelsene og hva som skal skje fremstår som en grunnleggende forutsetning for en meningsfull tilværelse for de fleste mennesker. Selv om strukturavhengighet/ opptatthet former et væremåtemønster som kan være typisk for gruppa, kan det være knyttet til fysiologiske tilstander, for eksempel varhet for sanseintrykk.

6.5 Pedagogiske implikasjoner av studien

Resultatene fra undersøkelsen viser at barn og unge med FXS er en svært heterogen gruppe, og forskjellene innad i gruppa fordrer individuell kartlegging slik at en kan møte den enkeltes forutsetninger og behov. En individuell kartlegging må ikke ta fokuset bort fra miljøet, og hvordan miljømessige hensyn kan virke positivt inn på barnas væremåte i sosial samhandling, men heller være et nyttig redskap som kan bidra til bedre utviklingsmessige betingelser hos barnet eller ungdommen. Studien viser en rekke funn knyttet til både væremåte og strukturelle betingelser. Det er nærliggende å anta at særtrekkene beskrevet i denne undersøkelsen er knyttet tett sammen, og fremstår som ulike karakteristiske særtrekk som er forbundet gjennom en psykologisk tilstand der de forsterker hverandre gjennom gjensidige påvirkninger.

Studiens funn indikerer at vansker kan øke med alder. Dette fremhever betydningen av at tiltak iverksettes tidlig, slik at en kan begrense vanskenes omfang senere i livet. Det kan være en fallgrube å tilskrive barnets atferd til diagnosen hvis man kun aksepterer tingenes tilstand og slår seg til ro, fremfor å iverksette tiltak basert på forebygging og hjelp. Kunnskap gjennom studier på FXS kan bidra til at foreldre, andre nære omsorgspersoner og opplæringspersonell til dels kan basere opplæring på hvilke vansker som er vanlige i gruppa. Samtidig må tiltak som presenteres videre sees supplementært til generell spesialpedagogisk virksomhet.

6.5.1 Behov for struktur og oversikt

Det mest betydningsfulle funnet i studien er knyttet til barna og de unges opptatthet og behov for struktur. Fremtredende i resultatene, er at barna med FXS viser større strukturbehov enn barn med autisme og barn med Cornelia de Langes syndrom (Andresen et al., 2013). Gode strukturelle betingelser skaper trygghet og oversikt, og gjør det mulig for barnet å være tilstede i samspill med andre. Med god oversikt kan det være lettere å komme i gang med aktiviteter på egenhånd, og der i gjennom ha mindre behov for hjelp av andre til å starte aktiviteter.

Barn med FXS beskrives ofte å ha høy grad av sansevarhet, noe denne studien til dels bekrefter. God oversikt og struktur kan bidra til at mengden sansestimuli begrenses og gjøres mer forståelig for den enkelte. Målpersonene i undersøkelsen viser størst varhet for auditive og vestibulære stimuli. Det er derfor av stor betydning at barnehager og skoler bidrar til å skape trygghet, oversikt og sammenheng for den enkelte, samt at de legger til rette for utforsking og utprøving av nye aktiviteter. Dette fordrer en individuell fokusering og kartlegging, da barna er ulike med tanke på hvilke type stimuli de liker og/eller er sensitive for.

Når en skal utarbeide rutiner og struktur i omgivelsene, er det viktig å ha et bevisst forhold til den enkeltes individualitet. Funnt i denne studien indikerer at individuelle forhold alltid må være i fokus. En må også tydeliggjøre omgivelsene for den enkelte, basert på de forutsetninger den enkelte har. På bakgrunn av studiens funn, inneholder en god struktur klare beskrivelser av:

- Hvem barnet skal være sammen med
- Hva barnet skal gjøre
- Hvor aktiviteter skal finne sted

Samtidig må en begrense mengden stimuli barnet utsettes for. Selv om barn ikke gir stor applaus for innsatsen man legger i strukturelle betingelser betyr det ikke at barn ikke setter pris på det. Da kan det heller være at en god struktur er såpass innarbeidet, at det er en naturlig og viktig del av hverdagen.

Tidligere beskrivelser av kognitive styrker hos mennesker med FXS gir et bilde av at de ofte er bedre til oppgaver med en holistisk, gestaltisk form, fremfor sekvensielle oppgaver (Cornish et al., 2004). Dette kan tyde på at barn og unge med FXS har behov for oversiktlige og helhetlige oppgaver for å bevare konsentrasjonen.

Økt fokus på kjente og motiverende oppgaver kan ta bort fokuset fra ubehagelige sanseopplevelser. På den måten kan aktiviteten ”sluke” oppmerksomheten, og en fokuserer seg dypt om en ting uten å bli distraheret unødvendig. Dersom man viser varhet for sansestimuli kan en ”plan b” være hensiktsmessig for å redusere grad av angst (Nærland, 2013). Dette kan innebære muligheten for å forlate et klasserom når en ønsker, eller stoppe bilen når humpete veier blir for ubehagelige. Dermed kan opplevelse av kontroll gi barnet mindre kroppslig aktivering gjennom sanseintrykk.

I praksis kan man se mange forsøk på å begrense mengden stimuli på egenhånd. Dette kan være å insistere på å bære sydvest på solskinnsdager, eller tre capsen lenger ned i pannen enn typisk vanlig. Slik væremåte kan være indikasjoner på sanseømfintlighet. Det finnes få verktøy som kan kartlegge sensorisk ømfintlighet. Kartlegging handler primært om å gjøre seg kjent med hvordan personen bruker sitt sanseapparat og på hvilken måte sanseintrykk påvirker personens væremåte og fungering i enkelte situasjoner. I mange tilfeller vil det være naturlig at en slik type kartlegging ikke bare formelt gjennomføres av fagpersoner, men at foreldre, andre omsorgspersoner og opplæringspersonell selv utforsker om sansebesvær kan være en medvirkende årsak til at omgivelsene kan oppleves som vanskelige.

I tilrettelegging av sensoriske inntrykk kan man forsøke å ta bort kildene som personen med FXS finner forstyrrende. Et grunnleggende aspekt ved slik tilrettelegging er at man sprer informasjon om sansevarheten. I denne studien er det auditive og vestibulære stimuli som målpersonene var mest ømfintlige for. Dersom barnet er ømfintlig for høye lyder, er det gunstig at flest mulig på skolen er kjent med dette. På den måten kan menneskene rundt begrense forekomsten av ubehagelige opplevelser i løpet av dagen (Nærland, 2013). Redusering av sensoriske inntrykk kan gjøre barnet mer tilgjengelig for samspill, og gi bedre betingelser for å lære og utvikle seg sammen med andre. Selv om slik informasjon kan bidra til at samlet forekomst av inntrykk går ned, vil det alltid være inntrykk som kan være ubehagelige for den enkelte. Da kan det være naturlig å se muligheter for ulike hjelpemidler i

hverdagen. For auditive inntrykk, kan tilgjengelige ørepropper være en enkel og lite stigmatiserende form for inntrykksreducerende virkemiddel som man kan ha med seg overalt.

Dagsformsvingninger

Forekomst en av betydelige dagsformsvingninger viser at barn og unge med FXS kan ha stor nytte av alternative dagsplaner. Innen forskning på autismefeltet har problemer med dagsformsvingninger ført til økt bevissthet om behovet for alternative dagsplaner der man har en plan A for ordinære gode dager, og en plan B for de utfordrende dagene (Martinsen et al., 2007b). I forhold til alternative dagsplaner er det av stor betydning å kunne forutse når en dårlig dag vil komme. Da kan man lettere å forebygge problemene, samtidig som man kan gripe om de gode dagene til meningsfulle aktiviteter. Gode dager kan gi nye opplevelser, utfordringer, og gode læringsbetingelser. Vanskeligere dager kan gi økt behov for hvile og trygghet, der fokuset kan ligge på enkle mestringsopplevelser i trygge og oversiktlige rammer. Medisinske og kroppslige plager kan også være en kilde til store variasjoner i dagsform. For studiens målpersoner kan voksesmerter og menstruasjonssmerter hos jentene være typiske kilder til dagsformsvingninger i ungdomsalderen. Dette er ubehag som med enkle grep ofte kan gjøres noe med. Med bakgrunn i betraktningene overfor er det svært viktig at nære omsorgspersoner og personale samarbeider tett og deler erfaringer med hverandre. At det samtidig utarbeides dagsplaner for gode og utfordrende dager som brukes av alle instanser vil være av stor betydning slik at hver enkelt kan oppleve gode og meningsfulle dager.

6.5.2 Tiltak basert på ASF forskning

Unyanserte oppfatninger av diagnoser kan føre til at det legges for stor vekt på beskrevne særtrekk og diagnostiske kjennetegn. Det er viktig å sette fokus på individuelle forskjeller hos mennesker med FXS, noe som denne studien i stor grad viser. Det er i første rekke foreldre og nære omsorgspersoner som er i daglig kontakt med den enkelte og som ser hver enkelt sin individualitet. Jo fjernere en er fra personen, jo vanskeligere er det å ha øye for de enkelte forskjellene. Diagnoser påviser kun at mennesker deler særtrekk og kjennetegn. Samtidig er man forskjellige i samme grad som andre mennesker.

Utover tiltak basert på struktur og oversikt, er det naturlig å tenke at barn med FXS kan profitere på tiltak vanligvis basert på mennesker med autisme. Det er likevel viktig å være

oppmerksom på at selv om vansker kan utarte seg likt ved FXS og ASF, kan mennesker med FXS ha helt andre behov i opplæringen enn mennesker med autisme. Fokusrelaterte utførelsesvansker, som er diskutert tidligere i oppgaven, er et område som understreker betydningen av at tiltak ikke kan ta utgangspunkt i en diagnose alene.

Autismelignende vansker virker mer knyttet til stereotyp atferd og snevre interesser, enn vansker i sosial samhandling. Kunnskapen om autistiske trekk i FXS gruppa bør bidra til at lærere og nære omsorgspersoner kan implementere strategier og tiltak rettet mot stereotyp og repeterende atferd, samtidig som de fokuserer på sosialt akseptable interaksjonsmåter og responser.

6.6 Avsluttende kommentar

Litterære beskrivelser av FXS diagnosen angir store forskjeller i fungering mellom gutter og jenter med FXS. Funn i studien viser derimot små forskjeller, og jenter viser ikke mindre grad av væremåtemessige vansker enn guttene. Grad av utviklingshemning er også relativt lik basert på kjønn. Med referanse til tidligere beskrivelser av gruppa, kan dette indikere et skjevt utvalg. Likevel utgjør jenter med FXS og utviklingshemning en betydelig gruppe, og kan fortjene et større forskningsmessig fokus i fremtiden, da resultatene indikerer en viss forskjell i væremåte mellom gutter og jenter med FXS på samme utviklingsnivå.

Gjennom teksten understrekes betydningen av den voksnes rolle som nær samspillspartner og bidragsyter til et godt omsorgs- og læringsmiljø for barn og unge med FXS. For at den voksne kan bidra til dette, er det viktig å ha godt kjennskap til barnets evner og forutsetninger, samt kjennskap til diagnostiske kjennetegn. Det innebærer blant annet høy sensitivitet og tilstedeværelse med barna, likeledes at den voksne bekrefter barnas uttrykk, og forenkler og gjør erfaringer mer personlige, og at en bidrar til å skape gode arenaer for samspill og utforskning.

