

## Over het gedrag van dragers

Rede uitgesproken door

**Thérèse van Elderen**

bij de aanvaarding van het ambt van Bijzonder Hoogleraar in de Psychologische Aspecten van Dragerschap van Erfelijke Ziekten, in het bijzonder bij Allochtonen aan de Universiteit Leiden op Vrijdag 8 Maart 2002.



Mijnheer de Rector Magnificus, leden van het bestuur van de Vereniging Samenwerkende Ouder- en Patientenorganisaties (VSOP), leden van het curatorium van deze bijzondere leerstoel, zeer gewaardeerde toehoorders,

In de jaren 70 reed ik, mij van geen gevaar bewust, in een buggy. Ik had drie kinderen in mijn auto, allemaal zonder autogordels. Autogordels bestonden nog niet. Wel had ik een voorloper van een autogordel in mijn auto om te voorkomen dat het ene kind terwijl ik reed het andere kind in een reiswieg in de ogen zou prikken. Dit werd toen als zeer zorgvuldig ervaren. Langzamerhand kwamen er steeds meer auto's op de markt met autogordels. De aanvankelijke weerstand was groot. De meeste mensen vonden gordels lastig in het gebruik en zagen gordels ook als een vrijheidsbeperking achter het stuur. Die weerstand uitte zich onder andere in irrationele risicopercepties. Wanneer je in het kanaal zou rijden, zou je nooit meer uit de auto kunnen komen! Alhoewel Nederland veel kanalen heeft, was dit niet het grootste verkeersrisico in die tijd.

In deze eerste fase konden mensen zelf de keuze maken tussen wel of geen autogordels dragen. In een proces dat jaren geduurd heeft zijn we langzamerhand, sommige mensen wat eerder dan anderen, gordels gaan dragen. Pas veel later werd het dragen van autogordels wettelijk verplicht gesteld. Feitelijk is in dit proces van "social engineering" met de persoonlijke vrijheid van de burger rekening gehouden. Bekeuringen werden pas gegeven toen de maatregel door de meerderheid was geaccepteerd, toen er als het ware een draagvlak was gecreëerd. Zoals het dragen van autogordels een nieuwe voorziening was, waarvan steeds meer mensen gebruik gingen maken, is dat ook van toepassing voor dragerschapsonderzoek.

De titel van mijn leerstoel "Psychologische Aspecten van Dragerschap van Erfelijke Ziekten, in het bijzonder bij Allochtonen" vraagt naar verdere specificering en precisering: wat verstaan we onder allochtonen, welke erfelijke ziekten, en welke psychologische aspecten van dragerschap zijn in het geding? Kortom, wat is er te zeggen "over het gedrag van dragers", de titel van deze oratie?

Het begrip allochtonen wordt ons door betreffende personen vaak niet in dank afgenomen. Treffend werd dit door hen zelf verwoord in het gezegde: "Waar iedereen zich thuis voelt is niemand allochtoon". Ik praat daarom liever over migranten of etnische minderheden.

Welke erfelijke ziekten?

Wanneer ik het heb over erfelijke ziekten in de omschrijving van de leerstoel, dan staat centraal dat het humane genoom project het erfelijk materiaal geheel in kaart gebracht heeft. Dit betekent dat mutaties in de genen kunnen worden opgespoord. Genetische mutaties of defecten informeren ons over de kansen van ziek wor-

den voor onszelf, maar ook voor ons nageslacht. Elke eigenschap (behoudens enkele eigenschappen die via de geslachtschromosomen worden overgeërfd) wordt bepaald door twee genetische codes. Sommige codes of genmutaties zijn dominant. Wanneer een ziekte monogeen, alleen door één dominant gen, met 100% expressie wordt bepaald, betekent dit dat iemand die het gen van één van de ouders geërfd heeft de ziekte ook krijgt, al bij de geboorte of later in het leven.

Een voorbeeld van zo'n monogeen bepaalde ziekte die pas later in het leven tot uiting komt is de ziekte van Huntington, een neurodegeneratieve ziekte met ernstige symptomen. Wanneer één van beide ouders drager is, heeft elk kind een kans van 50% om de ziekte te krijgen. Wat in het kader van deze lezing belangrijk is, is dat dragers de ziekte zeker krijgen. Niet bekend is echter op welke leeftijd de ziekte zich zal openbaren, maar meestal is dit tussen 35 en 50 jaar. De ziekte is bekend in de families die het gen dragen, huisartsen kennen het ziektebeeld en verwijzen familieleden naar neurologie of naar een klinisch genetisch centrum voor erfelijkheidsadviesing. Indien gewenst kan dan een geïnformeerde keuze gemaakt worden voor dragerschapsonderzoek. Bij deze erfelijke ziekten speelt het probleem niet zozeer hoe de gezondheidszorg de mensen bereikt. Artsen, immers, weten de weg en verwijzen mensen door.

Maar niet iedereen loopt deze uitgestippelde route!

Voor een psycholoog zijn de belangrijke onderzoeksvragen “over het gedrag van dragers” dan: welke motieven hebben mensen om wel of geen dragerschapsonderzoek te laten doen, wat zijn de psychosociale gevolgen van een positieve of negatieve uitslag en zeker ook hoe kunnen bepaalde methodieken van erfelijkheidsadviesing een bijdrage leveren aan de kwaliteit van leven van dragers, zowel voor als na het uitbreken van de ziekte?

Terug naar de erfelijke ziekten.

Er zijn ook erfelijke ziekten die monogeen recessief zijn. Een recessieve genmutatie, monogeen verantwoordelijk voor een bepaald ziektebeeld, komt alleen tot expressie wanneer beide ouders drager waren van deze mutatie en ook beiden deze mutatie aan een kind hebben doorgegeven. Wanneer beide ouders dus één aanleg hebben voor het ziektebeeld en één aanleg gezond, zijn zij zelf gezond en hebben geen of nauwelijks klachten. Wel is er iedere zwangerschap een kans van 25% dat zij allebei de mutatie voor de erfelijke ziekte doorgeven en dat dus een baby geboren wordt met de erfelijke ziekte.

Voorbeelden van ziekten die zo overerven zijn cystische fibrose ofwel taaislijmziekte en hemoglobinopathieën. Cystische fibrose komt meer voor bij van oorsprong Nederlanders, hemoglobinopathieën ofwel erfelijke vormen van bloedarmoede meer bij migranten. Beide ziektebeelden kunnen al op zeer jonge leeftijd ernstige klachten met zich mee brengen.

In dit geval moeten wij het gedrag van dragers in een heel ander daglicht zien. Draggers zijn zich veelal niet bewust van het feit dat zij drager zijn. Hier ligt de problematiek nog vooral in het niet gebruiken van de genetische expertise. Mensen die niet op de hoogte zijn van de risico's die zij lopen voor hun nageslacht, maken geen gebruik van erfelijkheidsadvisering en dragerschapsonderzoek. Daar komt bij dat medische en paramedische hulpverleners in Nederland vaak ook te weinig kennis en ervaring hebben met hemoglobinoopathiën als ziektebeelden. Mensen worden daarom ook onvoldoende doorverwezen voor erfelijkheidsadvisering en dragerschapsonderzoek.

