Handreiking DSD & Mensenrechten

Over grondrechten in kwaliteitsstandaarden voor Differences of Sex Development

Position Paper

De visie van

Stichting NNID, Nederlandse organisatie voor seksediversiteit

NNID
NEDERLANDSE ORGANISATIE VOOR SEKSEDIVERSITEIT

Handreiking DSD & Mensenrechten

Over grondrechten in kwaliteitsstandaarden voor Differences of Sex Development

Serie: NNID Position papers

Een uitgave van Stichting NNID

© Stichting NNID, Nijmegen 2018
Auteur: Miriam J. van der Have
NNID-publicatie 2018-01

30 oktober 2018

ISBN 978-94-93106-00-0
NUR 741

Reeks: NNID Position Papers

Stichting NNID, Nederlandse organisatie voor seksediversiteit

Staddijk 91
6537 TW Nijmegen
(024) 3430000
www.nnid.nl
info@nnid.nl

Citeren als:
Van der Have MJ. Handreiking DSD & Mensenrechten: Over Grondrechten in Kwaliteitsstandaarden Voor Differences of Sex Development. Nijmegen, Nederland: Stichting NNID, 2018. Rapport Nr. 2018-01, ISBN 978-94-93106-00-0.

Adviezen in deze handreiking 4

Voorwoord 5

Inleiding 6

Kwaliteitstandaarden voor DSD 9

Standpunt NNID 9
Samenvattend 13
Onderbouwing 13
Referenties Kwaliteitsstandaarden voor DSD 14

Bijlage A: Definitie van intersekse 15

Afgeleiden van deze definitie 16
Verschil met eerdere definities 17
Medicalisering door wijze van verifiëren 17
Medicalisering door een tijdgebonden definitie 17
De conceptuele definitie 18
Operationele definitie en statistiek 19
Referenties Definitie van intersekse 20

Bijlage B: Verschil Intersekse & DSD 21

Referenties Verschil intersekse & DSD 22

Bijlage C: Sociale gevolgen 23

Nederland 23
Australië 24
Europa 25
Meer sociale gevolgen 26
Referenties Sociale gevolgen 27

Bijlage D: Geen gelijk speelveld 28

Financiële situatie 28
Organisatorische situatie 30
Referenties Geen gelijk speelveld 31
Selection bias 33
Gevolgen van dit beperkte zicht op het veld 34
Lost to follow-up bias 35
Effect van lost to follow-up 37
Referenties Beperkt zicht op het veld 39

Bijlage F: Beperkingen onderzoek 40

Beperkingen recente grote onderzoeken 41
Conclusie 42
Referenties Beperkingen en onderzoek 48

Adviezen in deze handreiking

Deze publicatie bevat zes adviezen die volgens NNID gevolgd moeten worden om kwaliteitsstandaarden voor DSD in overeenstemming te brengen met algemeen erkende mensenrechten:

1 **NNID adviseert kwaliteitsstandaarden voor DSD niet alleen te baseren op de technische mogelijkheden van de (medische) behandeling, maar ook op de fundamentele rechten van mensen, waaronder, maar niet beperkt tot, het recht op lichamelijke integriteit en het recht op zelfbeschikking.**

2 **NNID adviseert kwaliteitsstandaarden voor DSD te richten op de depathologisering/demedicalisering van de zorg voor intersekse/DSD en de (medische) behandeling te baseren op de vrije, volledig geïnformeerde consent van de intersekse/DSD-persoon zelf.**

3 **NNID adviseert disseminatie van kennis over seksediversiteit in de maatschappij niet op te nemen in kwaliteitsstandaarden voor DSD.**

4 **NNID adviseert 'juridische zorg' niet op te nemen in kwaliteitsstandaarden voor DSD.**

5 **NNID adviseert in kwaliteitsstandaarden voor DSD nadrukkelijk rekening te houden met het beperkte zicht dat gezondheidswerkers hebben op DSD en intersekse.**

6 **NNID adviseert in kwaliteitsstandaarden voor DSD kritisch te kijken naar medisch-wetenschappelijk cohort-onderzoek.**