Funn i studien kan tyde på en sirkularitet mellom flere særtrekk, da studien viser en rekke samvariasjoner mellom særtrekk i væremåte. Særtrekkene viser spesielle reaksjonsmønstre i gruppa, og det er nærliggende å anta at disse påvirker hverandre, og er et uttrykk for at den felles biologiske tilstanden kommer til uttrykk på forskjellige måter.

Et alternativ for å bedre studiens reliabilitet, kunne være å ha retest etter en viss periode, og sammenlignet besvarelsene. Et annet alternativ kunne vært å ha flere respondenter per målperson, og for eksempel sendt ut spørreskjemaer til ansatte i barnehage og skole, i tillegg til foresatte. Med bakgrunn i de økende vanskene som beskrives i den eldste halvdel av utvalget, kunne det vært svært interessant med kvalitative intervjuer av deres nærpersoner for å undersøke om de har opplevd økende behov hos målpersonen.

Spørreundersøkelsen har vært omfattende å delta i, noe som kan forklare at omtrent 60 % av de som mottok spørreskjemaene ikke deltok i undersøkelsen. Det er ingen jenter i studien som befinner seg kognitivt i normalområdet. Dette er en andel av jenter med FXS som beskrives å utgjøre omtrent 75 %. Årsaken til frafall blant denne målgruppa kan være at mange i denne gruppa ikke har kontakt med Frambu, eller at målingsverktøyet ikke ble oppfattet som egnet av deres foresatte.

6.6.1 Videre forskning

Studien gir grunnlag for videre forskning om aldersforandringer hos mennesker med FXS. Longitudinelle studier har en tendens til å undersøke forandringer i småbarnsalderen, og konsekvenser av alderdom ved forskjellige tilstander. Denne studien viser at utviklingen i ungdomsalderen også kan ha betydelige konsekvenser for fungering i voksen alder. Både kvalitativt og kvantitativt utforskende studier med longitudinell design er av stor interesse i videre forskning på mennesker med FXS.

Jenter med FXS og betydelig nedsatt kognitiv fungering kan være en egen undergruppe i FXS populasjonen som bør utforskes nærmere. I denne studien er det kun syv jenter, men resultatene fra studien viser at jenter med FXS kan vise andre enn, og like betydelige vansker som gutter med FXS. Større fokus på disse jentene er av stor samfunnsvitenskapelig interesse, da de utgjør en betraktelig andel av jenter med FXS som har behov for spesialpedagogiske og allmenpedagogiske tiltak.

Det er også ønskelig at kontinuerlig forskning basert på væremåteskjema kan gi grunnlag for sammenligning mellom flere ulike genetiske tilstander. Det er godkjent fra etisk komite ved Rikshospitalet at resultatene fra denne studien lagres i 20 år fremover, noe som åpner for sammenligning med både andre genetiske tilstander og andre grupper med spesielle behov.

Referanser

- Allen, C. W., Silove, N., Williams, K. & Hutchins, P. (2007). Validity of the Social Communication Questionnaire in Assessing Risk of Autism in Preschool Children with Developmental Problems. *Journal of autism and developmental disorders*, 37(7), 1272-1278.
- American Psychiatric Organisation. (1994). *Diagnostic and statistical manual of mental disorders. 4th edition*. Washington: American Psychiatric Organisation.
- Andresen, M., Hoem, B. & Nærland, T. (2013). *Resistance to change and structure dependency among children with Cornelia de Lange Syndrome*. Frambu - Senter for sjeldne funksjonshemninger og Autismeenheten - Nasjonal kompetanseenhet for autisme.
- Autismeenheten, N. k. f. a. (2011). *Barn og unge med Down syndrom og autisme. Behovet for spesielle tilbud og tiltal (Bind 1)*. Oslo: Autismeenheten.
- Baranek, G. T., Roberts, J. E., David, F. J., Sideris, J., Mirrett, P., Hatton, D. & Bailey Jr, D. B. (2008). Developmental Trajectories and Correlates of Sensory Processing in Young Boys with Fragile X Syndrome. *Physical & Occupational Therapy in Pediatrics*, 28(1), 79-98.
- Bateson, G. (1979). *Mind and nature: a necessary unity*. London: Wildwood House.
- Befring, E. (2007). *Forskningsmetode. med etikk og statistikk (Bind 2)*. Valdres: Det Norske Samlaget.
- Belser, R. C. & Sudhalter, V. (2001). Conversational Characteristics of Children With Fragile X Syndrome: Repetitive Speech. *American Journal of Mental Retardation*, 106(1), 28-38.
- Berry-Kravis, E. & Knox, A. (2011). Targeted treatment for fragile X syndrome. *Journal of Developmental Disorders*, 3(10), 193-210.
- Berument, S., Rutter, M., Lord, C., Pickles, A. & Bailey, A. (1999). Autism Screening Questionnaire: Diagnostic validity. . *British Journal of Psychiatry*, 175, 444-451.
- Brock, M. & Hatton, D. (2010). Distinguishing features of autism in boys with fragile X syndrome. *J Intellect Disabil Res*, 54(10), 894-905. doi:10.1111/j.1365-2788.2010.01315.x
- Brown, T. W., Jenkins, E. C., Friedman, E., Brooks, J., Wisniewski, K., Raguthu, S. & French, J. (1982). Autism is associated with the fragile X syndrome. *Journal of autism and developmental disorders*, 12(3), 303-308.
- Bø, I. & Helle, L. (2008). *Pedagogisk ordbok. Praktisk oppslagsverk i pedagogikk, psykologi og sosiologi*. Oslo: Universitetsforlaget.

- Clifford, S., Dissanayake, C., Bui, Q. M., Huggins, R., Taylor, A. K. & Loesch, D. Z. (2007). Autism spectrum phenotype in males and females with fragile X full mutation and premutation. *J Autism Dev Disord*, 37(4), 738-747. doi:10.1007/s10803-006-0205-z
- Cohen, I. L., Vietze, P. M., Sudhalter, V., Jenkins, E. C. & Brown, T. W. (1991). Effects of Age and Communication Level on Eye Contact in FragileX Males and Non-Fragile X Autistic Males. *American journal of medical genetics*, 38, 498-502.
- Cordeiro, L., Ballinger, E. & Hagerman, R. (2011). Clinical assesment og DSM-IV anxiety disorders in fragile X syndrome: prevalence and characterization. *Journal of Developmental Disorders*, 3, 57-67.
- Cornish, K., Burack, J. A., Rahman, A., Munir, F., Russo, N. & Grant, C. (2005). Theory of mind deficits in children with fragile X syndrom. *Journal of Intellectual Disability Research*, 49(May), 372-378.
- Cornish, K., Li, L., Kogan, C. S., Jacquermont, S., Turk, J., Dalton, A., . . . Hagerman, P. J. (2008). Age-dependent cognitive changes in carriers of the fragile X syndrome. *Cortex*, 44(1), 628-636.
- Cornish, K., Sudhalter, V. & Turk, J. (2004). Attention and language in fragile X. *Mental Retardation and Developmental Disabilities Research Reviews*, 10(1), 11-16.
- Cornish, K., Turk, J. & Hagerman, R. (2008). The Fragile X Continuum: New Advances and Perspectives. *JIDR. Journal of intellectual disability research*, 52(6), 469-482.
- Corsello, C. (2005). Early Intervention in Autism. *Infants and Young Children*, 18(2), 74-85.
- De Vaus, D. A. (2002). *Surveys in social research*. London: Routledge.
- Eilertsen, D. E., Hildebrand, K., Rø Jevne, E., Kolstad, K., Kongshaug, A., Martinsen, H., . . . Tøssebro, A.-E. (2007). Prosjekt væremåte. Erfaringer med beskrivelser av individualitet og arbeidsform. *Autisme i dag*, 2(34), 3-10.
- Folkehelseinstituttet. (2013). *Årstabeller for Medisinsk fødselsregister 2011. Fødsler i Norge* (M. Ebbing, & K. Klungøy, Red.).
- Frambu. (2012). *Fragilt X syndrom*. Hentet 16.08.2012 fra <http://frambu.no/modules/diagnoser/diagnose.asp?iDiagnoseId=40>
- Gall, M. D., Gall, J. P. & Borg, W. R. (2007). *Educational Research. An Introduction*.
- Garrett, A. S., Menon, V., MacKenzie, K. & Reiss, A. L. (2004). Here's Looking at You, Kid. Neural Systems Underlying Face and Gaze Processing in Fragile X Syndrome. *Arch Gen Psychiatry*, 61(May), 281-288.

- Grandin, T. (1992). An inside view of autism. I E. Schopler, & G. B. Mesibov (Red.), *High-functioning individuals with autism* (s. 105-126). New York: Plenum.
- Green, D. (2004). Occupational therapy and sensory integrative therapy for individuals with fragile X syndrome. I D. D. Hughes (Red.), *Educating children with fragile X syndrome* (s. 115-125). London og New York: RoutledgeFalmer.
- Grøsvik, K. (2008). Diagnostisering av utviklingshemning hos barn. I J. Eknes, T. L. Bakken, J. A. Løkke, & I. Mæhle (Red.), *Utredning og diagnostisering. Utviklingshemning, psykiske lidelser og atferdsvansker* (s. 17-34). Oslo: Universitetsforlaget.
- Grøttland, H., Jacobsen, K. & Larsen, G. B. (2009). Relasjon mellom kropp, samhandling og miljø. I T. Horgen (Red.), *Muligheter. Utviklende og glade dager når eleven har multifunksjonshemning* (s. 286-308). Oslo: M-pedagogikkforeningen og Torshov kompetansesenter.
- Hagerman, R. (2000a). Medical Concerns and Treatment for Children with Fragile X Syndrome. I J. D. Weber (Red.), *Children with Fragile X Syndrome. A Parent's Guide* (s. 93-120). United States of America: Woodbine House.
- Hagerman, R. (2000b). What is Fragile X Syndrome. I J. D. Weber (Red.), *Children with Fragile X Syndrome. A Parents Guide* (s. 1-33). United States of America: Woodbine House.
- Hagerman, R. (2002a). Medical Follow-Up and Pharmacotherapy. I R. Hagerman, & P. J. Hagerman (Red.), *Fragile X syndrome. Diagnosis, Treatment and Research* (Bind 3, s. 287-338). Baltimore/ London: The John Hopkins University Press.
- Hagerman, R. (2002b). The Physical and Behavioral Phenotype. I R. Hagerman, & P. J. Hagerman (Red.), *Fragile X syndrome. Diagnosis, Treatment and Research* (Bind 3, s. 3-109). Baltimore/ London: The John Hopkins University Press.
- Hagerman, R. (2004). Physical and behavioural characteristics of fragile X syndrome. I D. Dew-Hughes (Red.), *Educating children with Fragile X syndrome* (s. 9-40). London: RoutledgeFalmer.
- Hagerman, R. (2008). The Fragile X Prevalence Paradox. *Journal of Medical Genetics*, 45(8), 498-499.
- Hagerman, R., Berry-Kravis, E., Kaufmann, W. E., Ono, M. Y., Tartaglia, N., Lachiewicz, A., . . . Tranfaglia, M. (2009). Advances in the Treatment of Fragile X Syndrome. *Official Journal of the American Academy of Pediatrics*, 10(31), 378-390.
- Hall, S. S., Lightbody, A. A., Hirt, M., Rezvani, A. & Reiss, A. L. (2010). Autism in Fragile X Syndrome: A Category Mistake? *Journal of the American Academy of Child & Adolescent Psychiatry*, 49(9), 992-998.