Migranten kennen de weg dus niet! "Gedrag van dragers" houdt voor deze groep van potentiële dragers in dat zij veelal in onwetendheid leven en geconfronteerd worden met het ziektebeeld, wanneer kinderen eenmaal geboren zijn. Zo kan het gebeuren dat hemoglobinoopathiën pas geruime tijd na de geboorte worden vastgesteld en dat te laat met adequate behandeling wordt gestart (Davies et al., 1993).

Ik wil mijn betoog verder toespitsen op psychologische aspecten van dragerschap van deze recessieve genmutaties die kunnen leiden tot hemoglobinoopathiën.

Voor gezondheidspsychologen is in het geval van migranten allereerst de vraag belangrijk hoe de barrières van deze grote groep van potentiële dragers naar geïnformeerde keuzes omtrent dragerschapsonderzoek overbrugd kunnen worden. Hoe kunnen we er voor zorgen dat een grote groep van dragers profiteert van de moleculair biologische en genetische kennis die de medische wetenschap heeft verworven?

Voordat we aan de toepassing van genetische kennis kunnen beginnen, roept dit probleem echter eerst verschillende ethische vragen op. Terwijl enerzijds geijverd wordt om mensen in staat te stellen geïnformeerde keuzes te maken voor wel of geen dragerschapsonderzoek, is er anderzijds ook een behoudende stroming in onze maatschappij, waarvan de representanten wijzen op het recht van mensen om "niet te weten". Is voorzichtigheid geboden of wenden we genetische kennis aan om mensen veel onnodig verdriet en lijden te besparen? Er zijn grote verschillen tussen landen in de mate waarin dragerschapsonderzoek is ingevoerd. In de Volksrepubliek China bijvoorbeeld zijn in 1994 verregaande wettelijke maatregelen genomen om te voorkomen dat mensen geboren worden met 'genetische ziekten van ernstige aard'. Indien prenataal onderzoek uitwijst dat sprake zal zijn van een genetische ziekte van ernstige aard, zal de arts directief adviseren om de zwangerschap te beëindigen (Harper, 1997). In onze Westerse maatschappij hebben wij bedenkingen tegen deze vorm van 'social engineering', omdat wettelijke maatregelen, ook als deze de gezondheid bevorderen, een ernstige beperking van de keuzevrijheid met zich mee brengen. Maar ook bij minder inbreuk op persoonlijke vrijheid, wanneer mensen uit vrije keuze beslissen om dragerschapsonderzoek te laten verrichten, kan bevestiging van dragerschap pro-

blemen opleveren. De wetenschap drager te zijn, ook al leidt dragerschap niet tot ziekte, kan er toe leiden dat dragers spijt hebben van het onderzoek, zich zorgen maken over hun dragerschap (Clausen et al., 1996) of toch bepaalde symptomen ontwikkelen. Volgens Leventhal en collega's (1980) zijn mensen immers geneigd op basis van symptomen een diagnose te zoeken en op basis van een diagnose symptomen te krijgen of toe te schrijven aan de diagnose.

Een specifiek ethisch probleem voor migranten is de mogelijkheid van stigmatisering binnen de eigen groep. Ongetrouwde vrouwen en ook hun ouders kunnen zich zorgen maken over het krijgen van een passende partner bij bewezen dragerschap. Het zou kunnen zijn dat dochters in dat geval veel minder keuzemogelijkheden hebben en alleen kunnen trouwen met oudere mannen die reeds kinderen hebben.

Een tweede ethisch probleem bij migranten is dat discriminatie een rol kan spelen. Dit probleem ontstaat echter juist naar de Nederlandse samenleving toe, wanneer kinderen met de ziekte geboren worden. Helaas heerst een hardnekkig misverstand. Europeanen hebben nog wel eens de neiging om te denken dat huwelijken binnen de familie ofwel consanguine huwelijken erfelijke ziekten veroorzaken. Het gevaar dreigt dat het krijgen van kinderen met een erfelijke ziekte wordt gezien als een ongeluk dat voorkomen had kunnen worden. "Dan moeten migranten maar niet binnen de familie trouwen". Vergeten wordt dat binnen de familie trouwen alleen een verhoogd risico voor erfelijke vormen van bloedarmoede met zich mee brengt, wanneer in de familie het gen aanwezig is. In dit kader spreekt men wel van 'victim blaming'. Er wordt zelfs gewezen op het gevaar van een houding in de gezondheidszorg van eigen schuld. "Dan moet men er ook maar voor boeten en zelf de consequenties dragen". Migranten zijn extra kwetsbaar in dit opzicht. Juist het krijgen van kinderen met ernstige vormen van hemoglobinopathieën zou daarom aanleiding kunnen zijn tot verering van discriminatie. Preventie mag dus zeker niet ten koste gaan van de medische en psychosociale zorg die aan patiënten met erfelijke ziekten geboden moet worden.

Laveren tussen "het recht van mensen om te weten en het recht om niet te weten" is dan ook een moeilijke opgave. Wat is "good practice" in het aanbieden van mogelijkheden van erfelijkheidsadvisering en dragerschapsonderzoek? De Vereniging Samenwerkende Ouder- en Patiëntenorganisaties heeft rond ethische vraagstukken een beleidsadviesgroep Ethiek ingesteld, en een aantal uitgangspunten geformuleerd in een Ethisch Manifest (1997). Het is de bedoeling dat deze uitgangspunten richting geven aan een algemeen maatschappelijk beleid op dit terrein. Daarnaast moet een ethisch verantwoorde beslissing van wel of geen dragerschapsonderzoek aanbieden in ieder geval gebaseerd zijn op een aantal inhoudelijke argumenten.

## *Welke argumenten spreken voor dragerschapsonderzoek voor hemoglobinopathieën?*

### Argument 1 : Incidentie en prevalentie

Hemoglobinopathieën ofwel erfelijke vormen van bloedarmoede betreffen afwijkingen in de synthese van het belangrijkste eiwit in de rode bloedcellen. Ieder jaar worden wereldwijd ongeveer 300.000 pasgeborenen verwacht met een ernstige vorm van erfelijke bloedarmoede. Dragere van genmutaties voor hemoglobinopathieën hebben een verhoogde resistentie tegen malaria tropica en vertonen geen of geringe klinische verschijnselen (Giordano & Harteveld, 1998). Omdat niet-dragers vaker dan dragers vóór de geslachtsrijpe leeftijd ten gevolge van malaria overlijden, krijgen dragers vaker kinderen dan niet-dragers. Als gevolg van deze natuurlijke selectie ("survival of the fittest") zijn er relatief veel dragers van genmutaties voor hemoglobinopathieën in gebieden waar malaria veel voorkomt, zoals in Azië, het Midden-Oosten, Afrika en het Middellandse Zeegebied. Recente immigratie vanuit deze gebieden in de twintigste eeuw heeft de hemoglobinopathieën onder andere geïntroduceerd in de Noord-Europese landen. In Nederland wordt het aantal dragers onder de autochtone populatie geschat op > 0.1% (ongeveer 1 op 1300 personen) en onder de allochtone populatie op 4 – 10% (gemiddeld ongeveer 1 op 15 personen), afhankelijk van de aard van de erfelijke bloedarmoede en het land van herkomst. Tenminste 100.000 migranten in Nederland zijn drager van een vorm van erfelijke bloedarmoede (Giordano, 1998). Momenteel worden jaarlijks tenminste 40 pasgeborenen verwacht met ernstige vormen van erfelijke bloedarmoede. Zonder preventie wordt geschat dat de prevalentie in de toekomst op zal lopen tot een groep van meer dan 1000 patiënten (Giordano & Breuning, 2000).