Voorwoord

Een paradigmaverschuiving. Zo mag de aandacht voor de mensenrechten van intersekse personen wel worden genoemd. In 2009, toen Elizabeth Lynne (lid van het Europees Parlement voor ALDE) een vraag had gesteld over *Genital mutilation of intersex individuals in the EU*[1], antwoordde de Europese Commissie nog ontwijkend:

> *De Commissie beschikt niet over informatie over de omvang en de aard van "intersekse genitale verminking". De Commissie betreurt het dat de kwestie van de genitale verminking van intersekse kinderen krachtens het Verdrag tot oprichting van de Europese Gemeenschap en het Verdrag betreffende de Europese Unie niet onder de bevoegdheid van de Gemeenschap valt. Deze kwestie valt uitsluitend onder de verantwoordelijkheid van de lidstaten.*

Bijna tien jaar later liggen er een groot aantal documenten, ook van de EU, die de non-consensuele 'normaliserende' behandeling van intersekse personen op ethische gronden, en dikwijls met verwijzing naar VN-verdragen, sterk veroordelen. Veel van die publicaties worden in deze handreiking aangehaald.

Toch hapert de hoognodige verschuiving van een medisch (ziekte/afwijking/schaamte)-paradigma naar een emancipatoir (stigma-doorbrekend) paradigma in de medische praktijk. Enerzijds vinden veel gezondheidswerkers dat mensenrechten leidend moeten zijn, maar anderzijds vinden zij dat een intersekse kind onrecht wordt aangedaan als zij de 'normaliserende' behandeling niet uitvoeren. Dit verschil is verklaarbaar vanuit de paradigmatische aanname dat intersekse maatschappelijk onacceptabel is en de verzwegen premisse dat er alleen maar mannen en vrouwen bestaan. De verklaarbaarheid echter maakt de non-consensuele 'normaliserende' behandeling niet minder onrechtmatig.

Met deze Handreiking biedt NNID gezondheidswerkers informatie over de inclusie van mensenrechten in kwaliteitsstandaarden voor DSD. Ik hoop dat de medische beroepsgroep deze informatie ook gebruikt, want door de fundamentele rechten van intersekse mensen te respecteren blijven meer middelen over om intersekse mensen de zorg te bieden die wél noodzakelijk is.

Inge Intven

Voorzitter Stichting NNID

[1] CELEX : 92009E003780, EP : P7_QE(2009)3780

Inleiding

Het is een misverstand dat bio-ethiek en medische ethiek hetzelfde beogen als mensenrechten. In grote lijnen kan worden gesteld dat de gezondheidszorg uitgaat van de maximalisering van het nut voor alle betrokkenen[2], terwijl mensenrechten bedoeld zijn om minderheden, zelfs al is het maar één persoon, te beschermen tegen de 'tirannie van de meerderheid'[3]. Van de vier uitgangspunten van de bio-ethiek (autonomie, gerechtigheid, weldoen, niet-schaden) zijn alleen de eerste twee ook vanuit een deontologisch[4] perspectief, en daarmee vanuit een mensenrechtenperspectief, te beschouwen. In een normale situatie is dat meestal voldoende om belangrijke rechten van zowel de groep patiënten als de individuele patiënt te beschermen.

Dat wordt anders wanneer inzichten over gezondheid[5] zover uit elkaar liggen dat er een paradigmaverschuiving[6] ontstaat zoals beschreven door de wetenschapsfilosoof Thomas Kuhn[5, 6].

Dat gezondheidsdeskundigen uitgaan van bio-ethiek en medische ethiek, en mensenrechtendeskundigen uitgaan van fundamentele rechten, is een belangrijk element in de verschuiving van een medisch (ziekte/afwijking/schaamte)-paradigma naar een emancipatoir (stigma-doorbrekend) paradigma. Het is tevens de oorzaak van een neveneffect dat Kuhn aanduidt met 'de incommensurabiliteit van taal':

> *Since new paradigms are born from old ones, they ordinarily incorporate much of the vocabulary and apparatus, both conceptual and manipulative, that the traditional paradigm had previously employed. But they seldom employ these borrowed elements in quite the traditional way. Within the new paradigm, old terms, concepts, and experiments fall into new relationships one with the other. The inevitable result is what we must call, though the term is not quite right, a misunderstanding between the two competing schools.*[6]

Dit is de reden waarom mensenrechtendeskundigen en gezondheidsdeskundigen zo veel moeite hebben om met elkaar communiceren: zij gebruiken vaak dezelfde woorden, maar spreken een andere taal. De verschuiving in de betekenis van woorden is kenmerkend voor paradigmaverschuivingen.

