Originalarbeit



Autismus-Spektrum-Symptome bei Kindern mit Geburtsblindheit

Kilian Pankert^{1,2}, Azarakhsh Pankert^{1,2}, Leon David Lotter¹, Beate Herpertz-Dahlmann² und Kerstin Konrad^{1,3}

- ¹ Lehr- und Forschungsgebiet Klinische Neuropsychologie des Kindes- und Jugendalters, Klinik für Kinder- und Jugendpsychiatrie und -psychotherapie, Universitätsklinikum der RWTH Aachen
- ² Klinik für Kinder- und Jugendpsychiatrie und -psychotherapie, Universitätsklinikum der RWTH Aachen
- ³ JARA-Brain Institut Molekulare Neurowissenschaften und Bildgebung (INM-11), Forschungszentrum Jülich

Zusammenfassung: Fragestellung: Kinder mit Beeinträchtigungen des Sehens (BS) zeigten in einigen Untersuchungen autismusähnliche Verhaltensweisen. Die Anwendung vorhandener diagnostischer Screening-Instrumente für Autismus-Spektrum-Störungen (ASS) ist problematisch, da diese in der Regel ein intaktes Sehvermögen voraussetzen. Ziel dieser explorativen Studie war es, die prinzipielle Anwendbarkeit von drei ASS-Screening-Fragebögen bei Kindern mit Geburtsblindheit zu überprüfen. Methodik: 15 Kinder mit Geburtsblindheit, 15 Kinder mit ASS (ohne BS) und 20 Kontrollprobandinnen und –probanden wurden mittels des "Fragebogens zur Sozialen Kommunikation" (FSK), der "Marburger Beurteilungsskala zum Asperger-Syndrom" (MBAS) und der "Social Responsiveness Scale" (SRS) untersucht. Ergebnisse: Items, die motorische oder mimisch-gestische Auffälligkeiten und geteilte Aufmerksamkeit erfassten, wurden bei Kindern mit Geburtsblindheit häufig als auffällig beschrieben. Insgesamt zeigten diese Kinder in den ASS-Screening-Instrumenten höhere Werte als Kontrollpersonen, aber meist niedrigere Werte als sehende Kinder mit ASS. Je nach Fragebogen erreichten zwischen 23 und 67 % der Stichprobe mit Geburtsblindheit den klinischen Cut-Off-Wert für ASS. In dieser Gruppe korrelierte der SRS-Gesamtwert negativ mit der kognitiven Empathie und der verbalen Intelligenz. Schlussfolgerungen: Mütter von Kindern mit BS beschreiben in ASS-Screening-Instrumenten vermehrt ASS-Symptome. Dies könnte auf einer ausgeprägten Symptomüberschneidung von ASS und Blindheit beruhen. ASS-Screeningverfahren sollten zukünftig an die spezifischen Besonderheiten von Personen mit beeinträchtigten visuellen Fähigkeiten angepasst und mit Gold-Standard-Methoden validiert werden.

Schlüsselwörter: Beinträchtigungen des Sehen; Geburtsblindheit; Autismus-Spektrum-Störungen; Autismus; Autismus-Screening

Autism spectrum symptoms in children with congenital blindness

Abstract: Objective: Previous studies reported increased rates of autistic symptoms in children with impaired visual abilities (IV). However, the application of existing screening questionnaires for autism spectrum disorders (ASD) proved problematic, as intact visual abilities are typically required. The current study examines the general applicability of three autism-screening questionnaires in children with congenital blindness. Methods: Autistic symptoms were assessed in 15 children with congenital blindness, 15 children with ASD (without IV), and 20 typically developing controls (aged from 8 to 14 years), using the Social Communication Questionnaire, the Marburg Rating Scale for Asperger's Syndrome, and the Social Responsiveness Scale. Results: Items assessing motor, mimic/gesture-related, or joint attention deficits were identified as highly prevalent in children with congenital blindness. These children scored, in general, higher on ASD-screening questionnaires than typically developing controls but lower than sighted children with ASD. Depending on the screening questionnaire used, between 23 % and 67 % of the sample with congenital blindness reached clinical cutoff scores for ASD. SRS total score was negatively correlated to cognitive empathy and verbal IQ in those children. Conclusions: Mothers of children with congenital blindness reported increased autistic symptoms in ASD-screening questionnaires. ASD and IV might share a broad range of symptoms. Future development and validation of screening instruments specifically adapted to the needs of persons with impaired visual abilities seem necessary.

 $\textbf{Keywords:} \ visual\ impairments, congenital\ blindness, autism\ spectrum\ disorders, autism, autism\ screening\ disorders, autism\ disorders,$

Laut der Weltgesundheitsorganisation (WHO) leben weltweit ungefähr 1.4 Millionen blinde Kinder, davon drei Viertel in Entwicklungsländern. Die Prävalenz von schweren Beeinträchtigungen des Sehens (BS) liegt bei 0.3/1000 Kinder in Ländern mit hohem Einkommen und bis zu 1.5/1000 Kinder in Niedrig-Einkommens-Ländern mit hohen Kindersterblichkeitsraten (Gilbert, 2007). Insbesondere die Frühgeborenen-Retinopathie (ROP), eine pe-

rinatal erworbene Erkrankung, hat in einigen Ländern aufgrund erhöhter Überlebensraten von Frühgeborenen zugenommen (Gilbert, 2008; Zin & Gole, 2013).

In den letzten Jahren mehren sich Hinweise, dass Kinder mit BS ein erhöhtes Vorkommen von Symptomen der Autismus-Spektrum-Störung (ASS) aufweisen. Diese ist gekennzeichnet durch Defizite in der Kommunikation und sozialen Interaktion sowie repetitive und stereotype Ver-

haltensweisen (American Psychiatric Association, 2013; World Health Organization, 2018). Keeler beschrieb 1956 erstmals gehäuft vorkommende Symptomüberlappungen zwischen Kindern mit ASS und Kindern mit Geburtsblindheit. Zu den berichteten Verhaltensweisen gehörten, neben der eingeschränkten Kommunikation, auch stereotype Extremitätenbewegungen und ein stärkeres Bedürfnis nach Routine (Butchart et al., 2017; Keeler, 1956; Wrzesinska, Kapias, Nowakowska-Domagala & Kocur, 2017). Tatsächlich scheint die ASS-Prävalenz bei Kindern mit BS im Vergleich zu Kindern ohne BS erhöht zu sein: Während die ASS-Prävelanz bei nicht visuell beeinträchtigten Kindern bei 0.9 bis 1.1% lag (Deutsche Gesellschaft für Kinder- und Jugendpsychiatrie, Psychosomatik und Psychotherapie, 2016; Fombonne, Quirke & Hagen, 2011), stellten Studien mit an die Sehbehinderung adaptierter Diagnostik Prävalenzen von 4 bzw. 12% bei Kindern mit BS fest (Fazzi et al., 2019; Mukaddes, Kilincaslan, Kucukyazici, Sevketoglu & Tuncer, 2007). Ohne Adaption der diagnostischen Instrumente erfüllten bis zu 50 % der untersuchten Kinder die Kriterien für ASS (de Verdier, Ulla, Löfgren & Fernell, 2018; Ek, Fernell, Jacobson & Gillberg, 1998; Jure, Pogonza & Rapin, 2016). Umgekehrt berichtete eine große Kohortenstudie unlängst, dass 3.5 % der Kinder mit ASS unter BS leiden (Rydzewska et al., 2019). Der Erforschung des Zusammenhangs von Beeinträchtigungen des Sehens und dem Vorliegen von Autismus-Symptomen kommt somit eine hohe Bedeutung zu. Dies gilt umso mehr, da ein Übersehen von ASS-Symptomen bei Kindern mit BS zur Verhinderung einer spezifischen Förderung und so zu einem schlechteren Entwicklungsoutcome führen kann (Dale & Salt, 2007). Andererseits birgt eine falschpositive ASS-Diagnose die Gefahr einer zusätzlichen Stigmatisierung betroffener Kinder.

Ob kongenitale Blindheit tatsächlich ätiologisch mit der Entstehung einer ASS in Verbindung steht (Hobson & Bishop, 2003; Rogers & Newhart-Larson, 1989), wurde bislang kontrovers diskutiert. Eine gemeinsame Ätiologie einzelner angeborener Sehbehinderungen (z.B. der Leberschen Amaurose) und ASS konnte bislang nicht ausreichend belegt werden (Fazzi et al., 2007; Rogers & Newhart-Larson, 1989). Es finden sich auch nur wenige Hinweise auf gemeinsame neuronale Korrelate von ASS und Blindheit. Diskutiert wurden z.B. das besonders hypoxieempfindliche Striatum, (Ecker, Schmeisser, Loth & Murphy, 2017; Ek et al., 1998) oder der Colliculus superior (Jure, 2019) als mögliches Bindeglied. Hingegen zeigten Kinder mit BS und einer ASS-Diagnose häufiger starke visuelle Beeinträchtigungen, geistige Behinderungen und komorbide neurologische Schäden (Ek et al., 1998; Mukaddes et al., 2007) und wiesen ein schlechteres generelles Entwicklungsoutcome auf (Cass, Sonksen & McConachie, 1994; Dale, 2005; Vervloed, van den Broek & van

Eijden, 2019). Insgesamt sprechen die Befunde dafür, dass die Auftretenshäufigkeit von ASS-Symptomen mit dem Ausmaß der visuellen Beeinträchtigung steigt und bei Kindern mit Geburtsblindheit am größten ist (de Vaan et al., 2016; Jure et al., 2016; Mukaddes et al., 2007). Hobson und Bishop (2003) schlossen daraus, dass die Blindheit selbst zur Entstehung einer ASS führen könne. Autismus stelle die "gemeinsame Endstrecke" verschiedenster zusammenwirkender Faktoren dar (Hobson & Bishop, 2003, S. 335). Fehlende visuelle Erfahrungen würden das Erlernen sozialer interpersoneller Kommunikation erschweren und zu Problemen bei der Erkennung, Interpretation und Einordnung von Emotionen und Intentionen anderer Personen (Theory of Mind [ToM]) führen. Tatsächlich zeigten Kinder mit BS auch bei Testung mit speziell modifizierten ToM-Aufgaben eine verzögerte Entwicklung der entsprechenden Fähigkeiten (Begeer, De Rosnay, Lunenburg, Stegge & Terwogt, 2014; Brambring & Asbrock, 2010; Peterson & Siegal, 2000; Roch-Levecq, 2006), was jedoch in jüngster Zeit nicht durchgehend repliziert werden konnte (Bartoli, Bulgarelli & Molina, 2019; Pijnacker, Vervloed & Steenbergen, 2012).