### Argument 2: Ernst van de ziekten en vroegtijdige mortaliteit

De twee belangrijkste vormen van erfelijke bloedarmoede zijn sikkelcelziekte en thalassemie. Sikkelcelziekte ontstaat door een kwalitatieve stoornis in de aanmaak van hemoglobine, waardoor vervorming van de erythrocyten tot sikkelcellen optreedt. Acute infecties, eventueel met fatale afloop, ernstige pijn aanvallen, infarcten in allerlei organen en ernstige hemolytische crises kunnen hiervan het gevolg zijn. Bij thalassemie major is sprake van onvoldoende aanmaak van een bestanddeel van het hemoglobine. Hierdoor kan ernstige bloedarmoede ontstaan. Vanaf de 6<sup>e</sup> maand na de geboorte kunnen bij beide ziektebeelden symptomen optreden. Met sikkelcelziekte kunnen mensen ondanks ernstige klachten oud worden, patiënten met thalassemie major overlijden meestal voor hun veertigste levensjaar. Zowel bij sikkelcelziekte als thalassemie major kan de kwaliteit van leven door klachten, bloedtransfusies en regelmatig gebruik van subcutane infusen ernstig zijn aangetast (Giordano & Breuning, 2000). Tegenwoordig is ook beenmergtransplantatie mogelijk indien een geschikte donor aanwezig is.

### Argument 3 : Preventie is mogelijk in Nederland.

Momenteel is de situatie nog meestal zo dat de huisarts of specialist op basis van klachten en/of een anamnese voor bloedonderzoek doorverwijst naar een klinisch chemisch laboratorium. Door middel van een eenvoudig bloedonderzoek kan nagegaan worden of iemand drager is van erfelijke bloedarmoede. Van de Noord-Europese landen kent Nederland echter het grootste aantal hemoglobinopathie-defecten vanwege een hoge ethnische diversiteit. Aan onze universiteit is dan ook een complete hemoglobinopathie-diagnostiek ontwikkeld, zowel op hematologisch als op DNA niveau, die met alle voorkomende defecten rekening houdt (Giordano, 1998). Wij hebben in Nederland dus de vereiste expertise voor dragerschapdiagnostiek. Bovendien moeten wij ons realiseren dat dragerschapsonderzoek bij ouders, prenataal onderzoek bij risicoparen en selectieve abortus de prevalentie van hemoglobinopathiën in sommige landen sterk hebben teruggedrongen, met name in Cyprus, Sicilië en Sardinië (Modell & Kuliev, 1991). Ook in de Arabische landen zijn programma's geïmplementeerd gericht op preventie. Het gegeven dat veel Islamitische religieuze leiders beëindiging van zwangerschap in geval van ernstige genetische aandoeningen in de eerste 100 dagen van de zwangerschap hebben geaccepteerd, heeft de afgelopen vier jaar geleid tot de ontwikkeling van geëigende technologieën en zorginstellingen in Iran, Saoedi-Arabië, Irak, en Jordanië (Angastiniotis, 2001).

Argument 4: Migranten maken veel minder dan van oorsprong Nederlanders gebruik van erfelijkheidsadvisering en dragerschapsonderzoek.

Ondanks aanwezige expertise voor diagnostiek, en ondanks een positieve opstelling van veel Islamitische religieuze leiders in landen van herkomst, zijn er in Noord-Amerikaanse en Noord-Europese landen grote problemen, omdat migranten zoveel verschillende ethnische achtergronden hebben. Deze diversiteit in culturen stelt hoge eisen aan de aanpassing van de medische zorg. Giordano (1998) concludeert dat Engeland het enige Noord-Europese land is dat tot dusver efficiënt functionerende diagnostische en preventieve hemoglobinopathie-centra kent en dat Nederland een grote achterstand heeft, ook ten opzichte van België en Duitsland. Er zijn echter geen exacte gegevens in Nederland over het zorggebruik van migranten in verband met erfelijke ziekten. In klinisch genetische centra wordt niet geregistreerd op etniciteit. Het is daarom momenteel onmogelijk om nauwkeurig na te gaan in welke mate en voor welke adviesvragen migranten klinisch genetische centra bezoeken.

Een uitzondering vormt het klinisch genetisch centrum in Rotterdam, een van de acht klinisch genetische centra in Nederland. Hier werd wel geregistreerd in de medische dossiers in welk land adviesvragers geboren zijn. Teneinde de klinische indruk van een relatief laag zorggebruik te objectiveren heb ik samen met enkele collega's (Van Elderen, Bertina, Talan, en Van Steenberghe, in voorbereiding) over het jaar 1998 vanuit de medische dossiers onderzoek gedaan naar het aantal en de aard



van de adviesvragen van migranten. Deze gegevens werden vergeleken met de adviesvragen van van oorsprong Nederlanders.

Uit dit onderzoek kunnen een aantal duidelijke conclusies getrokken worden.

Migranten komen voornamelijk voor erfelijkheidsadvisering naar het klinisch genetisch centrum in verband met geconstateerde afwijkingen in een eerdere zwangerschap en minder dan van oorsprong Nederlanders in verband met zwangerschap op oudere leeftijd of problemen in de voorgeschiedenis of familiegeschiedenis. Dit houdt in dat zij noch voor hemoglobinopathieën, noch voor bijvoorbeeld erfelijke vormen van borstkanker naar het klinisch genetisch centrum verwezen werden. Bij navraag in de ziekenhuizen bleek dat weliswaar op medische indicatie vanwege bijvoorbeeld bloedarmoede onderzoek wordt uitgevoerd in de klinisch chemische laboratoria, maar dat bij bewezen dragerschap van hemoglobinopathieën niet doorverwezen werd naar een klinisch genetisch centrum. Erfelijkheidsadvisering wordt vervolgens door de huisartsen of door specialisten van het ziekenhuis zelf verzorgd. Op basis van deze weliswaar nog onvolledige registratie, kan toch met grote waarschijnlijkheid gesteld worden dat er een drempel bestaat voor etnische minderheden om deel te nemen aan klinisch genetische zorg en dat maatregelen nodig zijn ter bevordering van erfelijkheidsadvisering en dragerschapsonderzoek voor hemoglobinopathieën.

## BIJDRAGE GEZONDHEIDSPSYCHOLOGIE

De gezondheidspsychologie onderzoekt psychosociale antecedenten en consequenten van lichamelijke ziekten. Waarom is de ene hartpatiënt depressief na een hartinfarct en de ander niet? Waarom draagt de ene mens autogordels en de ander niet? En waarom laat de ene persoon dragerschapsonderzoek doen en de ander niet?