Kuhn beschrijft ook dat voorstanders van elkaar bestrijdende paradigma's het vaak niet eens zullen zijn over welke problemen opgelost moeten worden omdat de gehanteerde uitgangspunten of de definities van wetenschap zijn niet gelijk zijn. Er is geen reden om aan te nemen dat dit anders is bij de paradigmaverschuiving voor intersekse.

---

2 Maximalisering van het nut voor alle betrokkenen is het credo van een filosofische theorie die bekend staat als het utilitarisme (naar het Latijnse utilitas: nut). 'Goed' is hierbij gedefinieerd als dat wat het grootste geluk brengt aan het grootste aantal mensen. De utilitaristische ethiek is ontwikkeld vanuit het hedonisme van Epicurus door David Hume (1711- 1776), Jeremy Bentham (1748-1832) en John Stuart Mill[7] (1806-1873).

3 Tirannie van de meerderheid: dit begrip, als aanduiding voor de excessen van de democratie, wordt uitgebreid beschreven in het werk *De la démocratie en Amérique* van de Franse politiek-filosoof Alexis de Tocqueville (1805-1859) die het beschouwt als de 'natuurtoestand' van de samenleving.[3]

4 Deontologie: plichtenleer. De deontologische ethiek gaat uit van de gelijkwaardigheid van personen.

5 Gezondheid is een sociale constructie en als zodanig ook onderhavig aan paradigmaverschuivingen[4] - het is een norm die we regelmatig bijstellen, maar die altijd uitgaat van een tijdgebonden ideaal. De opkomst van Evidence Based Medicine in de jaren 1990 doet daar niets aan af: we proberen tegenwoordig wel te bewijzen dat een behandeling effectief is of niet, maar dat wil niet zeggen dat een behandeling ook noodzakelijk is.

6 Een of meer samenhangende sociale constructies (vaak aangeduid als norm, waarde, theorie of filosofisch uitgangspunt) worden een paradigma genoemd. Als een groeiend aantal mensen de heersende afspraken verwerpt, kan sprake zijn van een paradigmaverschuiving[6] (Kuhn) of een epistemische breuk[1] (Gaston Bachelard en later ook Foucault).

Door de spraakverwarring en het willen oplossen van andere problemen is het samen ontwikkelen van een kwaliteitstandaard voor DSD door gezondheidsdeskundigen en mensenrechtendeskundigen gecompliceerd. Maar niet onmogelijk[7].

Miriam van der Have

Directeur NNID

Dit document is geschreven vanuit een mensenrechtenperspectief. Wie het bijbehorende taalgebruik niet helemaal beheerst zal mogelijk iets anders lezen dan ik bedoel - ik hoop dat u uitgaat van de goede wil.

[7] Ik put daarbij hoop uit wat dr. Petra de Sutter, arts en lid van de Parlementaire Vergadering van de Raad van Europa, tegen kinderurologen zei tijdens het 29ste ESPU-congres in Helsinki: *'..put in place protocols that are compliant with human rights principles - you will not be able to get around this, because if there is a discussion between Evidence Based Medicine -science- and human rights, believe me, I can give you tens of examples, the human rights will always win'*[2].

Referenties Inleiding

1. **Bachelard G**. The Formation of the Scientific Mind. Manchester, UK: Clinamen Press; 2002 (1938).
2. **de Sutter P**. DSD: At the Crossroads of Medicine, Human Rights and Politics; Lecture at the 29th ESPU Congress in Helsinki [video]: ESPU; 2018.
3. **de Tocqueville A**. Democracy in America: Historial-Critical Edition of De La Démocratie en Amérique - a Bilingualfrenc-English Edition (Vol. 1-4). Indianapolis, IN, USA: Liberty Fund; 2010.
4. **Foucault M**. The Birth of the Clinic: An Archaeology of Medical Perception: Routledge / Taylor & Francis Group; 1973.
5. **Kuhn TS**. The Road since Structure: Philosophical Essays, 1970-1993, with an Autobiographical Interview. Conant J, Haugeland J, redactie: University of Chicago Press; 2000.
6. **Kuhn TS**. The Structure of Scientific Revolutions. 2nd ed: University of Chicago press; 2012 (1962, 1970).
7. **Mill JS**. Utilitarianism: Wildside Press LLC; 1879, ed. 2007.