- Hart, S. & Schwartz, R. (2009). *Fra interaksjon til relasjon. Tilknytning hos Winnicott, Bowlby, Stern og Fonagy*. Oslo: Gyldendal Norsk Forlag.
- Hatton, D., Hooper, S. R., Bailey, D. B., Skinner, M., Sullivan, K. M. & Wheeler, A. (2002). Problem Behavior in Boys with Fragile X Syndrome. *American journal of medical genetics, 108*, 105-116.
- Hatton, D., Sideris, J., Skinner, M., Mankowski, J., Bailey Jr, D. B., Roberts, J. & Mirrett, P. (2006). Autistic behavior in children with fragile X syndrome: prevalence, stability, and the impact of FMRP. *American journal of medical genetics. Part A, 140A*(17), 1804-1813.
- Helsedirektoratet. (2012). *ICD-10: den internasjonale statistiske klassifikasjon av sykdommer og beslektede helseproblemer : systematisk del, alfabetisk indeks (forenklet)*. Oslo: Helsedirektoratet.
- Helverschou, S. B. & Steindal, K. (2011). Autisme - kjennetegn, forekomst og årsaker. I I. Mæhle, J. Eknes, & G. Houge (Red.), *Utviklingshemning. Årsaker og konsekvenser* (s. 228-237). Oslo: Universitetsforlaget.
- Hoëm, B. S. & Andresen, M. (2012). *Barn med Cornelia de Langes syndrom og deres væremåte i sosial samhandling*, Avdeling for Lærerutdanning, Høgskolen i Østfold). Østfold.
- Hogrefe. (2013). *Social Communication Questionnaire (SCQ)*. Hentet 05..04 fra <http://www.hogrefe.co.uk/social-communication-questionnaire-scq.html>
- Holden, B. (2005). *Autisme: Amandas møte med atferdsanalysen*. Oslo: Gyldendal Norsk Forlag AS.
- Johannessen, A. (2009). *Introduksjon til SPSS. Fjerde utgave*. Oslo: Abstrakt Forlag.
- Jones, E. A. & Carr, E. G. (2004). Joint Attention in People with Autism. Theory and Intervention. *Focus on autism and other developmental disabilities, 19*(1), 13-26.
- Jordan, R. & Powell, S. (1995). *Understanding and teaching children with autism*. Chichester, England: John Wiley & Sons.
- Kaland, N. (2010). "Jeg elsker lokomotiver...": En styrkebasert tilnærming til spesielle interesser hos personer med autisme og Asperger-syndrom. *Tidsskrift for norsk psykologforening*,(47), 218-223.
- Kanner, L. (1943). Autistic disturbances of affective contact. *Nervous child, 2*(3), 217-250.
- Kasari, C., Freeman, S. & Paparella, T. (2000). Early Intervention in Autism: Joint Attention and Symbolic Play. I L. M. Giddons (Red.), *International Review of Research on Mental Retardation* (Bind 23, s. 207-237). New York: Academic Press.

- Kleven, T. A. (2002a). Begrepsoperasjonalisering. I T. Lund, T. A. Kleven, T. Kvernbekk, & K.-A. Christophersen (Red.), *Innføring i forskningsmetodologi* (s. 141-184). Oslo: Unipub forlag.
- Kleven, T. A. (2002a). Hvordan er begrepene operasjonalisert. I F. Hjordemaal, T. A. Kleven, & K. Tveit (Red.), *Innføring i pedagogisk forskningsmetode. En hjelp til kritisk tolkning og vurdering* (s. 120-138). Oslo: Unipub forlag AS.
- Kleven, T. A. (2002b). Innledning. I F. Hjordemaal, T. A. Kleven, & K. Tveit (Red.), *Innføring i pedagogisk forskningsmetode. En hjelp til kritisk tolkning og vurdering*. Oslo: Unipub forlag.
- Kleven, T. A. (2002b). Statistikk. I F. Hjordemaal, T. A. Kleven, & K. Tveit (Red.), *Innføring i pedagogisk forskningsmetode. En hjelp til kritisk tolkning og vurdering*. (s. 84-119). Oslo: Unipub forlag AS.
- Kunnskapsdepartementet. (1998). *Lov av 17. juli 1998 nr. 61 om grunnskolen og den videregående opplæringa*.
- Kvale, S. & Brinkmann, S. (2009). *Det kvalitative forskningsintervju* (Bind 2). Oslo: Gyldendal akademisk.
- Lee, L.-C., David, A. B., Rusyniak, J., Landa, R. & Newschaffer, C. J. (2007). Performance of the Social Communication Questionnaire in children receiving preschool special education services. *Research in Autism Spectrum Disorders*,(1), 126-138.
- Lord, C., Rutter, M. & Lecouteur, A. (1994). Autism Diagnostic Interview Revised - a revised version of a diagnostic interview for caregivers of individuals with possible pervasive developmental disorders. *Journal of autism and developmental disorders*, 24, 659-685.
- Lubs, H. (1969). A Marker X Chromosome. *American journal of Human Genetics*, 21(3), 231-244.
- Lund, T. (2002). Metodologiske prinsipper og referanserammer. I T. Lund (Red.), *Innføring i forskningsmetodologi*. Oslo: Unipub AS.
- Martin, J. P. & Bell, J. (1943). A Pedigree of Mental Defect Showing Sex-Linkage. *Journal of Neurology & Psychiatry*, 6(3-4), 154-157.
- Martinsen, H., Eilertsen, D., Hildebrand, K. & Norberg, E. (2007a). *Væremåte hos mennesker med autisme. Manual*. Oslo: Autismeenheten.
- Martinsen, H., Eilertsen, D. E., Hildebrand, K. & Norberg, E. (2007b). Prosjekt væremåte. Svingninger i dagsform hos mennesker med autisme. *Autisme i dag*, 34(3), 3-12.
- Martinsen, H., Eilertsen, D. E., Hildebrand, K. B. & Norberg, E. (2007c). Situasjonsfaktorer hos mennesker med autisme. *Autisme i dag*, 34(2), 19-25.

- Martinsen, H., Gårder, Å. & Hildebrand, K. B. (2008). Fokusrelaterte utførelsesvansker (FRU) hos mennesker med autisme. *Autisme i dag*, 35(4), 3-10.
- Martinsen, H., Jensen, T. & Johannessen, J. (2008). Gode og dårlige dager hos en ung mann med Autisme og FRU. *Autisme i dag*, 35(4), 19-31.
- Martinsen, H., Nærland, T., Steindal, K. & Tetzchner, S. v. (2006). *Barn og unge med Asperger syndrom. Prinsipper for undervisning og tilrettelegging av skoletilbudet*. Oslo: Gyldendal Akademisk.
- Mazzocco, M. M., Bhatia, N. S. & Lesniak-Karpiak, K. (2006). Visuospatial skills and their association with math performance in girls with Fragile X syndrome or Turner Syndrome. *Child Neuropsychology*, 12, 87-110.
- Mazzocco, M. M., Kates, W. R., Baumgardner, T. L., Freund, L. S. & Reiss, A. L. (1997). Autistic behaviors among girls with fragile X syndrome. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 27, 415-435.
- Melgård, T. (2000). Utviklingshemning. I J. Eknes (Red.), *Utviklingshemning og psykisk helse* (s. 11-33). Oslo: Universitetsforlaget.
- Miller, L. J., McIntosh, D. N., McGrath, J., Shyu, J., Lampe, M. & Taylor, A. K. (1999). Electrodermal responses to sensory stimuli in individuals with fragile X syndrome: A preliminary report. *American journal of medical genetics*, 83(4), 268-279.
- Moor, D. Y. (2000). Daily Care. I J. D. Weber (Red.), *Children with fragile X syndrome. A parents guide* (s. 121-154). United States of America: Woodbine House.
- Moss, J. & Howlin, P. (2009). Autism spectrum disorders in genetic syndroms: implications for diagnosis, intervention and understanding the wider autism spectrum disorder population. *Journal of Intellectual Disability Research*, (53), 852-873.
- Moss, J., Oliver, C., Arron, K., Burbidge, C. & Berg, K. (2009). The Prevalence and Phenomenology of repetitive Behavior in Genetic Syndromes. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 39, 572-588.
- Mæhle, I. & Houge, G. (2011). Fragilt X-syndrom. I I. Mæhle, J. Eknes, & G. Houge (Red.), *Utviklingshemning. Årsak og konsekvenser* (s. 136-143). Oslo: Universitetsforlaget AS.
- Nader, R., Oberlander, M. D., Chambers, C. T. & Craig, K. D. (2004). Expression of Pain in Children With Autism. *Clinical Journal of Pain*, 2(20), 88-97.

- NESH. (2006). Forskningsetiske retningslinjer for samfunnsvitenskap, humaniora, juss og teologi. Hentet Oktober 20, 2012, fra Etikkom
<http://www.etikkom.no/retningslinjer/NESHretningslinjer/06>
- Norsk Forbund for Utviklingshemmede. (2010). *Elever med nedsatt funksjonsevne. Fokus på overganger mellom ulike skoleslag*. Oslo: Norsk Forbund for Utviklingshemmede i samarbeid med Sørlandet kompetansesenter.
- Nærland, T. (2013). Hypersensitivitet og sanseavvik (Utkast). I H. Martinsen, T. Nærland, S. Storvik, A. Kleven, & Olsen (Red.), *Pedagogiske utfordringer i arbeid med mennesker med autismespekterforstyrrelser*. Oslo: Gyldendal akademisk.
- Oslo Universitetssykehus. (2012). *Identifisering, diagnostisering og oppfølging/behandling av førskolebarn med autismespekterforstyrrelser (ASF). En undersøkelse av systemer, rutiner og praksis i Helse Sør-Øst*. Oslo: Regionalt fagmiljø for autisme, ADHD, Tourettes syndrom og narkolepsi - Helse Sør-Øst.
- Pallesen, B. (2013). *Fokusrelaterte utførelsesvansker hos barn og unge med fragilt X syndrom*. Universitetet i Oslo. Oslo.
- Powell, L. (2004). Emotional and social difficulties of women with fragile X syndrome. I D. Dew-Hughes (Red.), *Educating children with fragile C syndrome* (s. 177-180). London: Routledge Falmer.
- Rogers, S. J., Hepburn, S. & Wehner, E. (2003). Parent Reports of Sensory Symptoms in Toddlers with Autism and Those with Other Developmental Disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 33(6), 631-642.
- Rogers, S. J. & Ozonoff, S. (2005). Annotation: what do we know about sensory dysfunction in autism? A critical review of the empirical evidence. *J Child Psychol Psychiatry*, 46(12), 1255-1268.
- Rognhaug, B. & Gonnæs, U. T. (2008). Utviklingshemning. Mangfold og lærehemning. I E. Befring, & R. Tangen (Red.), *Spesialpedagogikk* (s. 299-322). Oslo: Cappelen akademisk forlag.
- Rutter, M., Baily, A., Berument, S., Lord, C. & Pickles, A. (2010). *Social Communication Questionnaire*. Fredriksberg, Danmark: Hogrefe Psykologisk Forlag.
- Rye, H. (2002). *Tidlig hjelp til bedre samspill*. Oslo: Gyldendal akademisk.
- Rygvold, A. E. (2008). Språkvansker hos barn. I E. Befring, & R. Tangen (Red.), *Spesialpedagogikk* (s. 229-247). Oslo: Cappelen akademisk forlag.
- Smith, L. (2002). Felles oppmerksomhet i småbarnsalderen og senere språkferdigheter. *Nordisk tidsskrift for spesialpedagogikk*, 3(2), 86-92.
- Smith, L. & Ulvund, S. E. (1999). *Spedbarnsalderen*. Oslo: Universitetsforlaget.