In het kader van hemoglobinopathieën wil ik, gelet op de beperkte tijd, een tweetal vragen aan de orde stellen:

1. Welke determinanten bepalen of potentiële dragers dragerschapsonderzoek laten doen? En daaraan geralateerd
2. Hoe kan bevorderd worden dat migranten geïnformeerde keuzes maken rond dragerschapsonderzoek?

Hoe nu pakt een gezondheidspsycholoog deze vragen empirisch-analytisch, d.w.z. systematisch methodisch en vanuit een theoretisch uitgangspunt aan? Een combinatie is noodzakelijk van theorieën op macro- en microniveau, gepaard aan een flexibele hantering van de methodologie. Uiteindelijk gaat het immers om de implementatie van voorzieningen die voor grote groepen van mensen toegankelijk moeten zijn, maar momenteel nog maar op zeer kleine schaal worden toegepast. Denk aan de vergelijking met de invoering van autogordels.

Op *macro-niveau* is voor ons bijvoorbeeld de zgn. “Communication of Innovations” theorie (Rogers & Shoemaker, 1971) relevant. Deze theorie leert ons dat de snelheid waarmee een bepaalde vernieuwing in de maatschappij wordt geaccepteerd en ingevoerd, niet alleen afhankelijk is van kenmerken van de vernieuwing zelf en van de doelgroep, maar ook van kenmerken van personen die verantwoordelijk zijn voor de uitvoering van de vernieuwing en van karakteristieken van een bepaalde samenleving. Deze theorie geeft verder aan dat het aantal personen, dat een vernieuwing of maatregel accepteert en uitvoert, langs een tijdlijn beschreven kan worden in een S-curve. “Vernieuwers” of “Innovators” vormen het beginstuk van de S en “Treuzelaars” of “Laggards” het eindstuk. Een stijle S geeft een snelle invoer aan.

De vergelijking met de autogordels maakte al duidelijk dat een vernieuwing en dus ook dragerschapsonderzoek niet door iedereen met dezelfde snelheid wordt geaccepteerd. Sommige “vernieuwers” of trendsetters onder de migranten zullen dat snel doen, anderen treuzelen. In het geval van dragerschapsonderzoek treuzelen zowel migranten als medewerkers in de gezondheidszorg. Bij beide groeperingen moeten nog veel weerstanden overwonnen worden. Het lijkt daarom ook het meest haalbaar om te beginnen met individueel dragerschapsonderzoek en pas wanneer de vernieuwing breed is geaccepteerd over te gaan op dragerschapsonderzoek voor hoog-risico groepen op populatieniveau.

De ‘Communication of Innovations’ theorie kan helpen om op het macro-niveau van de maatschappij de grens aan te geven tussen individuele diagnostiek en bevolkingsonderzoek.

Om mensen te motiveren voor een bepaalde vernieuwing, in dit geval geïnformeerde keuzes rond dragerschapsonderzoek, dienen we dus rekening te houden met kenmerken van de doelgroep – migranten –, met kenmerken van de personen die de veranderingen op gang moeten brengen – nl. de medewerkers in de gezondheidszorg –, en met kenmerken van het sociale systeem – de structuur van de gezondheidszorg in Nederland –.

### *Welke determinanten spelen een rol bij migranten?*

Onderzoek, immers, richt zich nu op dragers uit andere culturen. Om deze vraag te beantwoorden kunnen we dan ook gebruik maken van o.a. methoden uit de crossculturele of interculturele psychologie in aanvulling op de traditionele methoden en technieken. Ingleby (2000) stelt in zijn rede dat er niet alleen aandacht moet zijn voor de etnische diversiteit in onze samenleving, maar ook voor een pluralistische aanpak binnen de psychologie zelf. Dit betekent aanpassing van bestaande onderzoeksmethoden, theorieën en praktijken aan onze multiculturele samenleving. “Zorg op maat” vereist gedegen onderzoek naar het denken over en de beleving van ziekte en gezondheid in verschillende culturen. Afhankelijk van de fase in de empirische

cyclus die we doorlopen, kunnen we in een wisselwerking gebruik maken van kwalitatieve meer antropologische onderzoeksmethoden in de exploratieve fasen van onderzoek en kwantitatieve methoden in de fasen die daarop volgen.

Omdat kennis en inzicht omtrent de “klinische realiteit” rond erfelijke ziekten en preventie nog grote lacunes laten zien, heb ik (van Elderen, Lamboo & Talan, in voorbereiding) een begin gemaakt met de exploratie van opvattingen van migranten via focus group interviews. De bedoeling was dat deelnemers aan de interviews vrij discussiëerden over erfelijke ziekten en de preventie ervan, in het bijzonder over preventie van hemoglobinopathieën. Relevante thema’s werden gebaseerd op individuele gezondheidspsychologische modellen voor de verklaring van verandering in gedrag.

Enkele voorbeelden van vragen:

1. Hoe zorgt u dat u gezond blijft?
2. Hoe kijkt u aan tegen traditionele genezers (profetische geneeskunde)?
3. Wat betekent het voor u om een kind te krijgen met een erfelijke aandoening?
4. Wat weet u van erfelijke ziekten, in het bijzonder van hemoglobinopathieën?
5. Van wie heeft u informatie gekregen? Hoe zou u informatie hierover willen ontvangen?
6. Zou u zich willen laten onderzoeken op dragerschap? Preconceptueel?
7. Zou u prenataal dragerschapsonderzoek laten doen in geval van risico?
8. Zou u de zwangerschap afbreken bij een aangedaan kind?
9. Op welk moment gaat u naar de dokter wanneer u zwanger bent?

Zoveel mogelijk is geprobeerd om zonder directief te zijn te luisteren naar wat Turkse, Surinaamse en Antilliaanse migranten vertelden.

Enkele bevindingen:

1. Turkse respondenten geloven dat ziekte en gezondheid van God komen, zij achten zich evenwel zelf verantwoordelijk voor hun gezondheid door gezond te leven. God wil dat zij zich aan de regels houden die in de Koran staan beschreven. Dit zijn voor het merendeel gezondheidsregels die ook in de westerse maatschappij gelden. Wanneer zij ziek zijn gaan ze eerst naar de huisarts voor medisch advies. Wel bidden zij tot God om troost te krijgen en gebruiken zij middeljes naast de voorgeschreven medicatie. Ook geloven de meeste respondenten in het boze oog als oorzaak van ziekte, en bepaalde gebruiken om de kwade gevolgen af te wenden.
2. Voor het merendeel van de Turkse migranten zijn hemoglobinopathieën geen bekende ziektebeelden, evenmin onder de noemers sikkelcelziekte, thalassemie of erfelijke vormen van bloedarmoede. Consequenties van drager-

schap en mogelijkheden tot preventie zijn dan ook praktisch onbekend. Het merendeel van de Surinamers en Antillianen kent de termen Middellandse Zeeziekte en sikkelcelziekte. Slechts een enkeling wist dat deze ziekten erfelijk bepaald waren.