ToM- und Empathiedefizite zählen zu den zentralen Charakteristika der ASS bei sehenden Betroffenen, allerdings wurden sie auch bei anderen psychischen Störungen des Kindes- und Jugendalters beschrieben (z.B. Aufmerksamkeitsdefizit-/Hyperaktivitätsstörung [ADHS] Störung des Sozialverhaltens; Schwenck et al., 2011). Typischerweise betrachtet man Empathie heute als mehrdimensionales Konstrukt, das eine eher kognitive (ToM) und eine eher affektive (die emotionale Reaktion auf den Gefühlszustand einer anderen Person) Komponente umfasst (Lamm, Bukowski & Silani, 2016). Ob Patientinnen und Patienten mit ASS eher ein globales Empathiedefizit aufweisen (Greimel et al., 2011) oder ob Defizite vorrangig die kognitive Komponente betreffen (z.B. Bons et al., 2013; Mazza et al., 2014), bleibt Gegenstand aktueller Diskussionen. Einschränkungen affektiver Empathiefähigkeiten fanden sich v.a. in der Fremdbeurteilung (Greimel et al., 2011). Unseres Wissensstandes nach wurde Empathie bei Kindern mit BS bislang kaum untersucht. In einer aktuellen Studie zeigten Erwachsene mit BS Defizite in der Bewertung emotionaler Prosodie in der "Florida Affect Battery" (Martins, Faísca, Vieira & Gonçalves, 2019).

ASS-Diagnostik bei Kindern mit Sehbehinderung

Eine leitliniengerechte ASS-Diagnostik erfordert die gezielte entwicklungs- und symptomorientierte Befragung

der Eltern und eine strukturierte Beobachtung des Verhaltens des/der Betroffenen. Dazu bedarf es der Anwendung standardisierter Interview- und Beobachtungsverfahren (AWMF-Leitlinie: Deutsche Gesellschaft für Kinder- und Jugendpsychiatrie, Psychosomatik und Psychotherapie, 2016). Die unmodifizierte Anwendung solcher diagnostischer Verfahren bei Kindern mit BS birgt jedoch die Gefahr von falsch-positiven ASS-Klassifikationen, was zu den sehr hohen o.g. Prävalenzraten beigetragen haben könnte (de Vaan et al., 2016; Mukaddes et al., 2007). Die derzeit am häufigsten verwendeten differenzierten Untersuchungsinstrumente sind das "Diagnostische Interview für Autismus" (ADI-R; Lord, Rutter & Le Couteur, 1994) und die "Diagnostische Beobachtungsskala für Autistische Störungen" (ADOS; Lord et al., 2012). Als Screening-Instrumente werden z.B. der "Fragebogen zur Sozialen Kommunikation" (FSK; Bölte, Poustka & Rutter, 2006), die "Marburger Beurteilungsskala zum Asperger-Syndrom" (MBAS; Kamp-Becker, Mattejat, Wolf-Ostermann & Remschmidt, 2005) oder die "Social Responsiveness Scale" (SRS; Bölte & Poustka, 2008) eingesetzt. Die gezielte Anwendung von Screening-Verfahren in Hochrisiko-Gruppen für ASS scheint im Vergleich zu universellen Screenings auch hinsichtlich der Kosteneffizienz überlegen zu sein (Yuen, Carter, Szatmari & Ungar, 2018). Dies spricht dafür, vorhandene Screening-Instrumente an die Besonderheiten von Kindern mit BS zu adaptieren, indem zunächst alle Items, die intaktes Sehen voraussetzen, ausgeschlossen werden. De Vaan et al. (2016) rieten weiterhin dazu, auch subtilere Verhaltensbesonderheiten dieser Kinder zu berücksichtigen und v.a. auch relevantes "Ersatzverhalten" (z.B. das "Ertasten" von Gegenständen mit dem Mund) zu erfassen.

Im angloamerikanischen Raum gab es jüngst erste Versuche, vorhandene Instrumente für die Anwendung bei Personen mit BS zu modifizieren. Bis dato liegen angepasste Versionen des ADOS und ADI-R (Williams, Fink, Zamora & Borchert, 2014) und mit dem "Visual Impairment and Social Communication Schedule" (Absoud, Parr, Salt & Dale, 2011) eine Beobachtungsskala speziell für soziale Fähigkeiten von Kindern mit BS vor. Zur Verhaltensbeobachtung und ASS-Diagnostik bei Kindern mit BS und komorbiden intellektuellen Einschränkungen wurde der OASID ("Observation of Autism in People with Sensory and Intellectual Disabilities"; de Vaan et al., 2018) entworfen. Als einziges ASS-Screening-Instrument wurde erstmalig der "Social Communication Questionnaire" (SCQ) auch bei Kindern mit Geburtsblindheit untersucht (Jutley-Neilson, Harris & Kirk, 2013).

Die Eignung von Screening-Fragebögen für die ASS-Diagnostik bei Kindern mit BS scheint somit bislang nur unzureichend untersucht. Es ist weitestgehend ungeklärt,

inwieweit die scheinbar häufiger auftretenden ASS-Symptome bei betroffenen Kindern in ihrem Profil und ihren Korrelaten mit denen von sehenden Kindern mit ASS vergleichbar sind. Die vorliegende Untersuchung diente deshalb der Überprüfung folgender Fragestellungen:

- · Zeigen Kinder mit BS in den drei eingangs erwähnten, im deutschsprachigen Raum verbreiteten, ASS-Screening-Fragebögen (FSK, MBAS und SRS) ein erhöhtes Vorkommen von ASS-Symptomen? Insbesondere sollte überprüft werden, ob einige Items Verhaltensweisen erfassten, die bei Kindern mit BS so häufig beobachtet werden, dass sie für ein Screening-Instrument ungeeignet sind. Wir nahmen an, dass es sich bei diesen v.a. um Items handeln würde, die repetitive Verhaltensweisen, Stereotypien oder imaginatives Spiel erfragten (Williams et al., 2014). Dabei sollte beachtet werden, dass die vorliegende Studie keine Validierungsstudie darstellt. Es wurde nicht untersucht, inwieweit auffällige Werte in den Screening-Instrumenten mit dem Vorliegen einer ASS-Diagnose nach modifizierten Gold-Standard-Instrumenten übereinstimmen.
- Zeigen Kinder mit Geburtsblindheit häufiger ASS-Symptome als sehende Kinder und falls ja, wie unterscheidet sich das Symptomprofil dieser von dem Profil sehender Kinder mit einer ASS-Diagnose? Der Studienlage entsprechend erwarteten wir, dass Kinder mit Geburtsblindheit von ihren Eltern als auffälliger als typisch entwickelte, aber weniger auffällig als Kinder mit ASS ohne BS beschrieben werden.
- Ferner sollten die Zusammenhänge zwischen Intelligenz, Alter, kognitiver und affektiver Empathie und ASS-Symptomen bei Kindern mit Geburtsblindheit und sehenden Kindern mit ASS untersucht werden. Insbesondere sollte überprüft werden, ob bei Kindern mit BS und Kindern mit ASS ohne BS ein vergleichbarer Zusammenhang zwischen ASS-Symptomen und Empathiedefiziten bestand oder ob in der ersteren Gruppe ein stärkerer Einfluss von Intelligenz und Alter identifiziert werden konnte.

Methoden

Stichprobe und Studienverlauf

Für die vorliegende Studie wurden insgesamt 50 Kinder im Alter von 8 bis 14 Jahren in drei Gruppen rekrutiert: Kinder mit Geburtsblindheit ohne bekannte ASS (n = 15, "BS"), Kinder mit klinisch bestätigter ASS-Diagnose ohne BS (n = 15, "ASS") und typisch entwickelte Kontrollprobandinnen und -probanden (n = 20, "KG"). Die Einschlusskriterien für blinde Kinder waren ein Sehvermögen

von maximal 5% und keine klinische Vorstellung wegen ASS in der Vergangenheit. Den jeweiligen Sehbehinderungen lagen folgende Ätiologien zugrunde: Kongenitale Lebersche Amaurose (n = 8), Sehnervhypoplasie (n = 4), komplexe Lid- und Augenfehlbildung mit Dermoiden (n = 1), maligne Osteopetrose (n = 1) und intrauterine CMV-Infektion (n = 1). In die Gruppe der sehenden Kinder mit ASS wurden nur Kinder eingeschlossen, die in der Vergangenheit mittels ADOS und ADI-R klinisch diagnostiziert wurden. Die Kontrollprobandinnen und -probanden wurden so ausgewählt, dass sie möglichst nach Alter und Geschlecht zu den anderen beiden Gruppen vergleichbar waren. Alle Probandinnen und Probanden wiesen einen ein Intelligenzquotient (IQ) von mindestens 80 auf. Die Rekrutierung erfolgte ohne Hinweis auf die Untersuchung von ASS-Symptomen oder Empathie über unsere Klinik, entsprechende Therapiezentren, spezielle Förderschulen, Vereine und Selbsthilfegruppen.

Die Studie wurde von der lokalen Ethikkommission befürwortet. Die teilnehmenden Probandinnen und Probanden sowie deren Erziehungsberechtigte wurden sowohl schriftlich als auch mündlich über die Untersuchungen aufgeklärt und gaben ihr schriftliches Einverständnis.

Untersuchungsverfahren

ASS-Screening-Fragebögen

Die verwendeten Screening-Fragebögen beruhten auf dem Fremdurteil der Eltern. Eltern von Kindern mit Geburtsblindheit wurden gebeten, Items, die aufgrund der Sehbehinderung nicht beurteilt werden konnten, entsprechend zu kommentieren. Dieser Ansatz wurde bewusst so gewählt, um die Elternperspektive von sehbehinderten Kindern abbilden zu können. Alle nichtbeurteilbaren Symptome wurden bei der Auswertung als "O" gewertet. Auf eine Anpassung der Cut-Off-Werte wurde bewusst verzichtet, um einem zu liberalen Kriterium für Kinder dieser Gruppe entgegenzuwirken. Es wurden folgende Fragebögen verwendet:

Der "Fragebogen zur Sozialen Kommunikation" (FSK; Rutter, Bailey & Lord, 2003; dt. Version: Bölte et al., 2006) untersucht die Qualitäten soziale Interaktion, Kommunikation, abnormer Sprachgebrauch und stereotype Verhaltensweisen. Der FSK besteht aus 40 binären bewerteten Items, der Cut-Off-Wert für ASS liegt bei ≥ 15 Punkten und für "Autismus" bei ≥ 16 Punkten. Für unsere Auswertung wählten wir den niedrigeren Cut-Off von ≥ 15 für ASS. Die interne Konsistenz, Test-Retest-Reliabilität und konvergente Validität der Skala wird als zufriedenstellend bis gut bewertet (Bölte, Holtmann & Poustka, 2008).