- SSB. (2011). *Folkemengd etter alder, kjønn, sivilstand og statsborgarskap, 1. januar 2011*. Hentet fra <https://http://www.ssb.no/befolkning/statistikker/folkemengde/aar/2011-03-11>
- Statens Helsetilsyn. (1999). *ICD-10: psykiske lidelser og atferdsforstyrrelser : kliniske beskrivelser og diagnostiske retningslinjer*. Oslo: Universitetsforl.
- Storvik, S., Martinsen, H., Nærland, T. & Wigaard, O. (2011). *Barn og unge med Down syndrom og autisme: behovet for spesielle tilbud og tiltak* (Bind nr. 1, 2011). Oslo: Autisemeenheten.
- Tetzchner, S. v. (2001). *Utviklingspsykologi. Barne og ungdomsalderen*. Oslo: Gyldendal Norsk Forlag as.
- Thurmann-Moe, A. C. (1996). Den historiske dimensjonen av Vygotskys teori. I I. Bråten (Red.), *Vygotsky i pedagogikken* (s. 144-159). Oslo: Cappelen Akademisk Forlag.
- Tomasello, M. (1995). Joint attention and social cognition. I C. Moore, & P. J. Dunham (Red.), *Joint attention. Its origin and role in development*. Hillsdale, New Jersey: Lawrence Erlbaum Associates, inc.
- Turk, J. & Cornish, K. (1998). Face recognition and emotion perception in boys with fragile X syndrome. *Journal of Intellectual Disability Research*, 42(6), 490-499.
- Vedeler, L. (2009). *Observasjonsforskning i pedagogikken, En innføring i bruk av metoder*. Oslo: Gyldendal akademisk.
- Vildalen, S. (2011). Utviklingshemmedes seksualitet. I J. Eknes (Red.), *Utviklingshemning og psykisk helse*. Oslo: Universitetsforlaget.
- Williams, D. (1994). *Somebody Somewhere*. New York: Doubleday.
- Woolfolk, A. (2004). *Pedagogisk psykologi*. Trondheim: Tapir akademisk forlag.

Vedlegg 1 Informasjonsskriv

FXS og væremåte

Forespørsel om deltakelse i forskningsprosjektet

*”Personer med Fragilt X syndrom i skolealder
- med fokus på autismespektervansker og væremåtemessige særtrekk”*

Bakgrunn og hensikt

Dette er et spørsmål til deg om å delta i en forskningsstudie om væremåte hos personer med Fragilt X syndrom (FXS). Prosjektet har fokus på barn og unge med FXS fra 5 til 21 år. Studien har som mål å generere kunnskap om variasjonen av særtrekk hos mennesker med FXS og se om dette kan ha innvirkning på tilrettelegging i skolen. Flere personer med Fragilt X syndrom beskrives å ha autismelignende trekk, og noen får tilleggsdiagnosen autisme eller andre diagnoser innenfor autismespekteret (ASD). Den overordnede målsetting er å styrke fag- og omsorgspersoners kunnskap og forståelse for personer med FXS og på den måten gi best mulig forutsetning for individuelt tilpassede tilrettelegging.

Forskningsprosjektet er en del av et samarbeidsprosjekt mellom Frambu senter for sjeldne funksjonshemninger og Nasjonal kompetanseenhet for autisme. Dette samarbeidet søker å belyse hvordan væremåtemessige særtrekk (herunder autismespektervansker) varierer mellom personer med ulike genetiske syndrom. Analysene består av beskrivelse av særtrekk i en aktuell genetisk syndromgruppe samt sammenligninger på tvers av ulike syndromgrupper.

Forespørsel om deltakelse i prosjektet går ut til foresatte til personer mellom 5 og 21 år med Fragilt X syndrom som er registrert hos Frambu- senter for sjeldne funksjonshemninger. Foreningen for Fragilt X-syndrom i Norge vil også gi informasjon om studien gjennom sine nettsider og via nyhetsbrev. Det er mulig å melde seg på prosjektet direkte uten å være registrert hos Frambu.

Hva innebærer prosjektet?

I prosjektet er det ønskelig med informasjon fra foresatte til personer med Fragilt X syndrom. Om dere velger å delta i prosjektet ber vi om at dere fyller ut samtykkeskjemaene, samt svarer på spørreskjema ”Væremåte”, ”Livsløp Vurdering” og ”Diagnosespesifikt spørreskjema” som ligger vedlagt. Deretter returnerer dere skjemaene i vedlagte frankerte konvolutt. Prosjektet er basert på frivillig deltakelse. Dersom du ikke ønsker å delta i prosjektet påvirker ikke det ditt tilbud fra Frambu, foreningen eller tjenesteapparatet for øvrig. Alle som fyller ut skjemaet ”Væremåte” vil få en profil tilbake som gir anbefalinger om tiltak basert på informasjonen dere har gitt gjennom spørreskjemaet.

Mulige fordeler og ulemper

Det kan ta noe tid å fylle ut skjemaene og noen kan oppleve enkelte spørsmål som lite relevante for sitt barn. Det tar omtrent 1,5 time å fylle ut skjemaene. Fragilt X syndrom er sjeldent og relativt lite kjent i deler av skolesektoren, det lokalt hjelpeapparatet og spesialisthelsetjenesten. Deltakelse i prosjektet kan bidra til økt kompetanse og forståelse for gruppen, som igjen kan styrke muligheten for at personer med Fragilt X syndrom får bedre hjelp og støtte i opplæringen.

Hva skjer med og informasjonen som samles inn?

Informasjonen som registreres om deg skal kun brukes slik som beskrevet i hensikten med prosjektet. Alle opplysningene og prøvene vil bli behandlet uten navn og fødselsnummer eller andre direkte gjenkjennerende opplysninger. En kode knytter deg til dine opplysninger gjennom en navneliste. Det er kun autorisert personell knyttet til prosjektet som har adgang til navnelisten og som kan finne tilbake

FXS og væremåte

til deg. Det vil ikke være mulig å identifisere deg, eller barnet/ungdommen i resultatene av prosjektet når disse publiseres.

I samarbeidsprosjektet mellom Frambu og autismeenheten lagres informasjonen i anonymisert form i 20 år. Dette for å ha anledning til å sammenligne ulike smågrupper i årene som kommer

Resultatene fra denne studien vil bli brukt til å gi anbefalinger om tiltak for FXS gruppen. I tillegg vil resultatene bli formidlet gjennom to masteroppgaver i spesialpedagogikk ved Universitetet i Oslo. Disse gjennomføres av Simen Aabøe og Børge Pallesen. Begge studerer på linje for pedagogisk-psykologisk rådgivning ved institutt for spesialpedagogikk. Annen vitenskapelig publisering vil bli gjennomført.

Vi gjør oppmerksom på at samtykkeerklæringen er todelt. En for deltakelse i det aktuelle prosjektet og en for tillatelse til lagring av væremåteinformasjon i databasen til "Prosjekt Væremåte". "Prosjekt væremåte" følger samme retningslinjer i forhold til sikring av personlige opplysninger som beskrevet tidligere. Det er fullt mulig å delta i prosjektet selv om man ikke ønsker at dataene skal lagres i databasen til "Prosjekt Væremåte". Dere kan når som helst be om å få slettet opplysningene som er registrert i databasen. Se ytterligere informasjon om dette på samtykkeskjemaet.

Frivillig deltakelse

Det er frivillig å delta i prosjektet. Du kan når som helst, og uten å oppgi noen grunn, trekke ditt samtykke til å delta i prosjektet. Dette vil ikke få konsekvenser for din videre behandling. Dersom du ønsker å delta, undertegner du samtykkeerklæringen på siste side. Om du nå sier ja til å delta, kan du senere trekke tilbake ditt samtykke uten at det påvirker din øvrige behandling. Dersom du senere ønsker å trekke deg eller har spørsmål til prosjektet, kan du kontakte oss på kontaktinformasjon nederst på siden.

Informasjon om utfallet av prosjektet

Resultatene fra studien vil bli publisert i en eller to masteroppgaver, samt publiseringer i vitenskapelige tidsskrifter. Masteroppgaven(e) vil være tilgjengelig gjennom Universitetet i Oslo. Resultatene vil også kunne bli publisert og benyttet i Frambu og Nasjonal kompetanseenhet for autisme sitt dokumentasjons- og informasjonsarbeid, samt informasjonsmaterieell fra Foreningen for Fragilt X syndrom.

Resultatene som fremkommer vil også bli benyttet til sammenligninger med andre grupper. Resultatene fra prosjektet kan bidra til økt kunnskap om andre genetiske tilstander, gjennom sammenligning av flere grupper.

Spørsmål om prosjektet kan rettes til:

Studentene:

Simen Aabøe

Telefon 41 93 48 66

E-post simenaab@student.uv.uio.no

Børge Pallesen

Telefon 92 64 92 66

E-post borgepa@student.uv.uio.no

eller

Prosjektleder:

Terje Nærland; Psykolog/PhD – Forsker ved Nasjonal kompetanseenhet for autisme

Telefon 22067942

E-post terje.naerland@rikshospitalet.no

Vedlegg 2 Samtykkeerklæringer

FXS og væremåte

Samtykkeerklæring til deltakelse i prosjektet:

Personer med Fragilt X syndrom i skolealder - med fokus på autismespektervansker og væremåtemessige særtrekk

Vennligst les informasjonsskrivet om prosjektet: *Personer med Fragilt X syndrom i skolealder - med fokus på autismespektervansker og væremåtemessige særtrekk*.

Barnets navn:

Barnets fødselsdato:

.....