3. Nadat informatie gegeven is over preconceptueel en prenataal dragerschapsonderzoek rapporteert het merendeel van de respondenten indien mogelijk aan dragerschapsonderzoek *vóór* een eventuele zwangerschap de voorkeur te geven.
4. Ongeveer de helft van de respondenten zou ook dragerschapsonderzoek laten verrichten tijdens de zwangerschap, gevolgd door prenataal onderzoek en abortus indien sprake zou zijn van een aangedaan kind, echter alleen in de eerste drie maanden van de zwangerschap. De ernst van het ziektebeeld en de te verwachten kwaliteit van leven van de kinderen spelen bij deze beslissingen een belangrijke rol.
5. Tenslotte, in tegenstelling tot andere bevindingen, vertelden alle migranten uit deze groep dat ze meteen naar de huisarts zouden gaan bij vermoeden van zwangerschap. Dit zou betekenen dat de huisarts in een vroege fase adviezen kan geven en kan doorverwijzen voor dragerschapsonderzoek.

Uit deze focus group interviews blijkt dat vooral gebrek aan informatie een barrière vormt voor dragerschapsonderzoek. De VSOP heeft stappen ondernomen om het gebrek aan informatie te verhelpen. De VSOP is van mening dat verschillen in taal en cultuur een apart voorlichtingstraject voor migranten nodig maken en voert sinds 1994 een minderhedenproject uit, waarbinnen brochures, video's en geluidsproducties zijn ontwikkeld allen in de eigen taal en rekening houdend met de culturele en religieuze achtergrond van de doelgroep. Ook krijgen gezondheidsvoorlichters in eigen taal en cultuur (VETC'ers) een tweedaagse cursus om hen in staat te stellen voorlichting te geven over erfelijkheid, met de nadruk op hemoglobinopathieën (VSOP, 2001).

*Welke determinanten spelen een rol bij gezondheidszorgmedewerkers en in de structuur van de gezondheidszorg?*

Helaas is de kennis en ervaring van de gemiddelde huisarts op het terrein van de hemoglobinopathieën gebrekkig. Daar komt nog bij dat een aantal hardnekkige misvattingen maken dat de huisarts niet zo snel tijd zal nemen om voorlichting te geven over preventie van erfelijke aandoeningen. Een eerste misvatting is dat migranten niet kiezen voor dragerschapsonderzoek, en zeker niet voor abortus. Gezondheidszorgmedewerkers denken dat migranten ziekte en gezondheid als de wil

van God zien en daarom niet kiezen voor preventie. De belangrijkste reden voor migranten om niet voor dragerschapsonderzoek te kiezen in Engeland bleek echter een gevorderd tijdstip van de zwangerschap. Over het algemeen kan gesteld worden dat migranten populaties even gevarieerd en complex denken over beëindiging van zwangerschap als autochtone populaties (Atkin, Ahmad & Anionwu, 1998).

Daarbij spreken Marteau et al. (1992) over een 'mismatch' tussen professionele logica en standpunten van leken. De professionele logica gaat er van uit dat, wanneer prenataal onderzoek uitwijst dat sprake is van een 'aangedaan' kind, dan ook voor beëindiging van zwangerschap gekozen zal worden. Dit is voor aanstaande ouders lang niet altijd het geval. Zij willen bijvoorbeeld vaak onderzoek laten doen om gerustgesteld te worden. De bevinding van een 'aangedaan' kind leidt voor hen niet automatisch tot beëindiging van zwangerschap. Erfelijkheidsadvisering moet nondirectief zijn, primair doel is mensen in staat te stellen om geïnformeerde keuzes te maken, niet preventie van erfelijke ziekten.

Een laatste belemmering wordt gevormd doordat de Nederlandse gezondheidszorg uitgaat van zelfredzaamheid en mondigheid, er moet een zorgvraag zijn, terwijl migranten in dit specifieke geval behoefte hebben aan 'bemoeizorg'. Migranten zijn zich niet bewust van de problematiek rond erfelijke vormen van bloedarmoede en nemen daarom geen preventieve maatregelen.

## PLAN VAN AANPAK

### *I. De kunst afkijken*

Nagaan hoe de erfelijkheidsdiagnostiek en -advisering in andere landen voor hemoglobinopathieën geregeld is, biedt waarschijnlijk gelegenheid om de achterstand in Nederland versneld in te halen.

### *II. Registratie van deelname aan dragerschapsonderzoek en klinisch genetische zorg door migranten*

De huidige registratie is onvolledig. Registratie is nodig op etniciteit en andere acculturatie parameters, waarbij gestreefd moet worden naar een gemeenschappelijk nauwkeurig registratiesysteem.

### *III. Migranten en gezondheidsmedewerkers bewust maken van de erfelijkheidsproblematiek rond hemoglobinopathieën*

De gezondheidspsychologie kan een bijdrage leveren aan de bewustwording van de erfelijkheidsproblematiek bij zowel migranten als hulpverleners. Naast het op de agenda plaatsen van het onderwerp in publieke discussies kunnen richtlijnen geformuleerd worden voor het voeren van deze discussie.

Vertrouwenspersonen zoals imams en andere gezaghebbende personen kunnen sleutelposities innemen in het bewustwordingsproces en uitgenodigd worden aan deze discussies deel te nemen. Bestaande structuren en organisaties, zoals sociaal culturele activiteiten en opbouwwerk, zijn geschikt als ingangen om de discussie met migranten te voeren. Deze ingangen vormen als zodanig een alternatief voor communicatiekanalen, zoals kranten en nederlandstalige televisiezenders, welke vanwege taalproblemen minder geschikt zijn. Auditieve informatie in de moedertaal verdient in veel gevallen de voorkeur.

Bij het overtuigen van migranten van het belang van dragerschapsonderzoek is het verstandig ons te realiseren dat doelgroepen niet alleen systematisch informatie verwerken en de argumenten op de inhoud beoordelen, maar ook beslissingen nemen op basis van 'perifere' informatie, zoals de geloofwaardigheid van de bron, aanpassing aan de eigen cultuur en de lengte van de boodschap. In "heuristic processing" (Eagly & Chaiken, 1993) maken mensen gebruik van eenvoudige schema's of beslisregels. Beslissingen of voornemens gebaseerd op deze vorm van verwerking zullen dan ook minder predictief zijn voor bepaald gedrag dan voornemens gebaseerd op "systematic processing" (Petty & Cacioppo, 1986).

#### *IV. Op basis van gezondheidspsychologische modellen een bijdrage leveren aan de beantwoording van de eerder gestelde vragen*

Belangrijke variabelen kunnen geoperationaliseerd worden in gezondheidspsychologische verklaringmodellen. Middels modeltoetsing kan de bijdrage van de afzonderlijke variabelen in de verklaring van wel of geen dragerschapsonderzoek worden nagegaan.

Enige verklaringmodellen in de gezondheidspsychologie:

##### 1. Expectancy-value modellen

Gezondheidspsychologische literatuur wijst allereerst op de heuristische waarde van het Health Belief Model (Rosenstock, 1966) in de verklaring van veranderingen in gezondheidsgedrag. In dit model worden de perceptie van persoonlijke bedreiging en de perceptie van de effectiviteit van een bepaalde maatregel beklemtoond.