Kwaliteitstandaarden voor DSD

NNID steunt de ontwikkeling van op mensenrechten gebaseerde kwaliteitsstandaarden voor DSD.

Standpunt NNID

NNID steunt de ontwikkeling van kwaliteitsstandaarden[8] voor Differences of Sex Development (DSD[7, 9]), en vraagt op basis van mensenrechtelijke vereisten en ontwikkelingen in de zorg een (deels) andere invulling dan gezondheidswerkers en patiëntenorganisaties[9].

NNID constateert dat het acroniem *DSD* voornamelijk in de zorg gebruikt wordt; dat voor de maatschappelijke gevolgen het woord *intersekse*[10] gebruikt wordt; dat er belangrijke verschillen van inzicht bestaan tussen de sociale en medische visie en dat DSD en intersekse dezelfde groep mensen betreft[11].

1 **NNID adviseert kwaliteitsstandaarden voor DSD niet alleen te baseren op de technische mogelijkheden van de (medische) behandeling, maar ook op de fundamentele rechten van mensen, waaronder, maar niet beperkt tot, het recht op lichamelijke integriteit en het recht op zelfbeschikking.**

Een op mensenrechten[12] gebaseerde medische behandeling moet, volgens NNID, tenminste de volgende uitgangspunten hanteren:

a) De lichamelijke integriteit van een kind is een mensenrecht;
b) Een gezondheidswerker of ouder/voogd mag dit recht alleen schenden als het respecteren van het recht leidt tot ernstige schade voor het kind, waarbij het begrip 'ernstige schade voor het kind' wetenschappelijk onderbouwd dient te zijn[13];
c) Als schending van dit recht noodzakelijk is, moet een volledig omkeerbare chirurgische techniek of medicatie worden gebruikt die de lichamelijke integriteit van het kind zo min mogelijk schendt én die zo min mogelijk invloed heeft op de genderontwikkeling en genderervaring van het kind;

---

8 Volgens de definitie van Zorginstituut Nederland: 'Verzamelnaam van richtlijnen, zorgmodules en zorgstandaarden die betrekking hebben op het gehele zorgproces of een deel van een specifiek zorgproces en die vastleggen wat goede zorg is. De inhoud van de term kwaliteitsstandaard volgt daarmee de definitie van de term professionele standaard zoals omschreven in de Zorgverzekeringswet.'[19]

9 Op 22 januari 2018 riep dr. Hedi Claahsen (Radboudumc) in Utrecht tijdens de door het Ministerie van Volksgezondheid, Welzijn en Sport geïnitieerde bijeenkomst van stakeholders op tot de ontwikkeling van een Kwaliteitsstandard DSD. Dit idee is door een 'kerngroep'onder leiding van dr. Claahsen verder uitgewerkt tot een intentieverklaring. Bij de presentatie van de intentieverklaring bleek NNID op basis van mensenrechtelijke vereisten en ontwikkelingen in de zorg gedeeltelijk een andere visie te hebben dan de kerngroep. Een voorstel van NNID om die visie te verwerken in de intentieverklaring is niet is overgenomen door de initiatiefnemers. De kerngroep concludeerde daarop dat NNID geen trekkende rol kan hebben, maar de betrokken partijen zijn het met elkaar eens dat NNID wel kan adviseren. Deze Handreiking moet gezien worden als het advies aan de kerngroep die de Kwaliteitstandaard DSD ontwikkelt, maar richt zich ook op anderen die betrokken zijn bij de medische behandeling van Differences of Sex Development.