Jeg/ vi samtykker i at informasjon om vårt barn/ungdom fra vedlagte spørreskjemaer kan brukes i prosjektet: ”Personer med Fragilt X syndrom i skolealder - med fokus på autismespektervansker og væremåtemessige særtrekk”. Dataene vil i anonymisert form bli lagret i 20 år og brukt til analyser av ulike genetiske grupper

Jeg/vi samtykker til at informasjonen vi gir gjennom skjema ”Væremåte” lagres i databasen til ”Prosjekt Væremåte” for senere bruk.
Det er fullt mulig å delta prosjektet ”Personer med Fragilt X syndrom i skolealder - med fokus på autismespektervansker og væremåtemessige særtrekk” selv om man ikke ønsker at dataene skal lagres i databasen til ”Prosjekt Væremåte”.

.....
Sted

Dato

Underskrift foresatte

FXS og væremåte

Samtykkeerklæring til deltakelse i prosjektet:

***Personer med Fragilt X syndrom i skolealder
- med fokus på autismespektervansker og væremåtemessige særtrekk***

Vennligst les informasjonsskrivet om prosjektet: *Personer med Fragilt X syndrom i skolealder - med fokus på autismespektervansker og væremåtemessige særtrekk*.

Barnets navn:

Barnets fødselsdato:

.....

- Jeg/ vi samtykker i at informasjon om vårt barn/ungdom fra vedlagte spørreskjemaer kan brukes i prosjektet: ”Personer med Fragilt X syndrom i skolealder - med fokus på autismespektervansker og væremåtemessige særtrekk”. Dataene vil i anonymisert form bli lagret i 20 år og brukt til analyser av ulike genetiske grupper
- Jeg/vi samtykker til at informasjonen vi gir gjennom skjema ”Væremåte” lagres i databasen til ”Prosjekt Væremåte” for senere bruk.
Det er fullt mulig å delta prosjektet ”Personer med Fragilt X syndrom i skolealder - med fokus på autismespektervansker og væremåtemessige særtrekk” selv om man ikke ønsker at dataene skal lagres i databasen til ”Prosjekt Væremåte”.

.....
Sted

Dato

Underskrift foresatte

Om ungdommen er mellom 16 og 18 år skal det gis mulighet til selv å samtykke på deltakelse:

.....
Sted

Dato

Underskrift

FXS og væremåte

Samtykkeerklæring til deltakelse i prosjektet:

***Personer med Fragilt X syndrom i skolealder
- med fokus på autismespektervansker og væremåtemessige særtrekk***

Vennligst les informasjonsskrivet om prosjektet: *Personer med Fragilt X syndrom i skolealder - med fokus på autismespektervansker og væremåtemessige særtrekk*.

Personens navn:

Personens fødselsdato:

.....

Jeg/ vi samtykker i at informasjon fra vedlagte spørreskjemaer kan brukes i prosjektet: *Personer med Fragilt X syndrom i skolealder - med fokus på autismespektervansker og væremåtemessige særtrekk*. Dataene vil i anonymisert form bli lagret i 20 år og brukt til analyser av ulike genetiske grupper

Jeg/vi samtykker til at informasjonen vi gir gjennom skjema "Væremåte" lagres i databasen til "Prosjekt Væremåte" for senere bruk. Det er fullt mulig å delta prosjektet *Personer med Fragilt X syndrom i skolealder - med fokus på autismespektervansker og væremåtemessige særtrekk* selv om man ikke ønsker at dataene skal lagres i databasen til "Prosjekt Væremåte".

.....
Sted

Dato

Underskrift

Foresattes/verges samtykke til deltagelse, dersom det er mangelfull forutsetning for informert samtykke hos deltager:

.....
Sted

Dato

Foresattes/verges underskrift

Vedlegg 3 Svarbrev REK



Region: REK sør-øst	Saksbehandler: Hege Holde Andersson	Telefon: 22845514	Vår dato: 03.10.2012	Vår referanse: 2012/1406 REK sør-øst B
			Deres dato: 21.08.2012	Deres referanse:

Vår referanse må oppgis ved alle henvendelser

Terje Nærland
Oslo universitetssykehus HF

2012/1406 B Personer med Fragilt X syndrom i skolealder

Vi viser til søknad om forhåndsgodkjenning av ovennevnte forskningsprosjekt. Søknaden ble behandlet av Regional komité for medisinsk og helsefaglig forskningsetikk i møtet 12.09.2012.

Forskningsansvarlig: Oslo universitetssykehus HF
Prosjektleder: Terje Nærland

Prosjektomtale (revidert av REK):

Formålet med prosjektet er å generere kunnskap om væremåte hos personer med Fragilt X syndrom. Prosjektet skal kartlegge omgjengelighet, reaktivitet, interesser, aktivitetsnivå, stereotyp aktivitet, sansestimulering, utfordrende atferd, oppmerksomhet, sosialitet og behov for struktur. Det søkes å samle kunnskap om typisk væremåte hos personer med FXS i ulike alderstrinn samt variasjoner i gruppen. Fokuset vil være på særtrekk som kan være relevante for tiltak i utdanningssammenheng. Studien er samtykkebasert.

Komiteens vurdering

Komiteen kommet til at prosjektet ikke er fremleggingspliktig for REK.

Komiteen oppfatter det slik at hovedformålet med prosjektet er å samle kunnskap om typisk væremåte hos personer med FXS i ulike alderstrinn, og at fokuset vil være på særtrekk som kan være relevant for tiltak i utdanningssammenheng. Komiteen finner derfor at prosjektet har et formål som gjør det den faller utenfor helseforskningslovens virkeområde som er å fremskaffe ny kunnskap om helse og sykdom.

For å gjennomføre prosjekter av denne typen trengs det ingen særskilt godkjenning fra REK. Det er institusjonens ansvar å sørge for på vanlig måte at tiltaket følger gjeldende reguleringer for behandling av helseopplysninger.

Ettersom prosjektet forutsettes gjennomført i samsvar med gjeldende reguleringer vil det ikke være noe til hinder for at resultatene kan publiseres. Hvis det er behov for dokumentasjon fra REK vil dette brevet bekrefte at prosjektet ikke er fremleggelsespliktig.

Vedtak

Prosjektet faller utenfor komiteens mandat, jf. helseforskningsloven § 2. Prosjektet kan gjennomføres uten godkjenning av REK.

Komiteens vedtak kan påklages til Den nasjonale forskningsetiske komité for medisin og helsefag, jf. helseforskningsloven § 10, 3 ledd og forvaltningsloven § 28. En eventuell klage sendes til REK sør-øst B. Klagefristen er tre uker fra mottak av dette brevet, jf. forvaltningsloven § 29.

Besøksadresse:
Nydalen allé 37 B, 0484
Oslo

Telefon: 22845511
E-post: post@helseforskning.etikkom.no
Web: <http://helseforskning.etikkom.no/>

All post og e-post som inngår i saksbehandlingen, bes adressert til REK sør-øst og ikke til enkelte personer

Kindly address all mail and e-mails to the Regional Ethics Committee, REK sør-øst, not to individual staff

Komiteens avgjørelse var enstemmig.

Vi ber om at alle henvendelser sendes inn via vår saksportal: <http://helseforskning.etikkom.no> eller på e-post til: post@helseforskning.etikkom.no.

Vennligst oppgi vårt referansenummer i korrespondansen.

Med vennlig hilsen

Grete Dyb
dr. med.
nestleder

Hege Holde Andersson
Komitésekretær

Kopi til: Terje Nærland; Terje Rootwelt; OUS ved øverste administrative ledelse

Vedlegg 4 Svarbrev personvernombud OUS



Oslo universitetssykehus HF

Postadresse:
Trondheimsveien 235
0514 Oslo

Sentralbord:
02770

Org.nr:
NO 993 467 049 MVA

www.oslo-universitetssykehus.no

PERSONVERNOMBUDETS TILRÅDING

Til: Terje Nærland, prosjektleder, Kvinne- og barn
klinikken

Kopi:

Fra: Personvernombudet ved Oslo universitetssykehus

Saksbehandler: Anette Engum, personvernrådgiver

Dato: 21.02.13

Offentlighet: Ikke unntatt offentlighet

Sak: Personvernombudets tilråding til innsamling og
databehandling av personopplysninger

Saksnummer/
ePortenummer: 2012/15236

Personvernombudets tilråding til innsamling og behandling av personopplysninger for prosjektet ”Personer med fragilt X syndrom i skolealder”

Viser til innsendt melding om behandling av personopplysninger / helseopplysninger. Det følgende er personvernombudets tilråding av prosjektet.

Med hjemmel i Personopplysningsforskriftens § 7-12 jf. Helseregisterlovens § 36 har Datatilsynet, ved oppnevning av personvernombud ved Oslo Universitetssykehus (OUS), fritatt sykehuset fra meldeplikten til Datatilsynet. Behandling og utlevering av person-/helseopplysninger meldes derfor til sykehusets personvernombud.

Databehandlingen tilfredsstillende forutsetningene for melding gitt i personopplysningsforskriften § 7-27 og er derfor unntatt konsesjon.

Personvernombudet tilrår at prosjektet gjennomføres under forutsetning av følgende:

1. Databehandlingsansvarlig er Oslo universitetssykehus HF ved adm. dir.
2. Behandling av personopplysningene / helseopplysninger i prosjektet skjer i samsvar med og innenfor det formål som er oppgitt i meldingen.
3. Data lagres som oppgitt i den innsendte meldingen. Annen lagringsform forutsetter gjennomføring av en risikovurdering som må godkjennes av Personvernombudet.
4. Tidligere innsendte informasjonsskriv/samtykke benyttes, inklusive markerte tillegg og endringer foretatt av personvernombudet. Eventuelle fremtidige endringer som berører formålet, utvalget inkluderte eller databehandlingen må forevises personvernombudet før de tas i bruk.
5. Kryssliste som kobler avidentifiserte data med personopplysninger lagres som angitt i meldingen og oppbevares separat på prosjektleders avlåste kontor.
6. .
7. Dersom formålet eller databehandlingen endres må personvernombudet informeres om dette.

8. Kontaktperson for prosjektet skal hvert tredje år sende personvernombudet ny melding som bekrefter at databehandlingen skjer i overensstemmelse med opprinnelig formål og helseregisterlovens regler.
9. Data slettes eller anonymiseres senest 2033 ved at krysslisten slettes og eventuelle andre identifikasjonsmuligheter i databasen fjernes. Når formålet med registeret er oppfylt sendes melding om bekreftet sletting til personvernombudet.

Prosjektet er registrert i sykehusets offentlig tilgjengelig database over forsknings- og kvalitetsstudier.

Lykke til med prosjektet!

Med vennlig hilsen
for Personvernombudet

Anette Engum
personvernrådgiver

Oslo universitetssykehus HF
Stab pasientsikkerhet og kvalitet
Seksjon for personvern og informasjonssikkerhet

Epost: personvern@oslo-universitetssykehus.no
Web: www.oslo-universitetssykehus.no/personvern



Vedlegg 5 Diagnosespesifikt spørreskjema

Diagnosespesifikt spørreskjema – fylles ut av foresatte

Personer med Fragilt X Syndrom i skolealder.

1) Hvordan er diagnosen Fragilt X stilt?