- Die "Marburger Beurteilungsskala zum Asperger-Syndrom" (MBAS; Kamp-Becker et al., 2005) erfasst qualitative Beeinträchtigungen der sozialen Interaktion und Kommunikation sowie begrenzte, repetitive und stereotype Verhaltensweisen, Interessen und Aktivitäten. Die MBAS besteht aus 65 in fünf Stufen bewerteten Items. Der Cut-Off-Wert für das Asperger-Syndrom liegt bei > 103 Punkten. Die Skala weist eine sehr gute Sensitivität, Spezifität und interne Konsistenz auf (Kamp-Becker et al., 2005).
- Die "Social Responsiveness Scale" (SRS; Constantino & Gruber, 2005; dt. Version: Bölte & Poustka, 2008) erfasst mittels 65 vierstufigen Items die Subskalen soziales Bewusstsein, soziale Kognition, soziale Kommunikation, soziale Motivation sowie autistische Manierismen. Es liegen Cut-Off-Werte für zwei Schweregrade der Beeinträchtigung sozialer Reaktivität vor. In der vorliegenden Untersuchung wurde der liberalere Wert angewendet (T > 60). Interne Konsistenz, Test-Retest-Reliabilität und konvergente Validität der SRS werden als gut bis sehr gut bewertet (Bölte, Poustka & Constantino, 2008; Constantino et al., 2003).

Selbst- und Fremdbeurteilung empathischer Fähigkeiten

Empathische Fähigkeiten der Probandinnen und Probanden wurden sowohl mittels Selbst- als auch Fremdurteil (Elternurteil) erfasst. Selbstbeurteilungen wurden den Kindern vorgelesen und die Antworten durch die untersuchende Person eingetragen.

Der "Bryant Index of Empathy" (BIE; Bryant, 1982; Greimel et al., 2011) erfasst mithilfe von 22 Items die selbstbeurteilte emotionale Reaktivität, d.h. die Neigung, emotional auf emotionale Erlebnisse anderer Personen zu reagieren und diese nachzuempfinden. Demnach wird primär die affektive Komponente der Empathie gemessen.

 Der "Griffith Empathy Measure" (GEM; Dadds et al., 2008; dt. Fassung: Greimel et al., 2011) stellt eine als Elternfragebogen adaptierte Version des BIE dar. In zwei Subskalen werden affektive und kognitive Empathiekomponenten erfasst. Da nicht alle Items den Subskalen zugeordnet werden können, wird hier auch der GEM-Gesamtwert berichtet.

Sonstige Untersuchungsinstrumente

In Ermangelung etablierter deutschsprachiger Verfahren zur IQ-Testung von Kindern mit BS erfolgte die Abschätzung des IQ-Wertes mithilfe des verbalen Teils des "Hamburg-Wechsler-Intelligenztests für Kinder" (HAWIK-III-R; Tewes, Rossmann & Schallberger, 1999). Zur besseren Vergleichbarkeit zwischen den Gruppen wurden hier alle Aufgaben vorgelesen. Als Screening-Instrument für allge-

meine Verhaltensauffälligkeiten und psychische Beschwerden wurde die "Child Behavior Checklist" (CBCL; Achenbach, 1991) verwendet. Die Subskalen der CBCL werden in die Summenskalen (Externalisierendes und Internalisierendes Verhalten) zusammengefasst. Komorbide ADHS-Symptome wurden mittels des "Fremdbeurteilungsbogen für hyperkinetische Störungen" (FBB-HKS; Döpfner & Lehmkuhl, 1998) erfasst.

Statistische Auswertung

Die statistischen Analysen wurden mittels des "Statistical Package for the Social Sciences" (SPSS, Version 25.0, IBM Corporation, 2017) durchgeführt. Die Normalverteilung aller Variablen wurde für jede der drei Gruppen mit Shapiro-Wilk-Tests überprüft. Die Verteilungen der Geschlechter in den drei Gruppen wurden mittels eines zweidimensionalen Chi-Quadrat-Tests verglichen. Zur Überprüfung von Gruppenunterschieden in den demografischen und Fragebogendaten wurden univariate Varianzanalysen bzw. für nichtnormalverteilte Variablen Kruskall-Wallis-H-Tests berechnet und Post-hoc-Gruppenvergleiche mittels Tukey-HSD- bzw. Dunn-Tests durchgeführt. Ferner wurde die Anzahl der Kinder mit Geburtsblindheit bestimmt, die in den ASS-Screening-Fragebögen oberhalb der Cut-Off-Werte lagen. Auf eine Anpassung der Cut-Offs wurde bewusst verzichtet, um einem zu liberalen Kriterium für ASS bei Kindern mit BS entgegenzuwirken, d.h., auch wenn Eltern einige Fragen als "aufgrund der Sehbehinderung nicht einschätzbar" angaben, wurde der Cut-Off des jeweiligen Fragebogens nicht entsprechend nach unten korrigiert. Zusätzlich wurden alle Items identifiziert, die entweder mindestens einmal als "nicht einschätzbar" oder in über 50% der Fälle als "vorhanden" bewertet wurden. Als "vorhanden" zählte jede Symptombewertung, die auf den Likert-Skalen entweder als mindestens "häufig" (MBAS \geq 3) bzw. "oft" (SRS \geq 2) auftretend oder bei binären Items als "vorhanden" (FSK) beschrieben wurde. Zusammenhänge von Alter, IQ, und kognitiver bzw. emotionaler Empathie mit dem Schweregrad der ASS-Symptomatik wurden mittels Pearson-Korrelationskoeffizienten bzw. Spearmans Rangkorrelationskoeffizienten (bei nichtnormalverteilten Variablen) getrennt für die Gruppe mit BS und die Gruppe mit ASS berechnet. Im Falle von differenziellen Korrelationsmustern zwischen den Gruppen wurden Unterschiede in den Korrelationskoeffizienten mittels Fisher's Z-Tests auf Signifikanz überprüft.

Ergebnisse

Stichprobe und allgemeine Psychopathologie

Die demografischen Charakteristika und klinischen Daten der drei Gruppen finden sich in Tabelle 1. Da ASS bei Jungen häufiger als bei Mädchen auftritt, war die Geschlechterverteilung zwischen den Gruppen nicht komplett vergleichbar, jedoch nicht signifikant verschieden ($\chi^2[2] = 5.05; p = .080$). Die drei Gruppen unterschieden sich ebenfalls nicht hinsichtlich ihres Alters und ihrer verbalen Intelligenz (siehe Tabelle 1).

Es zeigte sich in verschiedenen Messinstrumenten, dass Kinder mit BS von ihren Eltern als signifikant psychopathologisch auffälliger beschrieben wurden als die KG, jedoch nicht im klinisch relevanten Bereich lagen. Dies betraf internalisierende Verhaltensauffälligkeiten in der CBCL (p=.045) und das Vorliegen von Aufmerksamkeitsstörungen im FBB-HKS (p=.011). Die Gruppe mit BS zeigte in diesen beiden Bereichen jedoch signifikant niedrigere Werte als Kinder mit ASS (p=.032 bzw. p<.001). Im Vergleich zu sehenden, typisch entwickelten Kindern zeigten sich darüber hinaus keine weiteren Gruppenunterschiede. Die ASS-Gruppe zeigte hingegen auf allen Subskalen signifikant auffälligere Werte als die KG ($p\leq.003$).

ASS-Screening-Fragebögen

Tabelle 2 gibt einen Überblick über Items der drei Fragebögen (FSK, SRS und MBAS), die von mindestens einer der Mütter eines Kindes mit Geburtsblindheit als nicht einschätzbar angegeben wurden, sowie von Items, die bei über 50 % dieser Kinder auffällig bewertet wurden. Dies traf auf 4 von 40 Items der FSK, 5 von 65 Items der MBAS und keines der Items der SRS zu. Es wird deutlich, dass Mütter von Kindern mit BS auch Items, die Klinikerinnen und Kliniker als eher abhängig vom intakten visuellen Input beurteilen würden (z.B. "schaut seinem Gesprächspartner direkt ins Gesicht"), als prinzipiell bewertbar einschätzten. In mindestens 50 % aller Fälle wurden bei Kindern mit BS ferner v.a. Aussagen bejaht, die motorische Stereotypien (Wedeln mit den Händen) oder sensorische Empfindlichkeit erfassten.

Tabelle 3 zeigt die Verteilung der Gruppenmittelwerte auf den Subskalen der drei ASS-Screening-Fragebögen. Zur Veranschaulichung sind die Gesamtergebnisse auch in Abbildung 1 dargestellt. Erwartungskonform zeigte sich, dass die Kinder mit ASS in allen Subskalen signifikant höhere Werte als die KG aufwiesen (p < .001 für alle [Sub-] Skalen). Die Skalenmittelwerte der Gruppe mit BS lagen, wie ebenfalls erwartet, meistens zwischen denen der ASS-

Tabelle 1. Demografische und klinische Charakteristika der drei Gruppen.