Vertaald naar dragerschapsonderzoek voor hemoglobinoopathieën: Wanneer een ouder het krijgen van een gezond kind heel belangrijk vindt, wanneer deze ouder weet dat erfelijke bloedarmoede in de familie zit, en denkt dat erfelijke bloedarmoede een ziekte is met zeer ernstige gevolgen, zal deze ouder geneigd zijn maatregelen te nemen. De waarschijnlijkheid van dragerschapsonderzoek zal dan toenemen met de mate waarin de baten (géén ernstig ziek kind hebben) in de beleving van iemand opwegen tegen de kosten (stigmatisering, maar ook het lastig vinden om hierover te

communiceren met artsen, en overlast van reizen). Rowley et al. (1991) toonden onder meer aan dat dragerschapsonderzoek voor hemoglobinoopathiën bij de partner voorspeld kon worden door de perceptie van ernst van de ziekte, door de mate waarin dragerschapsonderzoek lastig gevonden werd en door het aantal weken dat de zwangerschap al gevorderd was.

Wanneer een dochter echter weet dat haar ouders een huwelijkskandidaat voor haar zullen uitzoeken, wanneer zij aan de wensen van haar ouders wil voldoen en wanneer zij weet dat dragerschap de keus van een mogelijke kandidaat nadelig zal beïnvloeden, zal zij de test waarschijnlijk niet laten uitvoeren. Angst voor de beperking van partnerkeuze, voor de druk die op haar zal worden uitgeoefend om een oudere man te trouwen, en dientengevolge ook de angst om geen kinderen te krijgen zal een vrouw van dragerschapsonderzoek afhouden. De kosten van de maatregel overschrijden dan voor de betrokkene de baten.

Een aantal determinanten kan minder goed met het Health Belief Model onderzocht worden. Voor Turkse migranten van de eerste en tweede generatie kan de genoemde *sociale invloed* in deze situatie een grote rol spelen. In Turkije zelfs zozeer dat men besloten heeft om de mannelijke partners eerst te benaderen voor dragerschapsonderzoek, zodat vrouwen niet direct gestigmatiseerd worden. Op deze manier is voor een groot gedeelte van de vrouwen dragerschapsonderzoek overbodig geworden en het risico van stigmatisering uitgesloten (indien de mannelijke partner geen drager is). In Suriname ligt de situatie echter heel anders. Vrouwen zijn daar zelfstandiger in hun keuzen voor een partner en kinderen. Dit voorbeeld laat een etnische diversiteit zien en een noodzaak om sociale invloed en de behoefte te voldoen aan wensen van belangrijke personen op te nemen in een verklaringsmodel.

Een volgende belangrijke determinant die niet expliciet in het Health Belief Model is opgenomen, is "*self-efficacy*", de mate waarin migranten zichzelf in staat voelen bepaald gedrag uit te voeren. Beslissingen moeten niet van boven worden opgelegd, migranten moeten kunnen participeren in de besluitvorming. Vanuit een ideologie van emancipatie of 'empowerment' zijn kennis en vaardigheden een noodzakelijke voorwaarde om geïnformeerde keuzes te kunnen doen.

In bijvoorbeeld de Theory of Planned Behaviour (Fishbein & Ajzen, 1975; Ajzen & Madden, 1986) zijn sociale invloed en opvattingen over eigen competentie expliciet geoperationaliseerd. Een goed voorbeeld van een onderzoek en een interventie, waarin expliciet rekening gehouden wordt met sociale invloeden en perceptie van eigen competentie, is het onderzoek en de interventie van Loader et al. (1991). Artsen laten aan draagsters van een sikkelcel mutatie een videotape zien met informatie over sikkelcelziekte. Het risico op een baby met sikkelcelziekte wordt besproken en mogelijkheden om dit te voorkomen. Een volgende maatregel is dragerschapsonderzoek bij de vader van de baby. Alleen indien de vader ook drager is bestaat immers een risico.

Wanneer een vrouw denkt dat ze haar partner toch niet kan overtuigen (lage self-efficacy), zal ze minder snel voor dragerschapsonderzoek beslissen en evenmin voor eventuele verdere preventieve maatregelen. Daarom werd in de video een modeling procedure opgenomen, waarin een aantrekkelijke, zwarte, zwangere vrouw thuis, terugkomend van een consult bij haar arts, haar partner vertelt dat zij draagster is. Zij vraagt hem om zich ook te laten testen. Aanvankelijk protesteert de partner en zegt dat er niets mis is met hem, maar uiteindelijk weet zij hem te overtuigen van het belang van de test.

## 2. Fasemodel

Een volgend model is het transtheoretisch fasemodel (Prochaska & DiClemente, 1986). Dit model leert ons dat een beslissing voor een bepaald gedrag niet op een enkel moment genomen wordt, maar in een proces van respectievelijk, de volgende vijf fasen: precontemplatiefase, contemplatiefase, preparatiefase, actiefase en uiteindelijk fase van gedragsbehoud.

2.1. In de eerste *precontemplatiefase* hebben mensen nog niet de bedoeling om hun gedrag te veranderen, zij zijn er zich nog niet van bewust dat ze een probleem hebben. In deze fase is allereerst een bewustwordingsproces vereist.

Een voorbeeld:

Mevrouw Yildiz weet niets over erfelijke vormen van bloedarmoede. Zij heeft nog geen kinderen, maar wil binnenkort zwanger worden. Voor haar is allereerst informatie noodzakelijk.

2.2. In een tweede *contemplatiefase* denken mensen wel na over dragerschapsonderzoek, maar vanwege allerlei redenen zijn zij nog niet overtuigd dat dit de juiste beslissing zou zijn.

Enkele voorbeelden:

Mevrouw Bayir heeft een aantal nichtjes en neefjes met sikkelcelziekte. Ze is op de hoogte van de mogelijkheid van dragerschapsonderzoek. Mevrouw wil echter niet getest worden. De huisarts vertelde haar moeder dat zij waarschijnlijk geen gezonde kinderen zou kunnen krijgen. Toch heeft zij twee gezonde kinderen gekregen naderhand. “Het heeft geen zin om je te laten testen”, denkt Mevr. Bayir, “de uitslagen zijn toch onjuist”.

Mevrouw Enahachi denkt dat zij geen risico loopt omdat ze niet met een familielid is getrouwd. Toch zijn er kindjes met thalassemie major in de familie.



De laatste twee voorbeelden maken duidelijk dat deze personen niet alleen kennis nodig hebben, maar dat ook correctie van misvattingen noodzakelijk is, voordat zij voor dragerschapsonderzoek kunnen beslissen. Er wordt wel gesproken van de “empty vessel phalacy”; mensen zijn geen lege vaten, maar hebben al ideeën over dragerschapsonderzoek.

2.3. In de derde *preparatiefase* spelen weer andere determinanten een rol. Migranten zijn al overtuigd van het belang van dragerschapsonderzoek, willen dit onderzoek ook laten verrichten, maar ze wachten nog op een juist moment om de partner of de ouders te overtuigen. Ze weten niet goed hoe ze het aan moeten pakken of bij wie ze moeten zijn. In deze fase is een duwtje in de rug in de vorm van concrete procedurele informatie nodig.