Genetisk

(Ved blodprøve)

Genetisk svar (antall repetisjoner): _____

Klinisk

(Diagnosen er satt av lege uten at det er gjennomført en gentest. Legen har satt diagnosen på grunnlag av symptomer og utseende)

2) Hvilken grad av utviklingshemming har barnet/ ungdommen med FXS?

(Se evt. uttalelse fra sykehus, habiliteringstjeneste eller PPT.)

Mild grad

Moderat grad

Alvorlig grad

Dyp grad

Har ikke utviklingshemming

Ikke kjent

3) Hva har vært de største utfordringene i skolesituasjonen for ditt barn?

(Gi en kort beskrivelse, gjerne stikkord)

Barneskolen

Ungdomsskolen

Videregående

4) Hvilke tiltak i skolen mener du at har vært mest nyttig for ditt barn?

Vedlegg 6 Væremåteskjema

SKJEMA FOR "LARS"

"Prosjekt Væremåte"



Væremåteskjemaet ble laget i 1999 for å beskrive individuelle særtrekk hos barn, ungdom og voksne med vansker innen autismespekteret. I den senere tid er skjemaet også brukt i forhold til personer med andre diagnoser / utviklingshemming. I tillegg er det ønskelig at skjemaet blir fylt ut i forhold til noen personer uten utviklingshemming (kontrollgruppe).

Vi ser det som viktig å rette oppmerksomheten mot hvor forskjellige mennesker er, slik at den enkeltes personlige væremåte blir forstått og verdsatt.

Hovedhensikten med å kartlegge personer med ulike utviklingshemninger er imidlertid å lage et grunnlag for å velge egnede tiltak, metoder og teknikker, slik at arbeidsmåte og tiltaksmidler kan "skreddersys" for den enkelte.



UNIVERSITETET I OSLO
DET UTDANNINGSVITENSKAPELIGE FAKULTET

Til foreldre og foresatte

Prosjekt Væremåte

Katrine Hildebrand
Pedagogisk Institutt
NTNU
7491 TRONDHEIM

E-post: katrine.hildebrand@svt.ntnu.no

www.autismeforeningen.no/prosjekter/varemate

www.autismeforeningen.no/prosjekter/fru

Dato: 01.sept 2010

**INFORMASJON OM INNSAMLING AV PERSONOPPLYSNINGER
I FORBINDELSE MED FORSKNINGSPROSJEKT**

Prosjektets tittel: Prosjekt Væremåte

Prosjekt Væremåte er et fagutviklingsprosjekt for å bedre den individuelle tilpasningen av tilbud og tjenester for mennesker med utviklingshemming. Prosjekt Væremåte har som visjon at: "Barn, unge og voksne med utviklingshemming skal få et tilbud som er godt tilrettelagt ut fra deres individuelle særtrekk og behov".

Hovedmålet for Prosjekt Væremåte er å lage et system for å velge egnede tiltak, metoder og teknikker i arbeidet med barn og unge med utviklingshemming, slik at arbeidsmåte og tiltaksmidler skreddersys for det enkelte individ.

Prosjektets leder er Psykolog Harald Martinsen, professor ved Institutt for spesialpedagogikk, ved Universitetet i Oslo. Daglig leder er doktorgradskandidat ved NTNU, Katrine Hildebrand. Alle fagpersonene i prosjektgruppa er underlagt taushetsplikt. Forskningsprosjektet ligger inn under Institutt for spesialpedagogikk ved Universitetet i Oslo.

Resultatene av studien vil bli publisert som gruppedata, uten at den enkelte kan gjenkjennes. I løpet av prosjektperioden vil innsamlete opplysninger oppbevares i prosjektets arkiver. Dette gjøres fordi det er av samfunnsmessig interesse å eventuelt kunne følge utvalget gjennom flere år for å vurdere utvikling, pedagogiske opplegg og livskvalitet i et lengre perspektiv. Ved en eventuell oppfølgingsundersøkelse vil du motta ny informasjon og ny forespørsel om å delta. Dersom det ikke blir foretatt en oppfølgingsundersøkelse innen 2020 vil innsamlede opplysninger bli anonymisert.

Prosjektet er meldt til regional etisk komité og Personvernombudet for forskning, Norsk Samfunnsvitenskapelige Datatjeneste A/S.

Deltakelse i prosjektet er frivillig. Det er mulig å trekke seg fra prosjektet når man eventuelt måtte ønske det og få alle personopplysninger slettet.

Dersom du/dere ønsker å delta i undersøkelsen, er det fint om du/dere signerer den vedlagte samtykkeerklæringen og fyller ut skjemaet.

Katrine Hildebrand



UNIVERSITETET I OSLO
DET UTDANNINGSVITENSKAPELIGE FAKULTET

Samtykkeerklæring/ uttalelse om deltakelse

ved innsamling, registrering, lagring og bruk av personopplysninger knyttet til forskningsprosjekt

Jeg samtykker/godtar at personopplysninger om
innhentes og registreres fra:

Jeg er kjent med at deltakelse i prosjektet er frivillig, og at jeg når som helst kan trekke meg fra prosjektet og be om å få slettet opplysningene som er registrert om meg i prosjektets database.

.....
Sted Dato
Underskrift av personen selv, foreldre, foresatte, verge eller hjelpeverge.

Sendes til:
Prosjekt Væremåte
Katrine Hildebrand
Pedagogisk Institutt
NTNU
7491 TRONDHEIM



UNIVERSITETET I OSLO
DET UTDANNINGSVITENSKAPELIGE FAKULTET

Tilbakemeldingsadresse:

Det er valgfritt om tilbakemelding skal sendes på e-post eller post. Skriv inn det dere ønsker.

Vi ønsker tilbakemelding på e-post adresse:

.....

Vi ønsker tilbakemelding pr post. Adresse:

.....

.....

.....

.....

Sendes til:

Prosjekt Væremåte
Katrine Hildebrand
Pedagogisk Institutt
NTNU
7491 TRONDHEIM

±

Veileder til utfylling av Væremåteskjemaet

Dette spørreskjemaet er laget for å kartlegge personlighet og væremåte hos personer med utviklingshemming. De som fyller ut skjemaet må kjenne personen med utviklingshemming godt. Det er ønskelig at det er minimum to personer som sitter sammen og fyller ut skjemaet, slik at spørsmålene kan leses høyt og diskuteres kort før det krysses av. Skjemaet kan fylles ut av for eksempel lærere, miljøpersonale eller foreldre/foresatte. Spørreskjemaet kan også fylles ut som et strukturert intervju, eller fylles ut av personen selv.

Spørsmålene skal besvares med utgangspunkt i her og nå. Det vil si ut i fra personens væremåte i den situasjonen dere kjenner han og på nåværende tidspunkt.

Spørreskjemaet finnes i to versjoner, en som handler om "Lars" og en som handler om "Anne".

Innhold

Skjemaet er delt inn tre hoveddeler.

Del 1 omfatter generelle opplysninger og er delt inn i "Praktiske opplysninger" og "Bakgrunnsopplysninger".

Del 2 spør om "Angst", "Reaksjonstid", "Form og formsvingninger", "Omgjengelighet", "Reaktivitet", "Interesser", "Aktivitetsnivå", "Stereotyp aktivitet", "Sansestimulering", "Utfordrende atferd", "Oppmerksomhet og oppmerksomhetsretting", "Sosialitet", "Struktur" og "Utførelsesvansker".

Del 3 – "Typer" – omhandler beskrivelser av spesielle grupper og atferdsmønstre som er av betydning for behandling, opplæring og forebyggende virksomhet. Under Del 3 tar skjemaet opp temaene "Vegrere", "Vandrere", "Ghandipasifister", "Spenningsøkere" og "Personer på rømmen".

Betydelig variasjon i dagsform

Her krysses det av når personen har så betydelig variasjon i dagsform at det er nødvendig å endre tiltak og metoder i dårlige perioder. Disse endrede dagsplanene kan være skriftliggjort med dagsplan 1, dagsplan 2 osv.. Eller personalet/foresatte kan ha rutiner som for eksempel går på å senke krav, tempo og arbeidsmengde etter dagsformen. Hvis dette er tilfelle for personen det fylles ut skjema for, krysser dere av i både hvite og grå ruter på alle spørsmålene gjennom hele spørreskjemaet, selv der hvor kryssene blir like.

Hvit rute = god/normal dagsform, Grå rute = dårlig dagsform. Hvis personen ikke har betydelig variasjon i dagsform, krysses det kun i hvite ruter. Alle spørsmålene skal besvares.

Erfaring med spørsmålenes formuleringer.

Alle spørsmålene passer ikke på alle. Det er således flere spørsmål som man, fordi de ikke passer på den personen man har i fokus, skal krysse av "Passer dårlig" eller "Svært dårlig" på. Kjenner du deg igjen i situasjonen som spørsmålet beskriver, svar passer "Svært godt". Hvis du ikke kjenner deg igjen; svar passer "Svært dårlig".

Metodebok

Det er utarbeidet en metodebok for dette spørreskjema hvor nyttig informasjon om spørsmålene og temaene skjemaet omhandler er beskrevet nærmere. Ta kontakt med prosjektet for å få informasjon om hvordan man får tak i metodeboken.

Koding

Det er Prosjekt Væremåte som koder Væremåteskjemaene i de grå feltene øverst i venstre hjørne. Dette gjøres av oss enten før skjemaet sendes ut eller etter at vi har mottatt skjemaet ferdig utfyllt fra dere. For at dere skal kjenne igjen profilen når dere får denne i retur fra oss kan dere selv kode med en egen kode (tall eller ord) øverst i høyre hjørne. Dette er spesielt viktig hvis dere sender inn skjema på flere personer, slik at dere lett kan skille disse fra hverandre. Dette feltet er merket: "Utfyllers referanse" og har ingen sammenheng med prosjektets koder. Er dere usikre i forhold til koder, ta kontakt med prosjektet.

Diagnoser

Skjemaet er laget for barn, ungdom og voksne med ulike diagnoser, men også personer uten diagnoser vil være med i en kontrollgruppe. Det er viktig at personens eventuelle diagnoser og medisinske forhold blir nedskrevet.

Væremåteprofiler

Alle som fyller ut et Væremåteskjema får tilbake en Væremåteprofil fra prosjektet. Denne inneholder personens svar på de ulike temaene som er kartlagt i skjemaet. Væremåteprofilen er under stadig utbedring og vil i stadig større grad også inneholde noen kommentarer på hvilke tiltak som kan passe til de ulike væremåteprofilene i tillegg til noen resultater som er funnet gjennom Væremåteprosjektet generelt.

Informasjonsskriv, samtykkeerklæring og ønsket tilbakemeldingsadresse.

Vedlagt Væremåteskjemaet følger et informasjonsskriv om Prosjekt Væremåte, samtykkeerklæringen og et ark som skal fylles ut med ønsket tilbakemeldingsadresse for Væremåteprofilen. Husk å fylle ut samtykkeerklæring og ønsket tilbakemeldingsadresse.

Kommentarer og ris og ros til prosjektet kan skrives på siste side i spørreskjemaet.