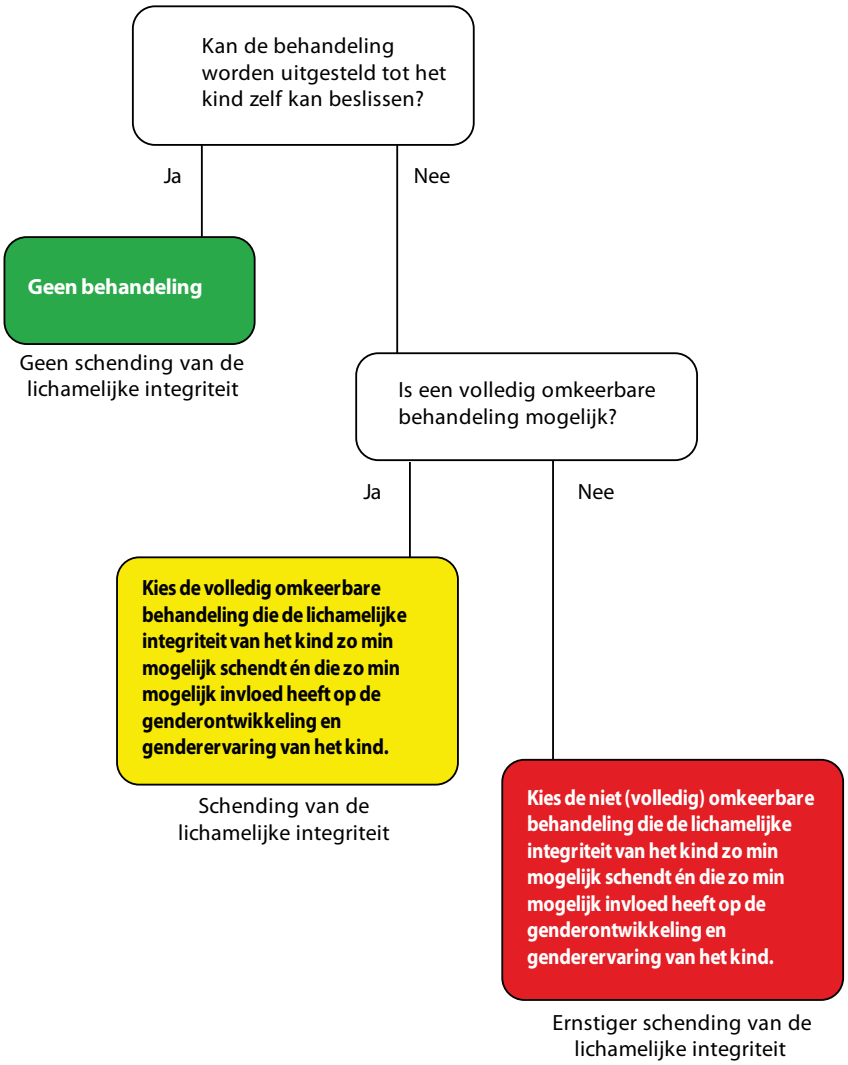
10 Zie Bijlage A voor de definitie van het begrip intersekse.

11 Zie Bijlage B voor de wezenlijke verschillen tussen intersekse en DSD.

12 Ook bekend als *fundamentele rechten* of *grondrechten*.

13 Dit houdt o.a. in dat een vermeende psycho-sociale noodzaak of 'goede psychologische ontwikkeling' geen reden zijn voor een 'normaliserende' behandeling. Bijlage C demonstreert dat de negatieve sociale gevolgen van intersekse eerder aan de behandeling zijn toe te schrijven dan aan het intersekse zijn.

d) Alleen als de schending van dit recht noodzakelijk is en een volledig omkeerbare behandeling niet mogelijk is, mag een niet-omkeerbare chirurgische techniek of medicatie worden gebruikt die de lichamelijke integriteit van het kind zo min mogelijk schendt én die zo min mogelijk invloed heeft op de genderontwikkeling en genderervaring van het kind.



Iedere behandeling leidt tot een schending van de lichamelijke integriteit.
Omdat het recht op lichamelijke integriteit een grondrecht is,
moet gekozen worden voor de medische behandeling die dit recht het minst schendt.