	Kinder mit BS	Kinder mit ASS	Kontrollgruppe	Statistik $F/H/\chi^2$ df p		<	Post-hoc-Test
	(n = 15)¹ Mittelwert (SA)	(n = 15) ² Mittelwert (SA)	(n = 20) Mittelwert (SA)			р	
Alter (Jahre)	10.7 (1.9)	11.5 (1.8)	11.2 (1.8)	0.89ª	2.47	.424	n.s.
Altersspanne (Jahre)	8.1-14.0	9.2-14.9	7.9-14.9	-	-	-	-
weibliches Geschlecht	n = 9 (60 %)	n = 3 (25%)	n = 9 (45%)	5.05°	2	.080	n.s.
IQ (verbal)	104.3 (18.8)	108.2 (16.9)	107.1 (8.3)	0.27ª	2,47	.761	n.s.
CBCL (T-Werte)							
Ext. Verhaltensweisen	56.4 (4.5)	60.8 (9.0)	49.9 (8.2)	11.55⁵	2	.003	ASS > KG
Int. Verhaltensweisen	58.8 (9.3)	68.7 (6.0)	50.0 (6.7)	27.20b	2	<.001	ASS > BS > KG
FBB-HKS (Rohwerte)							
Unaufmerksamkeit	8.2 (4.1)	16.8 (5.6)	3.9 (2.6)	41.61ª	2,47	<.001	ASS > BS > KG
Hyperaktivität	2.4 (2.7)	4.9 (4.6)	0.8 (1.2)	17.84 ^b	2	<.001	ASS > KG
Impulsivität	3.7 (2.9)	6.1 (3.0)	1.5 (1.5)	20.14 ^b	2	<.001	ASS > KG
Empathie							
GEM Kognitiv	6.1 (5.1)	-5.9 (8.1)	11.5 (4.9)	35.37ª	2, 47	<.001	(BS = KG) > AS
GEM Affektiv	10.3 (6.5)	-4.8 (12.8)	1.1 (12.0)	13.70 ^b	2	.001	BS > ASS
GEM Gesamtwert	31.5 (13.8)	-8.7 (21.8)	30.0 (17.9)	21.36 ^b	2	.001	(BS = KG) > AS
BIE Gesamtwert	64.8 (2.5)	62.6 (2.8)	61.2 (2.2)	0.18 ^b	2	.914	n.s.

Anmerkungen: ¹ CBCL: n = 14. ² BIE: n = 13, CBCL: n = 14. ª univariate Varianzanalyse mit Post-hoc Tukey-Test. b Kruskal-Wallis-H-Test mit Post-hoc Dunn-Test. c χ^2 -Test.

Abkürzungen: ASS = Autismus-Spektrum-Störung, BS = Beeinträchtigungen des Sehens, SA = Standardabweichung, n.s. = nicht signifikant, IQ = Intelligenzquotient, CBCL = Child Behavior Checklist, Ext. = Externalisierende, Int. = Internalisierende, FBB-HKS = Fremdbeurteilungsfragebogen für Hyperkinetische Störungen, Aufmerksamkeitsst. = Aufmerksamkeitsstörung, GEM = Griffith Empathy Measure, BIE = Bryant Index of Empathy.

Gruppe und denen der KG, wobei die Gruppe mit BS stets signifikant höhere Werte als die Kontrollgruppe zeigte (FSK: $p \le .037$; SRS: $p \le .031$; MBAS: $p \le .008$).

Im FSK zeigten sich keine signifikanten Unterschiede zwischen den Kindern mit BS und den Kindern mit ASS; beide Gruppen erzielten auf allen Subskalen signifikant auffälligere Werte als die KG.

In der MBAS lagen für die Subskalen ToM, Kontaktund Spielverhalten und auffälliger Sprachtstil, Sonderinteressen und Motorik die Kinder mit BS zwischen den Kindern mit ASS und der KG (alle Post-hoc-Gruppenunterschiede signifikant). Hingegen unterschieden sich Kinder mit BS nicht von der ASS-Gruppe hinsichtlich der Skalen Stereotypes und situationsinadäquates Verhalten und Geteilte Aufmerksamkeit, Freude, Mimik und Gestik. Beide Gruppen zeigten aber jeweils Unterschiede im Vergleich zur KG.

In der SRS fanden sich ebenfalls vergleichbare Ergebnisse von Kindern mit ASS und Kindern mit BS auf der Subskala *Autistische Manierismen* (*p* < .001). Auf den übri-

gen Skalen präsentierten die Kinder mit BS niedrigere Werte als die Kinder mit ASS ($p \le .040$), aber höhere Werte als die KG ($p \le .031$).

Um zu überprüfen, ob die ASS-Fragebögen zu unterschiedlichen Ergebnissen hinsichtlich autistischer Symptomatik bei Kindern mit BS gelangten, berechneten wir die Anzahl der Kinder, die oberhalb der Cut-Offs der drei Fragebögen lagen. Es zeigte sich, dass in der SRS die meisten Kinder (67%) Werte oberhalb des Cut-Offs erreichten, wobei nur 20 % über dem weniger liberalen Cut-Off-Wert lagen. Im FSK fanden sich 47% der Probandinnen und Probanden im auffälligen Bereich und in der MBAS wurden 27% der Kinder positiv gescreent (siehe Abbildung 1). Ferner überprüften wir die Konsistenz der ASS-Klassifikationen mittels Kreuztabellen (Tabelle 4). Es zeigte sich, dass nur vier Kinder mit BS (27%; dem Ergebnis der MBAS entsprechend) in allen drei Fragebögen positiv gescreent wurden. Die gleiche Anzahl befand sich in allen Fragebögen konstant unter den Cut-Off-Werten - hier zeigte die SRS die konsistenteste Klassifikation. Die Übereinstim-

Tabelle 2. Items der ASS-Screening-Fragebögen, die sich bei Kindern mit Geburtsblindheit nur bedingt anwenden lassen oder in über 50 % der Fälle auffällig ausfielen.

	Item-Inhalt	Nicht einschätzbar ^a (%)	Auffällig⁵ (%)
FSK			
Item 10	Erscheint sein (ihr) Gesichtsausdruck normalerweise der Situation angemessen, soweit Sie es einschätzen können?	0	60
Item 16	Zeigte er (sie) jemals ungewöhnliche Verhaltensweisen beim Bewegen seiner (ihrer) Hände oder Finger, wie zum Beispiel Wedeln oder Bewegungen der Finger vor seinen (ihren) Augen?	0	60
Item 26	Schaute er (sie) Ihnen im Alter von 4 bis 5 Jahren meist direkt ins Gesicht, wenn er (sie) etwas mit Ihnen machte oder mit Ihnen sprach?	7	67
Item 27	Lächelte er (sie) im Alter von 4 bis 5 Jahren zurück, wenn jemand ihn (sie) anlächelte?	7	100
MBAS			
Item 9	Schaut er (sie) seinen Gesprächspartnern direkt ins Gesicht?	7	53
Item 40	Hat er (sie) im Alter von 4 bis 5 Jahren Ihnen gewöhnlich direkt in das Gesicht geschaut, wenn er (sie) etwas mit Ihnen gemacht oder mit Ihnen geredet hat?	20	60
Item 42	Scheint er (sie) übermäßig empfindlich gegenüber Geräuschen, Gerüchen und der Beschaffenheit von Oberflächen?	0	53
Item 43	Hat er (sie) im Alter von 4 bis 5 Jahren auf Dinge um ihn (ihr) herum gezeigt, einfach um Sie auf etwas aufmerksam zu machen (nicht, weil er (sie) etwas haben wollte)? Z.B. "Schau mal!", "Guck mal da!"	20	60
Item 44	Hat er (sie) im Alter von 4 bis 5 Jahren zurüc gelächelt, wenn er (sie) von jemandem angelächelt wurde?	20	67

Anmerkungen: ^a Items, die von der Mutter des Kindes als "aufgrund der Sehbehinderung nicht einschätzbar" markiert wurden. ^b Items, die in über 50% der Fälle als auffällig beschrieben wurden. Kein Item der "Social Responsiveness Scale" wurde als "nicht einschätzbar" oder in mindestens 50% der Fälle als vorhanden bewertet. Abkürzungen: ASS = Autismus-Spektrum-Störung, FSK = Fragebogen zur Sozialen Kommunikation, MBAS = Marburger Beurteilungsskala zum Asperger-Syndrom.

mungen der Fragebogenklassifikation lag für die Gruppe der sehenden Kinder mit ASS deutlich höher (87 bis 100 % der Kinder lagen in mindestens zwei Fragebögen oberhalb des klinischen Cut-Offs). Die Rangordnung der Anzahl positiv klassifizierter Kinder mit BS findet sich auch bei den sehenden Kindern mit ASS wieder (SRS > MBAS > FSK).

Empathische Fähigkeiten im Selbst- und Fremdurteil

Hinsichtlich der Einschätzung empathischer Fähigkeiten im Fremdurteil (GEM) zeigte sich, dass Kinder mit BS von ihren Eltern schlechter im Bereich "kognitive Empathie" als die Kontrollgruppe (p = .034), jedoch besser als die Kinder mit ASS eingeschätzt wurden (p < .001). Interessanterweise erreichten die Kinder mit BS hinsichtlich der affektiven Empathie die höchsten Werte der drei Gruppen, signifikant unterschieden sich jedoch nur die Kinder mit BS von den Kindern mit ASS (p = .001). Im Selbsturteil der

Kinder und Jugendlichen (BIE) ergab sich kein Unterschied zwischen den Gruppen. Die Ergebnisse finden sich ebenfalls in Tabelle 1.

Zusammenhänge zwischen ASS-Symptomen, Empathie, Alter und IQ

Um mögliche differenzielle Korrelate von ASS-Symptomen bei Kindern mit BS und Kindern mit ASS ohne BS zu identifizieren, wurden Korrelationsanalysen getrennt für die zwei Gruppen durchgeführt. Der SRS-Gesamtwert wurde gewählt, da er sich als besonders sensitiv für ASS-Symptome bei Kindern mit BS erwiesen hatte. Aufgrund der kleinen Stichprobe und des explorativen Charakters dieser Analyse wurde auf eine Korrektur des Alphaniveaus verzichtet. Es ergaben sich nur in der Gruppe mit BS signifikante negative Korrelationen zwischen dem verbalen IQ und dem SRS-Gesamtwert (r = -.63; p = .012), sowie zwischen der kognitiven Empathie und dem SRS-Gesamtwert

Tabelle 3. Mittelwerte der Subskalen der ASS-Screening-Fragebögen der drei Gruppen.