Enkele voorbeelden:

Mevrouw Ersoy wil zich laten testen op dragerschap voor hemoglobinoopathieën voordat zij zwanger is. Wat als zij drager blijkt te zijn? Wil haar partner zich dan ook laten onderzoeken? Hoe overtuigt zij de huisarts van het belang hiervan?

Mevrouw Ben Moussa wil wel getest worden, maar ze kan niet tegen bloed prikken. Visuele imaginatie technieken eventueel gekoppeld aan modeling procedures en ontspanningsinstructie zijn hier geïndiceerd.

Cognitieve en gedragstherapeutische interventies kunnen in deze en de volgende fase behulpzaam zijn.

2.4. In een vierde *actiefase* wordt dragerschapsonderzoek verricht. In tegenstelling tot een gedrag wat verder volgehouden moet worden, zoals stoppen met roken en het dragen van autogordels, is hier geen sprake van een fase van *gedragsbehoud*, waarin voorkomen moet worden dat iemand terugvalt in een eerdere gewoonte. Het kan echter wel zo zijn dat na een positieve bevinding van dragerschap het hele proces voor de volgende onderzoeken weer opnieuw begint.

Het fasemodel overziend, kunnen we concluderen dat in de fasen waarin mensen nog niet besloten hebben om dragerschapsonderzoek te laten doen, voorlichting en motivatiestrategieën noodzakelijk zijn. Wanneer de beslissing echter eenmaal genomen is, zijn procedurele informatie en cognitieve en gedragstherapeutische strategieën aangewezen om te zorgen dat mensen zich in staat achten en ook de vaardigheden hebben om het gedrag uit te voeren.

### 3. Zelf-regulatie modellen

Deze modellen veronderstellen dat het gedrag van mensen doelgericht is (Ford, 1992). Mensen hebben meerdere doelen. Elk doel met een eigen gewicht. Er kan een conflict optreden wanneer verschillende doelen worden nagestreefd. Kinderwens kan bijvoorbeeld conflicteren met dragerschapsonderzoek.

Binnen het onderzoeksprogramma van de afdeling gezondheidspsychologie ‘zelf-regulatie modellen voor gezondheid- en ziektegedrag’ wordt gedrag bestudeerd vanuit het Health Behaviour Goal Model, ontwikkeld door Maes & Gebhardt (2000). In dit model is een integratie tot stand gebracht tussen de expectancy-value modellen, het transtheoretisch fasemodel en aspecten van doeltheorieën. Bovendien is het mogelijk karakteristieken van de omgeving in kaart te brengen. Als zodanig biedt dit model dus een onderzoekskader aan de hand waarvan het mogelijk is alle determinanten van deelname aan dragerschapsonderzoek te operationaliseren.

Samenvattend, gezondheidspsychologische modellen bieden handvatten, die het ons mogelijk maken inzicht te verwerven in de bijdrage van verschillende determinanten aan de verklaring van deelname aan dragerschapsonderzoek. Systematisch strategieën ontwikkelen, die zich richten op determinanten die veel gewicht in de schaal leggen, zal de aanwezige hoogwaardige moleculair-technische kennis in de genetica dichter bij de doelgroep brengen.

#### *V. Uitbreiding van kennis en inzichten over psychosociale aspecten van dragerschap van erfelijke ziekten op beleids- en opleidingsniveau*

Gezondheidspsychologen kunnen een aandeel leveren in het onderwijs aan universiteiten en andere opleidingen. In samenwerking met het Klinisch Genetisch Centrum van het LUMC zijn inmiddels initiatieven ontwikkeld om een gezamenlijk onderwijsonderdeel aan te bieden over zowel medische als psychosociale thema's met betrekking tot genetica.

Daarnaast is het initiatief genomen om een kenniscentrum “Migranten, gezondheid en zorg” op te richten. Doel is een samenwerking tot stand te brengen tussen de Universiteit Leiden (Faculteiten Geneeskunde en Sociale Wetenschappen) en de GGD Den Haag. De Universiteit Leiden kan expertise inbrengen in ontwikkeling van gezondheidsprojecten en evaluatie hiervan, de GGD Den Haag heeft de beschikking over een netwerk in de regio en heeft praktijkervaring met de uitvoering van gezondheidsprojecten.

Als laatste is er een zwaartepunt “Genomics” in ontwikkeling, een samenwerking tussen o.m. verschillende faculteiten van de Universiteit Leiden, de Vrije Universiteit van Amsterdam het LUMC en TNO-Preventie en Gezondheid. In overleg met de project-

groep “Genomics” zijn inmiddels ook onderzoeksplannen uitgewerkt om drager-schapsonderzoek bij migranten te bevorderen.

*Samenvattend:*

*Nederland loopt achter. Jammer van zowel de hoogwaardige moleculair-technische als gezondheidspsychologische expertise die aanwezig is. In een voortdurende afstemming met de VSOP hoop ik vanuit de gezondheidspsychologie een bijdrage te kunnen leveren aan het in praktijk brengen van de genetische expertise, zodanig dat migranten er wel bij varen.*

Tot slot wil ik graag de bestuursleden van de Vereniging Samenwerkende Ouderen en Patientenorganisaties, de leden van het Curatorium en allen die aan de tot standkoming van de benoeming hebben bijgedragen danken voor het vertrouwen dat zij in mij hebben gesteld. Het is een uitdaging om iemand te benoemen die haar sporen op een weliswaar aanpalend, maar niettemin ander terrein heeft verdiend. Zoals de psychologie van hart- en vaatziekten mij in het bloed is gaan zitten, hoop ik ook dat dat met de psychologie van erfelijke bloedarmoede zal gebeuren.

Hooggeleerde Maes, beste Stan

Je was plaatsvervangend ambitieus, en geloofde, ondanks mijn late start, steeds in mijn mogelijkheden. Dank voor je stuwende kracht.

Hooggeleerde Van der Kamp, beste Leo

Jij was mijn leermeester in de methodologie. Jouw adviezen niet alleen op dit gebied, maar ook op het terrein van literatuur en muziek waren voor mij zeer waardevol. Dank ook voor de onvoorwaardelijk steun die je altijd hebt geboden.

Geachte medewerkers van de VSOP, beste IJsbrand, Cor, Ineke, en Julie-Anne, dank voor alle praktische hulp in de inwerkfase.

Hooggeleerde Breuning, beste Martijn

Jij was bereid een brug te slaan naar de sectie Klinische en Gezondheidspsychologie. Ik stel de samenwerking met jou bijzonder op prijs en dank jou ook voor het vertrouwen dat je in mij hebt gesteld.

Hooggeleerde Tibben, beste Aad

Dank voor jouw voorspraak in het Klinisch Genetisch Centrum in Rotterdam. Dankzij jou en de hulp van Jeanette Hoogeboom was het mogelijk een registratie onderzoek te starten.