Dit advies is gebaseerd op Nederlandse wetgeving, internationale wetgeving en publicaties van organisaties en instanties die zich zorgen maken over de schending van de mensenrechten van intersekse personen in Nederland, waaronder:

- Artikel 11 van de grondwet: Ieder heeft, behoudens bij of krachtens de wet te stellen beperkingen, recht op onaantastbaarheid van zijn lichaam.
- Door Nederland ondertekende en geratificeerde verdragen zoals, maar niet beperkt tot, het Internationaal Verdrag inzake economische, sociale en culturele rechten (ICESCR)[14]

[14] Specifiek artikel 12 http://wetten.overheid.nl/BWBV0001016/1979-03-11 en de verduidelijking daarvan volgens *CESCR Comment No. 14*: "The right to health contains both freedoms and entitlements. The freedoms include the right to control one's health and body, including sexual and reproductive freedom, and the right to be free from interference, such as the right to be free from torture, non-consensual medical treatment and experimentation. By contrast, the

- Aanbevelingen die de Nederlandse overheid naar aanleiding van internationale verdragen heeft gekregen van Verenigde Naties[2, 3, 18] om een op mensenrechten gebaseerd protocol voor de behandeling van intersekse mensen op te stellen.
- Aanbevelingen van de Europese Commissaris voor de Mensenrechten van de Raad van Europa[4],
- Resoluties van de Parlementaire Vergadering van de Raad van Europa[11, 12].
- De rapportage over intersekse van het Europese Bureau voor de Grondrechten[5].
- Rapportages van de Special Rapporteur on torture and other cruel, inhuman or degrading treatment or punishment[10], en de Special Rapporteur on the right of everyone to the enjoyment of the highest attainable standard of physical and mental health[6, 13, 14, 15] en de gezamenlijke verklaring van 12 VN-organisaties (ILO, OHCHR, UNDP, UNESCO, UNFPA, UNHCR, UNICEF, UNODC, UN Women, WFP, WHO, UNAIDS secretariat)[8].
- De brief van 18 september 2018 aan de Internationale Atletiek Federatie IAAF, ondertekend door
  - de Special Rapporteur on the right of everyone to the enjoyment of the highest attainable standard of physical and mental health,
  - de Special Rapporteur on torture and other cruel, inhuman or degrading treatment or punishment, en
  - de Chair-Rapporteur of the Working Group on the issue of discrimination against women in law and in practice[16].

2 NNID adviseert kwaliteitsstandaarden voor DSD te richten op de depathologisering/demedicalisering van de zorg voor intersekse/DSD en de (medische) behandeling te baseren op de vrije, volledig geïnformeerde consent van de intersekse/DSD-persoon zelf.

Rekening houden met het bovenstaande betekent dat een inventarisatie van knelpunten niet volledig kan zijn zonder een analyse van de relatie tussen grondrechten en de knelpunten. Als, bijvoorbeeld, ouders aangeven dat zij voorstander zijn van een 'normaliserende' behandeling, moet die wens worden getoetst aan het schema op de vorige pagina. Vanuit een mensenrechtenperspectief kan een 'normaliserende' behandeling pas worden besproken als het kind oud genoeg is om zelf te beslissen[15] en alles in het werk is gesteld om te voorkomen dat het kind onder druk van anderen beslist.

Bezoek aan artsen dient in de tussentijd tot het absolute minimum te worden gereduceerd. Tegelijk moet informatie waar het kind naar vraagt eenvoudig opvraagbaar zijn, zonder dat sprake is van 'truth dumping'[16].

3 NNID adviseert disseminatie van kennis over seksediversiteit in de maatschappij niet op te nemen in kwaliteitsstandaarden voor DSD.

De intentieverklaring van dr. Claahsen (zie voetnoot 9) spreekt over 'gebrek aan kennis en bekendheid zowel bij professionals als in de maatschappij'. Het standpunt van NNID is dat de disseminatie van kennis over seksediversiteit in de maatschappij niet behoort tot het takenpakket van de zorg of gezondheidswerkers. Dat is immers ook niet het geval bij seksuele diversiteit en genderdiversiteit. Alle drie de vormen van diversiteit worden beschouwd als een sociaal fenomeen en niet als een medisch fenomeen. Bovendien is de medische beroepsgroep in alle drie de vormen van diversiteit betrokken geweest bij ernstige mensenrechtenschendingen en is daarmee niet de meest voor de hand liggende informatiebron.