	Kinder mit BS $(n = 15)$	Kinder mit ASS $(n = 15)^1$	Kontrollgruppe (n = 20)		Statistik		Post-hoc-Test
	(n = 15) Mittelwert (SA)	Mittelwert (SA)	(n = 20) Mittelwert (SA)	F/H	df	р	-
FSK							
Soziale Interaktion	4.3 (2.6)	9.0 (4.2)	1.2 (1.6)	28.06 ^b	2	< .001	(ASS = BS) > KG
Kommunikation	5.3 (2.4)	8.2 (2.8)	2.6 (2.5)	22.46 ^b	2	<.001	(ASS = BS) > KG
Stereotypes Verhalten	4.3 (2.8)	5.5 (1.5)	1.1 (1.3)	23.38 ^b	2	<.001	(ASS = BS) > KG
Kein Bereich	0.2 (0.4)	0.4 (0.3)	0.1 (0.2)	3.49b	2	.175	n.s.
MBAS							
Skala A	20.9 (10.6)	47.5 (7.0)	12.6 (6.1)	86.84ª	2, 47	<.001	ASS > BS > KG
Skala B	19.5 (8.3)	29.9 (8.8)	7.7 (5.7)	31.86 ^b	2	<.001	(ASS = BS) > KG
Skala C	21.5 (7.3)	27.8 (5.4)	5.7 (3.3)	79.20ª	2, 47	<.001	ASS > BS > KG
Skala D	15.5 (4.7)	22.6 (4.8)	4.5 (3.7)	37.40 ^b	2	<.001	(ASS = BS) > KG
SRS							
Soz. Bewusstsein	7.7 (3.1)	15.5 (3.2)	3.1 (3.6)	35.16⁵	2	<.001	ASS > BS > KG
Soz. Kognition	11.9 (7.1)	22.3 (4.2)	3.1 (3.8)	34.74 ^b	2	<.001	ASS > BS > KG
Soz. Kommunikation	14.5 (8.5)	39.7 (6.4)	4.0 (5.3)	37.84 ^b	2	<.001	ASS > BS > KG
Soz. Motivation	9.5 (6.2)	19,9 (3.0)	3.9 (3.0)	32.77b	2	<.001	ASS > BS > KG
Aut. Manierismen	11.6 (7.4)	22.9 (3.5)	1.2 (1.7)	39.27⁵	2	< .001	(ASS = BS) > KG

Anmerkungen: FSK: n = 14. aunivariate Varianzanalyse mit Post-hoc Tukey-Test. Kruskal-Wallis-H-Test mit Post-hoc Dunn-Test. Abkürzungen: ASS = Autismus-Spektrum-Störung, BS = Beeinträchtigungen des Sehens, SA = Standardabweichung, FSK = Fragebogen zur Sozialen Kommunikation, MBAS = Marburger Beurteilungsskala zum Asperger-Syndrom (Skalen: A: Theory of Mind, Kontakt- und Spielverhalten; B: Geteilte Aufmerksamkeit und Freude, Mimik, Gestik; C: Stereotypes und situationsinadäquates Verhalten; D: Auffälliger Sprachstil, Sonderinteressen, Motorik), SRS = Social Responsiveness Scale.

(r = -.67; p = .006). Für die Gruppe mit ASS waren diese beiden Zusammenhänge nicht signifikant (rSRS-IQ = .34; p = .211; rSRS-GEM = -.32; p = .248). Die Höhe der Korrelationskoeffizienten war nur für die Assoziation von SRS und IQ (Z = -2.68; p = .004), aber nicht für die Assoziation von SRS und kognitiver Empathie (Z = -1.17; p = .120) signifikant verschieden zwischen den Gruppen: In der Gruppe mit BS zeigte sich für erstere eine stärkere negative Korrelation.

Diskussion

Anwendbarkeit der ASS-Screening-Fragebögen bei Kindern mit Geburtsblindheit

Die Ergebnisse der vorliegenden, explorativen Studie zeigten, dass die untersuchten Fragenbögen (FSK, MBAS und SRS) nicht ohne Vorbehalt bei Kindern mit Geburtsblindheit angewendet werden können. Nach Angaben der Eltern waren zwar über 90% aller Items prinzipiell beurteilbar, jedoch wurden v.a. Items, die motorische Auffälligkeiten oder Aspekte der gemeinsamen Aufmerksamkeit (joint attention) erfassen, bei Kindern mit Geburtsblindheit als nicht aussagekräftig beurteilt, insbesondere wenn sie intaktes Sehen voraussetzten. Die Gruppe mit Geburtsblindheit zeigte ferner insbesondere auf Subskalen, die entweder Manierismen, (motorische) Stereotypien oder Defizite in Mimik und Gestik erfassen, keine signifikanten Unterschiede im Vergleich zur ASS-Gruppe. So zeigten sich z.B. in den Subskalen Geteilte Aufmerksamkeit und Freude, Mimik, Gestik und Auffälliger Sprachstil, Sonderinteressen, Motorik der MBAS sowie der Skala Autistische Manierismen der SRS keine Unterschiede zwischen Kindern mit Geburtsblindheit und Kindern mit ASS, während die BS-Gruppe in den übrigen Skalen der beiden Fragebögen niedrigerer Werte als die ASS-Gruppe erreichte. Dieser Effekt konnte nicht darauf zurückgeführt werden, dass diese Items intaktes Sehen erforderten, da sie von den Eltern entsprechend kommentiert und in der Auswertung nicht gezählt wurden.

Tabelle 4. Konsistenz der Anzahl als auffällig klassifizierter Kinder mit BS und mit ASS in den drei Fragebögen.

		FSK ¹			MBAS		SRS	
		+	-	+	-	+	-	
		% (n)	% (n)	% (n)	% (n)	% (n)	% (n)	
Kinder mit	Beeinträch	itigung des Sehe	ns (BS)					
FSK	+	47 (7)		27 (4)	27 (3)	60 (6)	20 (1)	
	-		53 (8)	0	73 (8)	40 (4)	80 (4)	
MBAS	+	57 (4)	0	27 (4)		40 (4)	0	
	-	43 (3)	100 (8)		73 (11)	60 (6)	100 (5)	
SRS	+	86 (6)	50 (4)	27 (4)	55 (6)	67 (10)		
	-	14 (1)	50 (4)	0	45 (5)		33 (5)	
Kinder mit	Autismus-	Spektrum-Störu	ng (ASS)					
FSK ¹	+	93 (13)		100 (12)	50 (1)	93 (13)	0	
	-		7 (1)	0	50 (1)	7 (1)	0	
MBAS	+	92 (12)	0	87 (13)		87 (13)	0	
	-	8 (1)	100 (1)		13 (2)	13 (2)	0	
SRS	+	100 (13)	100 (1)	100 (13)	100 (2)	100 (15)		
	_	0	0	0	0		0	

Anmerkungen: ¹ n(ASS) = 14. In jedem Feld sind die im jeweiligen Fragebogen (Zeile) positiv oder negativ auf ASS gescreenten Kinder als Anteil der Kinder, die in den jeweils anderen Fragebögen (Spalte) positiv oder negativ gescreent wurden, angegeben. Die Werte in den grau hinterlegten Feldern zeigen die Kinder, die insgesamt pro Gruppe über den ASS-Cut-Off-Werten lagen. Abkürzungen: + = oberhalb des Cut-Off-Wertes für ASS, - = unterhalb des Cut-Off-Wertes für ASS, FSK = Fragebogen zur Sozialen Kommunikation, MBAS = Marburger Beurteilungsskala zum Asperger-Syndrom, SRS = Social Responsiveness Scale.

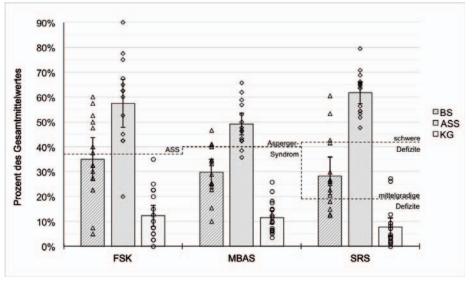


Abbildung 1. Ergebnisse der ASS-Screening-Fragebögen im Gruppenvergleich.

Anmerkungen: Die Balken repräsentieren die Mittelwerte der drei Gruppen in jedem der drei Fragebögen. Die Ergebnisse sind in Prozent des maximal möglichen Wertes dargestellt. Jede Markierung stellt das Ergebnis eines Probanden/einer Probandin dar (BS: Dreiecke, ASS: Quadrate, KG: Kreise). Die Cut-Off-Werte der Fragebögen sind durch die gestrichelten Linien veranschaulicht, für die SRS existieren separate Cut-Off-Werte für Jungen und Mädchen, dargestellt ist der Mittelwert. Abkürzungen: ASS = Autismus-Spektrum-Störung, BS = Beeinträchtigungen des Sehens, FSK = Fragebogen zur Sozialen Kommunikation, MBAS = Marburger Beurteilungsskala zum Asperger-Syndrom, SRS = Social Responsiveness

Motorische Stereotypien wurden regelmäßig bei Kindern mit BS, besonders bei kongenitaler Blindheit, beobachtet (Butchart et al., 2017; Fazzi et al., 2007; Hobson & Lee, 2010; Tröster & Brambring, 1994; Williams et al., 2014). Dazu gehören u.a. Augenbohren, repetitive Handund Fingerbewegungen und wiegende Ganzkörperbewegungen. Es ist fraglich, ob diese Auffälligkeiten als Hinweise auf eine ASS oder eher als Folgeerscheinungen der fehlenden visuellen Stimulation bzw. des fehlenden visuellen Feedbacks interpretiert werden sollten (Butchart et al., 2017; Tröster & Brambring, 1994). Ferner sind motorische Stereotypien auch bei Kindern mit intellektuellen Defiziten oder anderen sensorischen Einschränkungen (de Vaan, Vervloed, Knoors & Verhoeven, 2019) bekannt. Weiterhin stellten Hobson und Lee (2010) fest, dass gerade die auffälligen motorischen Verhaltensweisen von Kindern mit BS im Laufe ihrer Entwicklung remittierten und in der Adoleszenz nur noch eines von neun ehemals mit einer ASS diagnostizierten Kindern die Kriterien weiterhin erfüllte. Das Auftreten motorischer Stereotypien bei Kindern mit BS sollte demnach nur zurückhaltend zum Screening für autistische Störungen erfasst werden.

In dieser Studie wurden, entgegen den Erwartungen, auch einige Items, die intakte visuelle Fähigkeiten vorauszusetzen scheinen, für Kinder mit Geburtsblindheit von ihren Eltern als anwendbar beurteilt (vgl. Tabelle 2). Auch wenn diese Items häufiger auffällig ausfielen, beurteilten einige Müttern sie als anwendbar und bewerteten ihre Kinder als unauffällig. Dies galt exemplarisch für Items, die eine situations- und emotionsadäquate Mimik erfragten (Items 10 und 27 der FSK, Item 44 der MBAS). Es bleibt hier offen, inwieweit die Einschätzung der Eltern die subjektiv wahrgenommenen Fähigkeiten oder die tatsächlichen Kompetenzen ihrer Kinder (möglicherwiese durch besonders gute kompensatorische Fähigkeiten) reflektiert.