Ved spørsmål, kontakt

Prosjekt Væremåte
Katrine Hildebrand
Pedagogisk Institutt
NTNU
7491 TRONDHEIM
TLF: 95 76 18 96
E-post: katrine.hildebrand@svt.ntnu.no



(-> fylles ut av Prosjekt Væremåte) Utfyllers referanse:

1. PRAKTISKE OPPLYSNINGER

1. Dato for utfylling: _____

2. Hvem har fylt ut: Barnehage:

Skole:

Arbeid:

Hjem:

Bolig:

Avlastning:

Ansvarsgruppemøte:

Annet - spesifiser: _____

2. BAKGRUNNSOPPLYSNINGER

3. Kjønn: Jente/kvinne: Gutt/mann:

4. Alder i år: _____

5. **Diagnoser:** (sett kryss, flere kryss mulig)

a) Autismediagnose:

Spesifiser: _____

b) Asperger syndrom:

c) Utviklingshemming:

d) Psykisk lidelse:

Spesifiser: _____

e) Epilepsi:

f) ADHD:

g) Dyspraksi:

h) Down syndrom:

i) Tourette syndrom:

j) Rett syndrom:

k) Fragilt X-syndrom:

l) Tuberøs Sclerose:

m) Annen genetisk syndrom:

Spesifiser: _____

n) Medfødt hypotyreose:

o) Ervervet hypotyreose:

p) Hypertyreose:

q) Mage/tarm problemer:

r) Bevegelsehemmet:

s) CP:

t) Hørselshemmet:

Spesifiser: _____

u) Total blindhet:

v) Blindhet, men kan se forskjell på lys og mørke:

w) Blindhet, men kan se noe ved hjelp av ekstra stor forstørring:

x) CVI, hjerneskade som medfører vansker med å tolke synsinntrykk:

y) Diffuse synsvansker:

z) Annen diagnose: _____

6. Medisinske diagnoser, kroniske sykdommer og misdannelser:

Spesifiser: _____

7. Lars kommuniserer til andre ved hjelp av:	Ja:
a) kroppsspråk / lyder / går til steder / håndledelse eller lignende	<input type="checkbox"/>
b) bilder / pictogram / objekter andre visuelle eller taktile hjelpemidler	<input type="checkbox"/>
c) skrift	<input type="checkbox"/>

8. Lars kommuniserer til andre ved hjelp av innlærte tegn og bruker:	
a) få tegn (færre enn 20)	<input type="checkbox"/>
b) mange tegn (flere enn 20)	<input type="checkbox"/>
c) tegnspråk flytende med frie tegnsetninger	<input type="checkbox"/>

9. Lars kommuniserer til andre ved hjelp av tale og bruker:	
a) få ord (færre enn 30)	<input type="checkbox"/>
b) mange ord (flere enn 30)	<input type="checkbox"/>
c) stort vokabular og frie setninger (vanlig tale)	<input type="checkbox"/>
d) faste setninger (fraser / ekkotale)	<input type="checkbox"/>
10. Lars har mistet taleferdigheter i løpet av utviklingen	<input type="checkbox"/>

3. ANGST

11. Lars har spesifikk fobi med sterk redsel i konkrete situasjoner og for spesielle objekter der folk flest ikke er redde: (f.eks. katter, edderkopper, høyde, mørke)	<input type="checkbox"/>
12. Lars har redsel for situasjoner der han kan tiltrekke seg andres oppmerksomhet	<input type="checkbox"/>
13. Lars vegrer seg ofte for sosiale situasjoner hvor andre, og særlig jevnaldrende er tilstede	<input type="checkbox"/>
14. Lars stikker ofte av fra sosiale situasjoner; særlig hvis jevnaldrende er tilstede	<input type="checkbox"/>
15. Lars har annen angst: (f.eks. panikkangst eller annen angst som ikke kan forklares med konkrete ting eller opplevelser i øyeblikket)	<input type="checkbox"/>

4. REAKSJONSTID

Med reaksjonstid menes den tiden det vanligvis tar å få svar eller reaksjon på en henvendelse.

Normal: < 3 sek. Litt lang: 3 - 6 sek. Lang: > 6 sek.

16. På en vanlig, god dag er Lars sin reaksjonstid som regel:

5. FORM OG FORMSVINGNINGER

17. Lars har svingninger knyttet til:

Ja:

a) søvn / søvnmønster

b) appetitt / spising

c) avføring

d) kroppstemperatur i løpet av dagen

e) aktivitetsnivå i løpet av dagen

f) trivsel / humør

g) årstidene

h) reaksjonstid

i) personlig tempo

18. Lars har betydelig variasjon i dagsform. (Enten fra dag til dag eller i løpet av dagen)

NB: Hvis det skåres ut ja på spørsmål 18, at han har betydelig variasjon i dagsform, skal det fylles ut i både grå og hvite felt gjennom resten av spørreskjemaet. Hvite felt for gode perioder og grå felt for dårlige perioder.

I skjemaet brukes doble avkrysningsbokser av denne typen:

Alle skal krysse av i de øverste hvite rutene.

De grå rutene under er derimot **kun** for de personene som har **betydelig** variasjon i dagsform, og skal krysses av i tillegg til de hvite for alle spørsmål, som mål på de dårlige periodene.

	Eksempel passer				
	Svært dårlig	Dårlig	Både / og	Bra	Svært Bra
	1	2	3	4	5
19. Lars har søvnproblemer	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
20. Lars sover lite sammenliknet med andre	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
21. Lars sover mye sammenliknet med andre	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
22. Lars har vanskelig for å sovne om kvelden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
23. Lars våkner ofte om natten	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
24. Lars våkner ofte svært tidlig	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
25. Det virker ofte som Lars har:	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
a) vondt noe sted	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) hodepine / migrene	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c) vondt i magen	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
d) kløe	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
e) ikke aktuelt – kjønns spesifikt spørsmål	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
26. Lars har problemer med:	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
a) appetitt og spising	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) fordøyelse og avføring	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
27. Lars opplevde langvarige og store smerter tidlig i livet	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
28. Lars har mistet ulike ferdigheter han tidligere har hatt	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
29. Lars virker ofte deprimert	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
6. OMGJENGELIGHET Mennesker har forskjellig måte å uttrykke seg på som er typiske for dem, eks. sosiale, svært aktive, osv. Her vil vi at du skal beskrive det generelle inntrykket du har av Lars. Beskriv Lars slik du kjenner han, og slik han vanligvis er.					
30. Lars karakteriseres ved at han er:	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
a) fjern	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) sur og gretten	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c) lett å tolke	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

	Eksempelet passer				
	Svært dårlig	Dårlig	Både / og	Bra	Svært Bra
	1	2	3	4	5
d) blid og glad	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
e) pessimistisk	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
f) trist	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
g) sky	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
h) lesbar	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
i) kontaktsøkende	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
j) fraværende	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
k) sjenert	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
l) utadvendt	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
m) utilgjengelig	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
n) rar	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
o) usosial	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
p) intens	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
q) overemosjonell	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
r) sosial	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
s) masete	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
t) uoppmerksom	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
31. Lars karakteriseres ved at han:					
a) har et godt humør	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) smiler i upassende situasjoner	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c) har et meget høyt personlig tempo	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
d) har et meget lavt personlig tempo	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

	Eksempelet passer				
	Svært dårlig	Dårlig	Både / og	Bra	Svært Bra
	1	2	3	4	5
7. REAKTIVITET					
32. Lars karakteriseres ved at han er/har:					
a) engstelig	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) rigid	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c) fleksibel	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
d) overømfintlig	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
e) vaksom	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
f) lett å stresse	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
g) flegmatisk (avslappet i stressede situasjoner)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
h) motstand mot forandring	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
i) sårbar	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
j) rolig	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
8. INTERESSER					
33. Lars karakteriseres ved at han er:					
a) lett å få med på ting	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) engasjert	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c) interesseløs	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
d) vanskelig å få interessert i noe	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
e) interessert i mye	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
f) vitebegjærlig	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
g) nysgjerrig	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
h) initiativrik	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
i) lett å motivere	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
j) opptatt av uvanlige ting	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

	Eksempellet passer				
	Svært dårlig	Dårlig	Både / og	Bra	Svært Bra
	1	2	3	4	5
k) intenst opptatt av særinteresser / favorittinteresser	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
l) fornøyd når han vet hva han skal gjøre	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
34. Lars karakteriseres ved at han:					
a) har få interesser	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) har spesielle interesser	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c) blir opptatt av oppgaven	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
d) er engstelig for å gjøre feil	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
e) tåler dårlig å bli korrigert og rettet på	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
f) er utholdende	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
g) arbeider villig med det han skal gjøre	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
9. AKTIVITETSNIVÅ					
35. Lars trenger:					
a) varierte arbeidsoppgaver	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) korte arbeidsøkter og hyppige pauser	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c) ofte skifte i aktivitet og opplevelser	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
36. Lars er:					
a) aktiv	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) passiv	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c) overaktiv	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

	Eksempellet passer				
	Svært dårlig	Dårlig	Både / og	Bra	Svært Bra
	1	2	3	4	5
37. Lars glemmer ofte hva han skal gjøre på veien fra et sted til et annet. "Ut av øye - ut av sinn"	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
38. Lars gjør ofte ting i et overdrevent høyt tempo	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
39. Lars har lett for å kjede seg	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
40. Lars har vanskelig for å sitte stille	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
41. Lars slapper sjelden av	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
42. Lars har problemer med å vente	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
10. STEREOTYP AKTIVITET					
43. Lars	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
a) vifter	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) rigger	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c) siler lys	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
d) tvinner håret	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
e) trykker på øynene	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
f) inntar uvanlige kroppsstillinger	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
g) har spesielle, faste håndstereotyper	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
h) har spesielle hodebevegelser	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
i) lager spesielle lyder	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
j) leker med spytt	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
k) flirer	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
l) stirrer	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

		Eksempelet passer				
		Svært dårlig	Dårlig	Både / og	Bra	Svært Bra
		1	2	3	4	5
11. SANSESTIMULERING						
Mennesker varierer mye i hvordan de reagerer på sansestimuli.						
44. Lars liker:						
a) auditive stimuli (stimuli som påvirker hørselen)		<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
F.EKS: MUSIKK, STØVSUGER OG ANNET						
b) visuelle stimuli (stimuli som påvirker synet)		<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
F.EKS: LYS, PRIKKER, KONTRASTER OG ANNET						
c) taktile / haptiske stimuli (stimuli som påvirker berøringssansene)		<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
F.EKS: KILING, STRYKE PÅ ARMEN						
d) vestibulære stimuli (stimuli som påvirker balansesystemet)		<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
F.EKS: KJØRE KARUSELL, BLI KASTET OPP I LUFTA						
e) lukt		<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
f) smak		<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
45. Lars er:						
a) overømfintlig for auditive stimuli (stimuli som påvirker hørselen)		<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) overømfintlig for visuelle stimuli (stimuli som påvirker synet)		<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c) overømfintlig for taktile / haptiske stimuli (stimuli som påvirker berøringssansene)		<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
d) overømfintlig for vestibulære stimuli (stimuli som påvirker balansesystemet)		<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
e) overømfintlig for lukt		<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
f) overømfintlig for smak		<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
46. Lars har få eller svake uttrykk for opplevelser av smerte		<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
12. UTFORDRENDE ATFERD						
47. Lars har utfordrende atferd som er rettet:						
a) mot seg selv		<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