---

entitlements include the right to a system of health protection which provides equality of opportunity for people to enjoy the highest attainable level of health."[1]

15 Een analogie met de behandeling van transgenderkinderen ligt hier voor de hand; de leeftijdsgrens zou dan 16 jaar voor omkeerbare medicinale behandelingen zijn en 18 jaar voor onomkeerbare behandelingen.

16 Truth dumping is het verstrekken van een grote hoeveelheid informatie aan leken die op basis hiervan een beslissing moeten nemen, terwijl experts niet in staat zijn deze informatie met zekerheid te interpreteren.

Disseminatie van kennis naar de maatschappij door gezondheidswerkers, waarbij net als tot nu toe de gezondheidswerkers bepalen welke kennis verspreid wordt en op welke wijze, versterkt de bestaande kennisasymmetrie tussen artsen en intersekse mensen[17]. Bovendien is toch al sprake van een ongelijk speelveld doordat gezondheidswerkers aanmerkelijk beter financieel gesteund worden door overheden dan intersekse organisaties[17].

Voor de medisch noodzakelijke behandeling van DSD is niet meer voorlichting noodzakelijk dan voor, bijvoorbeeld, een blindedarmoperatie – strikt medische informatie op de websites van ziekenhuizen moet dan volstaan.

Intersekse wordt in de maatschappij nog altijd niet goed begrepen. De gevolgen hiervan voor intersekse mensen zijn psychosociale problemen en een verhoogd percentage zelfmoordpogingen[18]. Om deze problemen te verhelpen moet de maatschappij worden veranderd, niet de individuele intersekse persoon. Er zijn tal van organisaties die daar veel ervaring mee hebben en die daarom beter geschikt zijn om de disseminatie van kennis over seksediversiteit in de maatschappij te verzorgen.

4 NNID adviseert 'juridische zorg' niet op te nemen in kwaliteitsstandaarden voor DSD.

Het is niet gewenst dat kwaliteitsstandaarden voor DSD zich richten op 'juridische zorg'. Dit om dezelfde redenen waarom disseminatie van kennis in de maatschappij niet in kwaliteitsstandaarden voor DSD thuishoort, maar ook vanwege de snelheid waarmee juridische informatie veroudert. Zelfs als 'juridische zorg' zou worden verstrekt door juristen, hoort dergelijke informatieverstrekking en hulp niet thuis in een medische kwaliteitsstandaard. De maatschappij biedt daarvoor via andere kanalen al uitstekende oplossingen. Net zoals NNID streeft naar demedecalisering, wordt ook gestreefd naar verregaande dejuridisering.

5 NNID adviseert in kwaliteitsstandaarden voor DSD nadrukkelijk rekening te houden met het beperkte zicht dat gezondheidswerkers hebben op DSD en intersekse.

Medisch-wetenschappelijk onderzoek naar intersekse/DSD heeft bijna altijd te maken met sampling bias, self-selection bias en lost to follow-up bias. Deze effecten worden niet of onvoldoende besproken in medisch-wetenschappelijk onderzoek en hebben grote gevolgen voor de betrouwbaarheid van de uitkomsten van onderzoek.[19]

Het is daarom riskant de kwaliteitsstandaard DSD te baseren op de patiënten met wie gezondheidswerkers nog wel contact hebben. Op zijn minst moet in kwaliteitsstandaarden voor DSD een (statistische) analyse worden opgenomen waarin besproken wordt wat de gevolgen van de genoemde bias-typen zijn voor de betrouwbaarheid en validiteit van de aanbevelingen.

NNID waarschuwt voor het bubble-effect dat ontstaat als kwaliteitsstandaarden voor DSD geheel uitgaan van de ervaringen van gezondheidswerkers, en de patiënten, ouders, en patiëntenorganisaties waarmee de gezondheidswerkers contact hebben.