In Übereinstimmung mit der Studienlage (Brown, Hobson, Lee & Stevenson, 1997; de Verdier et al., 2018; Ek et al., 1998; Jure et al., 2016) fand sich auch in der hier untersuchten Stichprobe, auch nach Ausschluss von nichtanwendbaren Items, ein deutlich erhöhtes Vorkommen von ASS-Symptomen bei Kindern mit Geburtsblindheit. In Abhängigkeit vom Untersuchungsinstrument erreichten zwischen 27% (MBAS) und 67% (SRS) dieser Kinder in der Elternbeurteilung Werte oberhalb des Cut-Offs für ASS. Die große Spannweite und geringe Konsistenz der Ergebnisse könnte auch durch die Auswahl der Fragebögen und der assoziierten liberalen Cut-Off-Werte bedingt sein. Tatsächlich überschritten nur etwa 20 % der Kinder den konservativsten Grenzwert der SRS. Der in der MBAS vergleichsweise niedrige Anteil auffälliger Kinder könnte auch darin begründet sein, dass diese laut Elternaussage mit ca. 10 % die meisten nichtanwendbaren Items enthielt. Da die Cut-Off-Werte der Fragebögen nicht korrigiert wurden, erreichten weniger Probandinnen und Probanden den klinisch auffälligen Bereich. Anderseits könnte die relativ hohe Zahl positiv getesteter Probandinnen und Probanden in der SRS mit der hohen Anzahl an Fragen (12 Items) im Zusammenhang mit Manierismen erklärt werden. Wie oben beschrieben zeigten Kinder mit BS hier häufig Auffälligkeiten. Bezüglich der Auffälligkeiten im FSK stimmten unsere Ergebnisse (47% über dem Cut-Off) weitestgehend mit denen von Jutley-Neilson et al. (2013) überein (55%). Tatsächlich ließ sich in der Studie von Jutley-Neilson et al. jedoch nur bei etwa der Hälfte dieser, mittels des SCQ positiv gescreenten, Kinder auch klinisch die ASS-Diagnose bestätigen. In unserer Studie zeigte die MBAS die konservativste und in der Gesamtsicht die konsistenteste Klassifikation von ASS bei Kindern mit BS. Allerdings scorten auch nur 87% der Gruppe sehender Kinder mit diagnostizierter ASS über dem Cut-Off in der MBAS.

Zusammenfassend erscheinen die verwendeten Screening-Fragebögen für Autismus-Spektrum-Störungen in ihrer ursprünglichen Form nicht für die Anwendung bei Kindern mit BS geeignet. Selbst unter Ausschluss offensichtlich ungeeigneter Items erreichten Kinder mit Geburtsblindheit auffällig hohe Werte. Bei einigen der erfassten Verhaltensweisen könnte es sich aber auch um reversible Bestandteile der Entwicklung von Kindern mit BS handeln, die nicht im Sinne einer ASS-Diagnose interpretiert werden sollten (Bartoli et al., 2019; Brambring & Asbrock, 2010; de Vaan et al., 2016; Mukaddes et al., 2007). Ähnliches wurde auch bei Kindern mit auditiven Beeinträchtigungen (Knoors & Vervloed, 2012) beobachtet. Des Weiteren sollte beachtet werden, dass Symptome, die bei Kindern mit BS zu einer Autismus-Diagnose führen könnten, u.U. stark vom Ausmaß komorbider zerebralen Schäden oder Intelligenzminderungen abhängen (Fazzi et al., 2019; Kiani et al., 2019). Auch in der untersuchten Stichprobe bestand eine Assoziation zwischen IO und ASS-Symptomen. Zu erwähnen bleibt, dass in der vorliegenden Studie keine Validierung der untersuchten Fragebögen mit an die Sehbehinderung adaptierten Fassungen der Gold-Standard-Untersuchungsinstrumente (z.B. ADOS und ADI) vorgenommen wurde. So kann keine endgültige Aussage zur Prävalenz von ASS unter Kindern mit BS getroffen werden. Dies sollte Aufgabe zukünftiger Forschung sein. Bezüglich der verwendeten Fragebögen ist außerdem die möglicherweise grundsätzlich geringe Spezifität für ASS zu beachten. Die SRS beispielsweise scheint in bestimmten Kontexten eher gene-Beeinträchtigungen und nicht nur spezifisch autistische Symptome zu erfassen (Hus, Bishop, Gotham, Huerta & Lord, 2013).

Allgemeine Psychopathologie und Aufmerksamkeitsdefizite

Kinder mit Geburtsblindheit zeigten laut CBCL im Vergleich zur Kontrollgruppe erhöhte, im Vergleich zur ASS-Gruppe jedoch schwächere internalisierende Verhaltensweisen. Die Skala setzt sich aus den Bereichen Sozialer Rückzug, Körperliche Beschwerden und Ängstlichkeit/Depressivität zusammen. Bislang wurde von verstärkten sozialen Problemen (Maes & Grietens, 2004), vermehrtem sozialen Rückzug (Sharma et al., 2002) und auch von explizit höheren internalisierenden Verhaltensweisen (Teare, 1984) bei Kindern mit sensorischen Defiziten berichtet. Zu beachten ist aber, dass die Items der CBCL ebenfalls nicht für Kinder mit BS angepasst waren. Bestimmte Fragen, z.B. ob das Kind immer ins Leere schaue, sich gelegentlich unterlegen fühle oder körperlich unbeholfen sei, könnten zu den erhöhten Ergebnissen beigetragen haben. Letztendlich lag das Ausmaß der internalisierenden Verhaltensweisen auch nicht im klinisch auffälligen Bereich.

Der FBB-HKS zeigte ebenfalls stärkere Aufmerksamkeitsdefizite in der Gruppe mit Geburtsblindheit im Vergleich zu den Kontrollprobandinnen und -probanden, aber schwächere im Vergleich zur ASS-Gruppe. Nach Konvertierung der Rohwerte in Prozentränge (PR) liegt der Wert der BS-Gruppe zwischen PR 78 und 89 im grenzwertigen Bereich. Möglichweise wiesen Kinder mit BS tatsächlich eine erhöhte Prävalenz von Aufmerksamkeitsstörungen auf (DeCarlo et al., 2014; DeCarlo, Swanson, McGwin, Visscher & Owsley, 2016). Damari, Liu & Smith, (2000) dagegen diskutierten auch hier eine Fehlinterpretation visueller Einschränkungen als Symptome einer Aufmerksamkeitsstörung. Wie auch im Falle der CBCL sollte in Betracht gezogen werden, dass die FBB-HKS nicht für die Anwendung in Populationen mit BS validiert ist.

Empathische Fähigkeiten von Kindern mit Geburtsblindheit

In der Fremdbeurteilung erreichte die Gruppe mit Geburtsblindheit stets zu der KG vergleichbare und signifikant höhere Werte als die Kinder mit ASS. Somit zeigten sich bei Kindern mit Geburtsblindheit – trotz hoher Werte in ASS-Fragebögen – keine Einschränkungen der Empathie, wie sie bei sehenden Kindern mit ASS in der vorliegende Studie und in der Vergangenheit beschrieben wurden (für eine Metaanalyse siehe Song, Nie, Shi, Zhao & Yang, 2019). In der Selbstbeurteilung zeigten sich keine signifikanten Gruppenunterschiede. Die Datenlage zu (v. a. affektiven) empathischen Fähigkeiten von Kindern mit BS ist noch unzureichend. Verminderte Leistungen in einigen typischen ToM-Tests (de Vaan et al., 2016) konnten unter

Anwendung von adäquaten Untersuchungsinstrumenten nicht bestätigt werden (Bartoli et al., 2019; Pijnacker et al., 2012). Eventuell unterliegen ToM-Fähigkeiten bloß einer, durch den fehlenden visuellen Input bedingten, verzögerten Entwicklung (Brambring & Asbrock, 2010).

Assoziation von ASS-Symptomatik und kognitiver Empathie

Die vorliegende Studie zeigte signifikante negative Zusammenhänge zwischen ASS-Symptomen (SRS-Gesamtwert) und kognitiver Empathie (GEM) sowie zwischen SRS und IQ in der Gruppe mit Geburtsblindheit, jedoch nicht in der Gruppe mit ASS. Zusammengenommen mit den Ergebnissen der vorherigen Abschnitte ließe sich hier folgende Hypothese aufstellen: Trotz einer möglicherweise gehäuft falsch-positiven ASS-Klassifikation bei Kindern mit BS könnte eine relevante Subgruppe dieser Kinder die diagnostischen Kriterien für eine ASS erfüllen (Mukaddes et al., 2007), insbesondere bei niedrig ausgeprägter kognitiver Empathie (Bons et al., 2013) und geringeren intellektuellen Fähigkeiten (de Vaan et al., 2016; Ek et al., 1998). Es gilt, diese Kinder früh mit geeigneten Untersuchungsinstrumenten zu identifizieren und ihnen spezifische Förderung zugänglich zu machen.

Limitationen und Ausblick

Diese explorative Studie unterliegt einigen Limitationen. Die kleinen Stichprobengrößen, der Ausschluss von Studienteilnehmerinnen und -teilnehmern mit einem IQ unter 80 sowie die nicht komplett vergleichbare Geschlechterverteilung erschweren die Generalisierbarkeit der Ergebnisse. Des Weiteren wurde die diagnostische Validität der ASS-Screening-Instrumente in dieser Untersuchung nicht mithilfe klinischer ASS-Diagnosen bei Kindern mit Geburtsblindheit überprüft. Ein grundsätzliches Problem ist die fehlende Validierung nahezu aller Untersuchungsinstrumente für Probandinnen und Probanden mit BS. Dies betraf auch die Tests zur Erfassung von Empathie und sonstiger Psychopathologie.