	Eksempelet passer				
	Svært dårlig	Dårlig	Både / og	Bra	Svært Bra
	1	2	3	4	5
b) mot det fysiske miljøet	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c) mot andre	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
13. OPPMERKSOMHET OG OPPMERKSOMHETSRETNING					
48. Lars karakteriseres ved at han er:	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
a) konsentrert	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) årvåken	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c) lett å distrahere	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
49. Vanligvis er Lars opptatt av:	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
a) hva han skal gjøre	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) personene han er sammen med	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c) det fysiske miljøet	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
d) det andre forventer av han	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
e) opptatt av å få ros	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
50. Når Lars kommer til et nytt sted har han mest fokus på:	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
a) hva han skal gjøre	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) personene han er sammen med	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c) det fysiske miljøet	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
d) det andre forventer av han	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
51. Av og til virker det som om Lars ikke forstår hva han holder på med, blir himmelfallen, mister mening og mål av syne i det han er i ferd med å gjøre	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
52. Det virker av og til som vanlige aktiviteter og rutiner er meningsløse for Lars	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
53. Lars blir ofte sittende med ufokusert blikk og ikke delta i det som skjer rundt han	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
54. Lars "faller ofte i staver" mens han holder på med noe	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

	Eksempelet passer				
	Svært dårlig	Dårlig	Både / og	Bra	Svært Bra
	1	2	3	4	5
14. SOSIALITET					
55. Lars reagerer svært positivt når:					
a) barn tar kontakt med han	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) voksne tar kontakt med han	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c) kjente tar kontakt med han	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
d) ukjente tar kontakt med han	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
56. Lars tar ofte kontakt med:					
a) barn	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) voksne	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c) kjente	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
d) ukjente	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
57. Lars tar kontakt med andre for å:					
a) utføre aktiviteter han liker	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) få hjelp til noe	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c) ha samvær med andre	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
d) gjøre aktiviteter sammen med noen	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
e) få ros, bekræftelse, anerkjennelse	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
f) fortelle om noe han har gjort	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
g) spørre	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
h) få noe han har lyst på	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
i) vise fram yndlingsleker, eller for å få en samtale om et yndlingstema	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
j) få fysisk kontakt med andre	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
k) søke trøst hos andre	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
l) få kos	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

	Eksempelet passer				
	Svært dårlig	Dårlig	Både / og	Bra	Svært Bra
	1	2	3	4	5
58. Lars tar ofte kontakt med andre på en:	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
a) gjentakende og stereotyp måte	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) måte som kan være ubehagelig for andre	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
59. Lars liker godt å være sammen med andre	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
60. Lars henvender seg ofte til andre mennesker	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
61. Lars tar ofte initiativ for å starte en aktivitet	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
15. STRUKTUR					
62. Lars er opptatt av å få vite:	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
a) hva som skal skje i løpet av dagen	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) hvem han skal være sammen med	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
63. Lars reagerer negativt når:	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
a) rutinene blir brutt	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) han er i ustrukturerte situasjoner	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c) rekkefølgen på ulike aktiviteter i løpet av dagen varierer (rammestrukturen)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
d) rekkefølgen på de enkelte delhandlingene i en situasjon varierer (situasjonsstrukturen)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
e) nye gjenstander innføres i omgivelsene	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
f) det blir innført nye aktiviteter	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
g) han blir presentert for nye mennesker	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
h) han kommer til nye steder	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
64. Når aktiviteter er strukturerte og godt planlagte:	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
a) følger Lars planene til punkt og prikke	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) er Lars lojal mot "skriftlige instruksjoner"; F.EKS. AKTIVITETSPERMER, HANDLINGSPERMER ELLER DAGSPLANER	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c) gjennomfører Lars aktivitetene uten andre hjelpetingselser; F.EKS. ROS ELLER IGANGSETTING	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

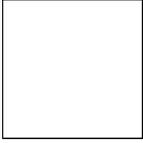
	Eksempelet passer				
	Svært dårlig	Dårlig	Både / og	Bra	Svært Bra
	1	2	3	4	5
65. Hvis Lars blir avbrutt mens han holder på med noe han liker særlig godt:					
a) reagerer han med fortvilelse, irritasjon eller sinne	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) begynner han straks på igjen med aktiviteten når han får muligheten	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
66. Lars liker å sortere ting etter størrelse, farge, form eller lignende	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
67. Lars rydder og ordner i ting han holder på med ut fra sitt eget, særegne system	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
68. Lars blir greit med på uventede aktiviteter som bryter med rutine/tidligere avtaler	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
69. Lars lager seg sterke forventninger til det som skal skje	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
70. Lars reagerer med oppgitthet på at hans forventninger blir brutt	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
71. Lars reagerer med frustrasjon/sinne på at hans forventninger blir brutt	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
16. UTFØRELSESVANSKER					
72. Når Lars er i en kjent situasjon og er motivert, starter han selv på aktiviteten uten å henvende seg til andre først	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
73. Lars bruker ofte lang tid på å få gjort noe; han får for eksempel ikke til bevegelsene, avbryter seg selv eller stopper opp i aktiviteten med stivnede bevegelser	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
74. Lars gruer seg ofte til det han har lyst til å gjøre	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
75. Lars gjør mange ting overraskende bra når han er for seg selv og ingen maser på han	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
76. Lars nøler ofte når han skal gjøre noe	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
77. Lars har ofte behov for at andre hjelper han med å ta initiativ til å gjøre noe	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
78. Lars blir lett initiativløs når han blir utsatt for mye prakk	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
79. Lars får ofte utførelsesvansker når det blir gjort klart (bevisst) for han det han skal gjøre	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
80. Når Lars har stoppet opp i det han skal gjøre og virker trøtt eller umotivert, reagerer han positivt på at andre tar initiativ til at han skal fortsette	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
81. Det er viktig for Lars at:					
a) gjenstander står på faste plasser	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

	Eksempelet passer				
	Svært dårlig	Dårlig	Både / og	Bra	Svært Bra
	1	2	3	4	5
b) aktiviteter foregår på faste steder	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
82. Når Lars blir satt til å utføre en aktivitet / oppgave:					
a) har han lett for å stoppe opp underveis og må settes i gang igjen	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) oppstår det ofte et kunnskapsmessig "hull", hvor Lars ikke klarer noe han tidligere har lært	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c) står han ofte fast til å begynne med, men gjør ting i et stort tempo når han først kommer i gang	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
d) gir han inntrykk av å trives best når andre ikke er for "tett på" han for å se på hva han gjør	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
83. For at Lars skal komme i gang med en aktivitet:					
a) trenger han at noen setter han i gang	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) må han få et "startsignal". Uten dette viser han tegn på frustrasjon	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c) er det lettere å få han med, når man gir han beskjed på en indirekte måte, sammenlignet med når man gir han en direkte ordre	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
d) er han avhengig av å starte handlingen / atferdskjeden på samme måte hver gang den skal utføres	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
84. Det er ofte vanskelig for Lars å komme i gang med en aktivitet:					
a) når han har tidspress	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) fordi han må "rydde i omgivelsene"	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c) fordi han blir sittende og vente på å bli satt i gang	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
d) når noen legger stort press på han	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
85. For at Lars skal få utført en handling / atferdskjede:					
a) er han avhengig av at den forrige aktiviteten er gjort ferdig på riktig måte	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

		Eksempelet passer				
		Svært dårlig	Dårlig	Både / og	Bra	Svært Bra
		1	2	3	4	5
	b) er han avhengig av at nærpasjonen hjelper han på bestemte ledd i handlingen	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	c) er han avhengig av at nærpasjonen forholder seg på en bestemt måte	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	d) er han avhengig av at omgivelsene er ordnet på en spesiell måte	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	e) er han avhengig av at nærpasjonen er til stede, selv om han egentlig kan utføre handlingen alene	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
86. Lars stopper opp fordi:						
	a) han må gjenta deler av handlingen flere ganger	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	b) han gjentar handlinger eller bevegelsesmønstre som ikke er en del av aktiviteten	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	c) han avbryter seg selv før han er ferdig med en aktivitet han er motivert for å gjennomføre	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	d) han blir opphengt i noe han ser på	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
87. Når Lars skal si/uttale noe:						
	a) hvisker han ofte	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	b) uttrykker han det ofte med store anstrengelser og med stramme muskler	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	c) går han ofte helt i stå hvis man retter fokus på han. <small>F. EKS. SER KREVENDE PÅ HAN ELLER KORRIGERER DET HAN SIER</small>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Lars har ingen tale. Spørsmålet gjelder derfor ikke: <input type="checkbox"/>					
88. Hvis Lars, og den han er sammen med, skal et sted og har dårlig tid:						
	a) får han ofte problemer med å komme seg over dørstokken	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	b) er han raskere til å komme seg ut med noen framfor med andre	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

	Eksempelet passer				
	Svært dårlig	Dårlig	Både / og	Bra	Svært Bra
	1	2	3	4	5
c) er han raskere hvis den han er sammen med fleiper eller spøker	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
89. Lars får lettere til å gjøre noe hvis situasjonen preges av spøk, latter og en uformell omgangstone	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
90. Lars oppfører seg forskjellig ovenfor ulike nærpersioner	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
17. TYPER					
91. Lars karakteriseres ved at han er flakkende	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
92. Lars går ofte fra det ene til det andre; ser på ting og berører det uten egentlig å feste oppmerksomheten mer enn et øyeblikk	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
93. Lars prøver å unngå aktiviteter han vet han skal være med på	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
94. Når andre prøver å få Lars med på noe som ikke er en del av rutinen, skjer det ofte at han setter seg ned slik at han må reises opp og taes med på det som skal skje	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
95. Ofte er det slik at Lars går først igjennom rommet med den voksne bak, som er klar til å gripe inn hvis han stikker av eller gjør noe galt	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
96. Lars reagerer negativt på krav	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
97. Når Lars blir satt til å utføre en aktivitet / oppgave:	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
a) legger / setter han seg ned på gulvet når det er noe han ikke har lyst til å gjøre	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) prøver han ofte å slippe unna kravene	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c) stikker han ofte av fra aktivitetene	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
98. Når Lars er alene i en ustrukturert situasjon:	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
a) går han hvileløst omkring uten å foreta seg noe bestemt og meningsfullt	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b) stikker han av	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
99. Lars liker godt:	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
a) fysisk utfordrende aktiviteter som klatring og ballansering	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

	Eksempelet passer				
	Svært dårlig	Dårlig	Både / og	Bra	Svært Bra
	1	2	3	4	5
b) fart og spenning	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c) voldsomme aktiviteter / lek	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
d) opplevelser som tivoli, sirkus, danskebåten og diskotek	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>



Tilbakemelding til Prosjekt Væremåte

Denne siden kan dere bruke til å utdype enkelte spørsmål/temaer i skjemaet eller dere kan skrive ned eventuelle tilbakemeldinger til prosjektgruppen.

Vi takker for hjelpen.

Hilsen:

Katrine B. Hildebrand

År