Geachte medewerkers van de sectie Klinische en Gezondheidspsychologie, in het bijzonder Winnie Gebhardt met wie ik vanaf het begin van deze leerstoel heb kunnen brainstormen over “het gedrag van dragers”, Chris en Margot met wie ik het langst heb samengewerkt, mijn directe medewerkers Sandra, Kate, Jannie, Miranda, Geertje, Duygu en nogmaals Miranda, en zeker ook Elise vanuit datatheorie, het werken met jullie is niet alleen motiverend, maar verloopt ook altijd in een hartelijke sfeer. Voor

mij is dit een *conditio sine qua non*. Dank voor deze harmonie en gezelligheid.

Dames en heren studenten, ik hoop samen met jullie te werken aan een adequate genetische zorg voor migranten.

Mijn ouders hebben niets van mijn studie en beroepsleven mee kunnen maken. In hun plaats dank ik mijn schoonmoeder die mij altijd heeft gewaardeerd en gesteund in mijn plannen. Ook mijn man, zonen en een groeiend aantal kleinzonen (vanmorgen is mijn vierde kleinzoon geboren) waren altijd een steun in de rug. In veel migranten culturen zou een dergelijk mannenhuishouden mij veel aanzien gegeven hebben, maar zou ik waarschijnlijk een meer onderdanige rol gespeeld hebben. Ik ben blij op deze wereldvrouwendag op deze plaats te staan en blij met de hulp die ik vooral van Cees nog steeds krijg.

Ik heb gezegd.

## Literatuur

Ajzen, I. & Madden, T.J. (1986). Prediction of goal-directed behavior: Attitudes, intentions, and perceived behavioral control. *Journal of Experimental Social Psychology*, 22, 253-474.

Angastiniotis, M. (2001). *Worldwide status of thalassaemia-impact and potential approaches*. Abstract book. The 8<sup>th</sup> international conference on thalassaemia and the hemoglobinopathies and the 10<sup>th</sup> Thalassaemia parent and Thalassaemics International Federation Conference (TIF). October 18-21, Astir Palace Resort, Vouliafmeni, Athens, Greece.

Angastiniotis, M. & Modell, B. (1998). Global epidemiology of haemoglobin disorders. *Annals of the New York academy of sciences* 1998, 850, 251-269.

Atkin, K., Ahmad, W.I.K. & Anionwu, E.N. (1998). Screening and counselling for sickle cell disorders and thalassaemia: The experience of parents and health professionals. *Social Science and Medicine*, 47, 11, 1639-1651.

Clausen, H., Brandt, N.J., Schwartz, M., Skovby, F. (1996). Psychological impact of carrier screening for cystic fibrosis among pregnant women. *European Journal of Human Genetics*, 4, 120-123.

Davies, S., Modell, B. & Wonke, B. (1993). The haemoglobinopathies: Impact upon black and ethnic minority people. In: A. Hopkins & V. Bahl (Eds.). *Access to health care for people from black and ethnic minorities*. London: Royal college of Physicians.

Eagly, A.H. & Chaiken, S. (1993). *The psychology of attitudes*. Fort Worth, TX: Harcourt Brace Javanovich.

van Elderen, T., Lamboo, G. & Talan, D. Focus group interviews in Turkish and Caribbean migrants. (In preparation).

van Elderen, T., Bertina, W., Talan, D. & Steenbergen, E. The uptake of genetic counselling in a genetic centre in Rotterdam. (In preparation).

Fishbein, M. & Ajzen, I. (1975). *Belief, attitude, intention, and behavior: An introduction to theory and research*. Reading: Addison-Wesley.

Ford, M.E. (1992). *Motivating humans: Goals, emotions and personal agency beliefs*. Newbury Park, CA: Sage.

Giordano, P.C. (1998). *Hemoglobinopathieën in Nederland Diagnostiek, epidemiologie en preventie*. Ridderkerk: Offset Drukkerij Ridderprint b.v.

Giordano, P.C. & Breuning, M.H. (2000). Van gen naar ziekte; van hemoglobinegenen naar thalassemie en sikkelcelanemie. *Nederlands Tijdschrift voor Geneeskunde*, 144(40), 1910-1913.

Giordano, P.C. & Harteveld, C.L. (1998) Hemoglobinopathieën in Nederland: de rol van de huisarts in dragerschapdiagnostiek en preventie. *Huisarts & Wetenschap*, 6, 290-295.

Harper, P.S. (1997). China's genetic law. In: P.S. Harper & A.J. Clarke (Eds.). *Genetics Society and Clinical Practise* (pp.237-246). Oxford (UK): BIOS Scientific Publishers Ltd.

Harper, P.S. & Clarke, A.J. (1997). *Genetics Society and Clinical Practise*. Oxford (UK): BIOS Scientific Publishers Ltd.

Ingleby, D. (2000). *Psychologie en de multiculturele samenleving: een gemiste aansluiting?* Utrecht: CERES Universiteit Utrecht.

Leventhal, H., Meyer, D. & Nerenz, D. (1980). The commonsense representations of illness danger. In: S. Rachman (Ed.). *Medical psychology*, 2 (pp. 7-30). New York: Pergamon Press.

Loader, S., Sutera, C.J., Segelman, S.G., Kozyra, A. & Rowley, P.T. (1991). Prenatal hemoglobinopathy screening. IV. Follow-up of woman at risk for a child with a clinically significant hemoglobinopathy. *American journal of Human Genetics*, 49, 1292-1299.

Maes, S. & Gebhardt, W.A. (2000). Self-regulation and health behavior: the health behavior goal model. In M.Boekaerts, P.R. Pintrich & M. Zeidner (Eds.) *Handbook of Self-regulation* (chapter 11, pp. 343-368). San Diego: Academic Press.

Marteau, T.M., Dunn, S.M. & Bauman, A. (1993). Illness behaviour and health care. In: S. Maes, H. Leventhal, & M. Johnston. *Health Psychology* (pp. 149-212). Chichester: Wiley & Sons.

Modell, B. & Kuliev, A.M. (1991). Services for thalassaemia as a model for cost-benefit analysis of genetic services. *Journal of Inherited Metabolic Disease*, 14, 640-651.

Petty, R. & Cacioppo, J.T. (1986). *Communication and persuasion: Central and peripheral routes to attitude change*. New York: Springer.

Prochaska, J.O. & DiClemente, C.C. (1986). Toward a comprehensive model of change. In: W.R. Miller & N. Heather (Eds.). *Treating Addictive Behaviors*. New York: Plenum.

Rogers, E.M. & Shoemaker, F.F. (1971). *Communication of innovations*, Free Press, New York.

Rosenstock, I.M. (1966). Why people use health services. *Milbank Mem Fund Q*, 44, 94-127.

Rowley, P.T., Loader, S., Sutera, C.J., Walden, M., & Kozyra, A. (1991). Prenatal screening for hemoglobinopathies. III. Applicability of the health belief model. *American journal of Human Genetics*, 48, 452-459.

Vereniging Samenwerkende Ouder- en Patiëntenorganisaties (VSOP), (1997). *Ethisch manifest*. Soestdijk: VSOP.

Vereniging Samenwerkende Ouder- en Patiëntenorganisaties (VSOP), (2001). *De VSOP vijf jaar in beeld 1995-2000*. Soestdijk: VSOP.