Trotz dieser Einschränkungen verdeutlichen unsere Ergebnisse, dass Kinder mit Geburtsblindheit auf das Vorliegen von ASS untersucht werden sollten, dies aber angepasste und eventuell sogar neu entworfene und validierte Untersuchungsinstrumente erfordert. Der reine Ausschluss von Items, die offensichtlich intaktes Sehen erfordern, erscheint unzureichend. Aufgrund der potenziellen Reversibilität der Symptomatik scheint es umso wichtiger, die sozialen Interaktions- und Kommunikationsfähigkeiten von

Kindern mit BS früh zu fördern, um eine möglichst altersentsprechende Entwicklung zu ermöglichen. Mittels dieser Studie konnte, aufgrund fehlender klinischer Diagnostik bei Kindern mit BS, keine Aussage über Spezifität oder Sensitivität der untersuchten Screening-Instrumente getroffen werden. Unsere Untersuchung soll vorrangig auf potenzielle Probleme bei der Anwendung von Autismus-Screening-Instrumenten bei Kindern mit BS hinweisen und Impulse für zukünftige Forschungsarbeit geben. Während die Erfassung von motorischen Stereotypien, geteilter Aufmerksamkeit und des Weiteren auch das Festhalten an Routinen (de Vaan et al., 2016) eher ungeeignet für Screening-Untersuchungen erscheinen, könnten beispielsweise das Ausmaß sozialer Interaktionsdefizite sowie ausgeprägte Sonderinteressen zur Beurteilung herangezogen werden (de Vaan et al., 2018). Defizitäre ToM, insofern die Erfassung nicht auf visuellen Reizen beruht und die verzögerte Entwicklung berücksichtig wird, scheinen sich ebenfalls für Screening-Verfahren zu eignen (de Vaan et al., 2016). Geteilte Aufmerksamkeit könnte alternativ durch Beobachtung von nichtvisuellen Reaktionen (z.B. Hinweise auf konzentriertes Zuhören oder motorische Reaktionen auf auditive Signale) beurteilt werden (de Vaan et al., 2016; Jure et al., 2016). Abschließend sollte unbedingt die zeitliche Stabilität beobachteter Auffälligkeiten berücksichtigt werden (Hobson & Lee, 2010; Jure et al., 2016). Bei der klinischen Diagnosestellung, u.U. aber auch beim Screening von Kindern mit BS auf ASS, sollten außerdem komorbide neurologische Defizite und das allgemeine intellektuelle Leistungsniveau berücksichtigt werden (de Vaan et al., 2016; Fazzi et al., 2019; Kiani et al., 2019). ASS-Diagnostik im Allgemeinen und bei Kindern mit BS im Speziellen ist mit erheblichem personellem und finanziellem Aufwand verbunden (Bölte & Poustka, 2005). Angepasste Screening-Instrumente bieten eine effektive und kostengünstige Möglichkeit, auffällige Kinder zu identifizieren und weiterer Diagnostik zuzuführen. Die vorhandenen Fragebögen scheinen zu diesem Zweck nur bedingt geeignet und bedürfen ausführlicher Modifikation sowie klinischer Validierung.

Danksagung und Erklärungen

Danksagung

Unser Dank gilt allen Kindern und deren Familien für die Teilnahme an unserer Studie sowie der "Bundesvereinigung Eltern blinder und sehbehinderter Kinder e.V.", der "Louis-Braille-Schule Düren", der "Stiftung Nikolauspflege Stuttgart", dem Verein "Autismus Aachen – Hilfe für das autistische Kind e.V.", der "Autismus-Selbsthilfegruppe Bonn" sowie dem "Autismus-Therapiezentrum Köln" für die Hilfe bei der Rekrutierung der Probandinnen und

Probanden. Darüber hinaus danken wir Astrid Pütz-Ebert für die Unterstützung bei der Dateneingabe.

Förderung

Diese Arbeit wurde durch die Deutsche Forschungsgemeinschaft (DFG) unterstützt (IRTG 1328).

Erklärung über Interessenkonflikte

Prof. Konrad erhält Forschungsförderungen von der DFG, der Europäischen Union (EU), dem Bundesministerium für Bildung und Forschung (BMBF) und der Schweizer Anorexiestiftung. Sie ist Redaktionsmitglied der Fachjournale Cortex, Journal of Child Psychology and Psychiatry, Journal of Neural Transmission und der Zeitschrift für Kinder- und Jugendpsychiatrie und Psychotherapie und erhielt Referentenhonorare der "Shire Deutsch-GmbH". Prof. Herpertz-Dahlmann Forschungsförderungen von der DFG, der EU (ERA-NET), dem BMBF, der Schweizer Anorexiestiftung und dem Ministerium für Arbeit und Soziales des Landes Nordrhein-Westfalen. Sie erhielt Sprecherhonorare der "Ferring Arzneimittel GmbH". Die übrigen Autorinnen und Autoren erklären keine Interessenkonflikte.

Literatur

Absoud, M., Parr, J.R., Salt, A. & Dale, N. (2011). Developing a schedule to identify social communication difficulties and autism spectrum disorder in young children with visual impairment. Developmental Medicine & Child Neurology, 53, 285–288.

Achenbach, T.M. (1991). Manual for the Child Behavior Checklist/4-18 and 1991 profile. Burlington, VT: University of Vermont, Department of Psychiatry.

American Psychiatric Association. (2013). *Diagnostic and statistical manual of mental disorders: DSM-5* (5th ed.). Arlington, VA: American Psychiatric Publishing, Inc.

Bartoli, G., Bulgarelli, D. & Molina, P. (2019). Theory of Mind development in children with visual impairment: The contribution of the adapted comprehensive test ToM Storybooks. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 49, 3494–3503.

Begeer, S., De Rosnay, M., Lunenburg, P., Stegge, H. & Terwogt, M. M. (2014). Understanding of emotions based on counterfactual reasoning in children with autism spectrum disorders. *Autism*, *18*, 301–310.

Bons, D., van den Broek, E., Scheepers, F., Herpers, P., Rommelse, N. & Buitelaar, J. K. (2013). Motor, emotional, and cognitive empathy in children and adolescents with autism spectrum disorder and conduct disorder. *Journal of Abnormal Child Psychology*, 41, 425–443.

Bölte, S., Holtmann, M. & Poustka, F. (2008). The Social Communication Questionnaire (SCQ) as a screener for autism spectrum disorders: Additional evidence and cross-cultural validity. *Journal of American Academy of Child and Adolescent Psychiatry*, 47, 719–721.

Bölte, S. & Poustka, F. (2005). Psychodiagnostische Verfahren zur Erfassung von autistischen Störungen. Zeitschrift für Kinderund Jugendpsychiatrie und Psychotherapie, 33, 5–14.

- Bölte, S. & Poustka, F. (2008). Skala zur Erfassung sozialer Reaktivität (SRS). Bern: Huber.
- Bölte, S., Poustka, F. & Constantino, J. N. (2008). Assessing autistic traits: Cross-cultural validation of the social responsiveness scale (SRS). *Autism Research*, 1, 354–363.
- Bölte, S., Poustka, F. & Rutter, M. (2006). Fragebogen zur Sozialen Kommunikation Autismus Screening. Bern: Huber.
- Brambring, M. & Asbrock, D. (2010). Validity of false belief tasks in blind children. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 40, 1471–1484.
- Brown, R., Hobson, R.P., Lee, A. & Stevenson, J. (1997). Are there "autistic-like" features in congenitally blind children? *Journal of Child Psychology and Psychiatry and Allied Disciplines*, 38, 693–703.
- Bryant, B.K. (1982). An index of empathy for children and adolescents. *Child Development*, 53, 413–425.
- Butchart, M., Long, J.J., Brown, M., McMillan, A., Bain, J. & Karatzias, T. (2017). Autism and visual impairment: A review of the literature. Review Journal of Autism and Developmental Disorders, 4 118–131
- Cass, H.D., Sonksen, P.M. & McConachie, H.R. (1994). Developmental setback in severe visual impairment. Archives of Disease in Childhood, 70, 192–196.
- Constantino, J.N., Davis, S.A., Todd, R.D., Schindler, M.K., Gross, M.M., Brophy, S.L. et al. (2003). Validation of a brief quantitative measure of autistic traits: Comparison of the social responsiveness scale with the autism diagnostic interview-revised. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 33, 427–433.
- Constantino, J. N. & Gruber, J. (2005). Social Responsiveness Scale (SRS) Manual. Los Angeles: Western Psychological Services.
- Dadds, M.R., Hunter, K., Hawes, D.J., Frost, A.D.J., Vassallo, S., Bunn, P. et al. (2008). A measure of cognitive and affective empathy in children using parent ratings. *Child Psychiatry and Human Development*, 39, 111–122.
- Dale, N. (2005). Early signs of development setback and autism in infants with severe visual impairment. In L. Pring (Hrsg.), Autism and blindness: Research and reflections (pp. 74–98). London: Whurr.
- Dale, N. & Salt, A. (2007). Early support developmental journal for children with visual impairment: The case for a new developmental framework for early intervention. *Child: Care, Health and Development*, 33, 684–690.
- Damari, D.A., Liu, J. & Smith, K.B. (2000). Visual disorders misdiagnosed as ADHD case series and literature review. *Journal of Behavioral Optometry*, 11, 87–91.
- DeCarlo, D.K., Bowman, E., Monroe, C., Kline, R., McGwin, G., Jr. & Owsley, C. (2014). Prevalence of attention-deficit/hyperactivity disorder among children with vision impairment. *Journal of AA-POS*, 18, 10–14.
- DeCarlo, D.K., Swanson, M., McGwin, G., Visscher, K. & Owsley, C. (2016). ADHD and vision problems in the national survey of children's health. *Optometry and Vision Science*, 93, 459–465.
- de Vaan, G., Vervloed, M.P.J., Hoevenaars-van den Boom, M., Antonissen, A., Knoors, H. & Verhoeven, L. (2016). A critical review of screening and diagnostic instruments for autism spectrum disorders in people with sensory impairments in addition to intellectual disabilities. *Journal of Mental Health Research in Intellectual Disabilities*, 9, 36–59.
- de Vaan, G., Vervloed, M.P.J., Knoors, H. & Verhoeven, L. (2019). Profiles of stereotyped behaviour in people with combined sensory impairments and intellectual disabilities. *British Journal of Visual Impairment*, 38, 168–183.
- de Vaan, G., Vervloed, M.P.J., Peters-Scheffer, N.C., van Gent, T., Knoors, H. & Verhoeven, L. (2018). Assessing autism spectrum disorder in people with sensory impairments combined with

- intellectual disabilities. *Journal of Developmental and Physical Disabilities*, 30, 471–487.
- de Verdier, K., Ulla, E., Löfgren, S. & Fernell, E. (2018). Children with blindness major causes, developmental outcomes and implications for habilitation and educational support: A two-decade, Swedish population-based study. *Acta Ophthalmologica*, 96, 295–300.
- Deutsche Gesellschaft für Kinder- und Jugendpsychiatrie, Psychosomatik und Psychotherapie e.V. (Hrsg.). (2016). Langfassung der Leitlinie "Autismus-Spektrum-Störungen im Kindes-, Jugend- und Erwachsenenalter, Teil 1: Diagnostik". Verfügbar unter https://www.awmf.org/leitlinien/detail/ll/028-018.html
- Döpfner, M. & Lehmkuhl, G. (1998). Diagnostik-System für psychische Störungen im Kindes- und Jugendalter nach ICD-10 und DSM-IV (DISYPS-KJ). Bern: Huber.
- Ecker, C., Schmeisser, M.J., Loth, E. & Murphy, D.G. (2017). Neuroanatomy and neuropathology of autism spectrum disorder in humans. Advances in Anatomy, Embryology and Cell Biology, 224, 27–48
- Ek, U., Fernell, E., Jacobson, L. & Gillberg, C. (1998). Relation between blindness due to retinopathy of prematurity and autistic spectrum disorders: A population-based study. *Developmental Medicine and Child Neurology*, 40, 297–301.
- Fazzi, E., Micheletti, S., Galli, J., Rossi, A., Gitti, F. & Molinaro, A. (2019). Autism in children with cerebral and peripheral visual impairment: Fact or artifact? Seminars in Pediatric Neurology, 31, 57–67.
- Fazzi, E., Rossi, M., Signorini, S., Rossi, G., Bianchi, P.E. & Lanzi, G. (2007). Leber's congenital amaurosis: Is there an autistic component?. Developmental Medicine and Child Neurology, 49, 503–507.
- Fombonne, E., Quirke, S. & Hagen, A. (2011). Epidemiology of pervasive developmental disorders. In D.G. Amaral, G. Dawson & D.h. Geschwind (Hrsg.), *Autism spectrum disorders* (pp. 90–111). New York: Oxford University Press,.
- Gilbert, C. (2007). Changing challenges in the control of blindness in children. *Eye*, *21*, 1338–1343.
- Gilbert, C. (2008). Retinopathy of prematurity: A global perspective of the epidemics, population of babies at risk and implications for control. *Early Human Development*, 84, 77–82.
- Greimel, E., Schulte-Rüther, M., Kamp-Becker, I., Remschmidt, H., Herpertz-Dahlmann, B. & Konrad, K. (2011). Selbst- und Fremdbeurteilung der Empathie bei Jugendlichen mit Autismus. Zeitschrift für Kinder- und Jugendpsychiatrie und Psychotherapie, 39, 113–121.
- Hobson, R.P. & Bishop, M. (2003). The pathogenesis of autism: Insights from congenital blindness. *Philosophical Transactions of the Royal Society of London. Series B, Biologial sciences*, 358, 335–344.
- Hobson, R.P. & Lee, A. (2010). Reversible autism among congenitally blind children? A controlled follow-up study. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 51, 1235–1241.
- Hus, V., Bishop, S., Gotham, K., Huerta, M. & Lord, C. (2013). Factors influencing scores on the social responsiveness scale. *Journal* of Child Psychology and Psychiatry, 54, 216–224.
- Jure, R. (2019). Autism pathogenesis: The Superior colliculus. *Frontiers in Neuroscience*, 12, 1029.
- Jure, R., Pogonza, R. & Rapin, I. (2016). Autism spectrum disorders (ASD) in blind children: Very high prevalence, potentially better outlook. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 46, 749–759.
- Jutley-Neilson, J., Harris, G. & Kirk, J. (2013). The identification and measurement of autistic features in children with septo-optic dysplasia, optic nerve hypoplasia and isolated hypopituitarism. *Research in Developmental Disabilities*, 34, 4310–4318.

- Kamp-Becker, I., Mattejat, F., Wolf-Ostermann, K. & Remschmidt, H. (2005). Die Marburger Beurteilungsskala zum Asperger-Syndrom (MBAS) – ein Screening-Verfahrenfür autistische Störungen auf hohem Funktionsniveau. Zeitschrift für Kinder- und Jugendpsychiatrie und Psychotherapie, 33, 15–26.
- Keeler, W.R. (1956). Autistic patterns and defective communication in blind children with retrolental fibroplasia. Proceedings of the Annual Meeting of the American Psychopathological Association, 64–83.
- Kiani, R., Bhaumik, S., Tyrer, F., Bankart, J., Miller, H., Cooper, S.A. et al. (2019). The relationship between symptoms of autism spectrum disorder and visual impairment among adults with intellectual disability. *Autism Research*, 12, 1411–1422.
- Knoors, H. & Vervloed, M.P.J. (2012). Educational programming for deaf children with multiple disabilities: Accommodating special needs. In M. Marschark & P.E. Spencer (Hrsg.), The Oxford handbook of deaf studies, language, and education, Vol. 1 (2nd ed., pp. 82–94). New York: Oxford University Press.
- Lamm, C., Bukowski, H. & Silani, G. (2016). From shared to distinct self-other representations in empathy: Evidence from neurotypical function and socio-cognitive disorders. *Philosophical Transactions of the Royal Society of London, Series B, Biological Sciences*, 19, 371.
- Lord, C., Rutter, M., DiLavore, P.C., Risi, S., Gotham, K. & Bishop, S. (2012). Autism Diagnostic Observation Schedule, Second Edition. Torrance, CA: Western Psychological Services.
- Lord, C., Rutter, M. & Le Couteur, 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
- Maes, B. & Grietens, H. (2004). Parent-Reported Problem Behavior Among Children With Sensory Disabilities Attending Elementary Regular Schools. *Journal of Developmental and Physical Disabilities*, 16, 361–375.
- Martins, A.T., Faísca, L., Vieira, H. & Gonçalves, G. (2019). Emotional recognition and empathy both in deaf and blind adults. *Journal of Deaf Studies and Deaf Education*, 24, 119–127.
- Mazza, M., Pino, M.C., Mariano, M., Tempesta, D., Ferrara, M., De Berardis, D. et al. (2014). Affective and cognitive empathy in adolescents with autism spectrum disorder. *Frontiers in Human Neurosciences*, 8, 791.
- Mukaddes, N.M., Kilincaslan, A., Kucukyazici, G., Sevketoglu, T. & Tuncer, S. (2007). Autism in visually impaired individuals. *Psychiatry and Clinical Neurosciences*, 61, 39–44.
- Peterson, C.C. & Siegal, M. (2000). Insights into theory of mind from deafness and autism. *Mind & Language*, 15, 123–145.
- Pijnacker, J., Vervloed, M.P. & Steenbergen, B. (2012). Pragmatic abilities in children with congenital visual impairment: An exploration of non-literal language and advanced theory of mind understanding. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 42 2440–2449
- Roch-Levecq, A.C. (2006). Production of basic emotions by children with congenital blindness: Evidence for the embodiment of theory of mind. *British Journal of Developmental Psychology*, 24, 507–528.
- Rogers, S.J. & Newhart-Larson, S. (1989). Characteristics of infantile autism in five children with Leber's congenital amaurosis. Developmental Medicine and Child Neurology, 31, 598–608.
- Rutter, M., Bailey, A. & Lord, C. (2003). Social Communication Questionnaire. Los Angeles: Western Psychological Services.
- Rydzewska, E., Hughes-McCormack, L.A., Gillberg, C., Henderson, A., MacIntyre, C., Rintoul, J. et al. (2019). Prevalence of sensory impairments, physical and intellectual disabilities, and mental

- health in children and young people with self/proxy-reported autism: Observational study of a whole country population. *Autism*, 23, 1201–1209.
- Schwenck, C., Schmitt, D., Sievers, S., Romanos, M., Warnke, A. & Schneider, W. (2011). Kognitive und emotionale Empathie bei Kindern und Jugendlichen mit ADHS und Störung des Sozialverhaltens. Zeitschrift für Kinder- und Jugendpsychiatrie und Psychotherapie, 39, 265–276.
- Sharma, S., Sigafoos, J., Carroll, A., Sharma, S., Sigafoos, J. & Carroll, A. (2002). Challenging behaviour among Indian children with visual impairment. *British Journal of Visual Impairment*, 20, 4–6
- Song, Y., Nie, T., Shi, W., Zhao, X. & Yang, Y. (2019). Empathy impairment in individuals with autism spectrum conditions from a multidimensional perspective: A meta-analysis. *Frontiers in Psychology*, 10, 1902.
- Teare, J.F. (1984). Behavioral adjustment of children attending a residential school for the blind. *Journal of Developmental and Behavioral Pediatrics*, 5, 237–240.
- Tewes, U., Rossmann, P. & Schallberger, U. (Hrsg.). (1999). Hamburg-Wechsler-Intelligenztest für Kinder (3. Aufl.). Bern: Huber.
- Tröster, H. & Brambring, M. (1994). The play behavior and play materials of blind and sighted infants and preschoolers. *Journal of Visual Impairment & Blindness*, 88, 421–432.
- Vervloed, M.P.J., van den Broek, E.C.G. & van Eijden, A.J.P.M. (2019). Critical review of setback in development in young children with congenital blindness or visual impairment. *International Journal of Disability, Development and Education*, 1–20.
- World Health Organization. (2018). International classification of diseases for mortality and morbidity statistics (11th revision). Verfügbar unter https://icd.who.int/browse11/l-m/en
- Williams, M.E., Fink, C., Zamora, I. & Borchert, M. (2014). Autism assessment in children with optic nerve hypoplasia and other vision impairments. *Developmental Medicine and Child Neurology*, 56, 66–72.
- Wrzesinska, M., Kapias, J., Nowakowska-Domagala, K. & Kocur, J. (2017). Visual impairment and traits of autism in children. *Psychiatria Polska*, *51*, 349–358.
- Yuen, T., Carter, M.T., Szatmari, P. & Ungar, W.J. (2018). Cost-effectiveness of universal or high-risk screening compared to surveillance monitoring in autism spectrum disorder. *Journal of Autism and Development Disorders*, 48, 2968–2979.
- Zin, A. & Gole, G.A. (2013). Retinopathy of prematurity-incidence today. *Clinics in Perinatology*, 40, 185–200.

Frau Univ.-Prof. Dr. rer. nat. Kerstin Konrad

Lehr- und Forschungsgebiet Klinische Neuropsychologie des Kindes- und Jugendalters Klinik für Psychiatrie, Psychosomatik und Psychotherapie des Kindes- und Jugendalters Universitätsklinikum der RWTH Aachen Neuenhofer Weg 21 52074 Aachen Deutschland

kkonrad@ukaachen.de