6 NNID adviseert in kwaliteitsstandaarden voor DSD kritisch te kijken naar medisch-wetenschappelijk cohort-onderzoek.

[17] Zie bijlage D voor een beknopte uitleg van het ongelijke speelveld.
[18] Zie bijlage C voor een beknopt overzicht van de sociale gevolgen.
[19] Zie bijlage E voor een beknopte uitleg van de gevolgen van o.a. lost to follow-up.

Lange tijd is gezegd dat te weinig langetermijn follow-up onderzoek is verricht naar intersekse/DSD. Dat lijkt de afgelopen jaren te zijn veranderd: recentelijk zijn tal van publicaties verschenen die het resultaat zijn van grote projecten zoals i-DSD en dsd-LIFE. NNID is van mening dat deze onderzoeken ernstige methodologische beperkingen kennen, waardoor de bruikbaarheid voor kwaliteitsstandaarden voor DSD bezien moet worden binnen de beperkingen van de onderzoeken[20].

Samenvattend

NNID steunt de ontwikkeling van kwaliteitsstandaarden voor Differences of Sex Development en adviseert op basis van mensenrechtelijke vereisten en ontwikkelingen:

- kwaliteitsstandaarden voor DSD niet alleen te baseren op de technische mogelijkheden van de medische behandeling, maar ook op de grondrechten van mensen, waaronder, maar niet beperkt tot, het recht op lichamelijke integriteit en het recht op zelfbeschikking;
- kwaliteitstandaarden voor DSD te richten op de depathologisering/demedicalisering van de zorg voor intersekse/DSD en de (medische) behandeling te baseren op de vrije, volledig geïnformeerde consent van de intersekse/DSD-persoon zelf;
- disseminatie van kennis over seksediversiteit in de maatschappij niet op te nemen in kwaliteitsstandaarden voor DSD, maar dit over te laten aan organisaties en instanties die daar ruime ervaring mee hebben;
- ‘juridische zorg’ niet op te nemen in kwaliteitsstandaarden voor DSD;
- in kwaliteitsstandaarden voor DSD nadrukkelijk rekening te houden met het beperkte zicht dat gezondheidswerkers hebben op DSD en intersekse;
- in kwaliteitsstandaarden voor DSD kritisch te kijken naar medisch-wetenschappelijk cohort-onderzoek.

Onderbouwing

Voor zover dat niet in bovenstaande tekst is gedaan, wordt deze positie onderbouwd in de volgende standpuntbepalingen die als bijlage zijn bijgevoegd:

Bijlage A **Intersekse is de doorleefde ervaring van de sociaal-culturele consequenties van het geboren worden met een lichaam dat niet past binnen de normatieve sociale constructies van ‘man’ en ‘vrouw’.**

Bijlage B **Intersekse is geen synoniem van DSD, maar het betreft wel dezelfde groep mensen.**

Bijlage C **Intersekse heeft sociale gevolgen die niet door gezondheidswerkers kunnen/hoeven worden opgelost.**

Bijlage D **Er is geen gelijk speelveld tussen intersekse organisaties en gezondheidswerkers.**

Bijlage E **Gezondheidswerkers zien slechts een deel van de groep intersekse personen.**

Bijlage F **Beperkingen in bestaand onderzoek maken harde conclusies onmogelijk.**

[20] Zie bijlage F voor een bespreking van de beperkingen van recente cohort-onderzoeken.

Referenties Kwaliteitsstandaarden voor DSD

1. **Committee on Economic, Social and Cultural Rights**. General Comment No. 14 (2000) the Right to the Highest Attainable Standard of Health (Art. 12 of the International Covenant on Economic, Social and Cultural Rights). United Nations, International Covenant on Economic, Social and Cultural Rights, 11 Augustus 2000. Nr. E/C.12/2000/4).
2. **Committee on Economic, Social and Cultural Rights**. Concluding Observations on the Sixth Periodic Report of the Netherlands*. United Nations, International Covenant on Economic, Social and Cultural Rights, 6 July 2017. Nr. E/C.12/NLD/CO/6.
3. **Committee on the Elimination of Discrimination against Women**. Concluding Observations on the Sixth Periodic Report of the Netherlands. United Nations, 18 November 2016. Nr. CEDAW/C/NLD/CO/6.
4. **European Commission, Agius S, Tobler C**. Trans and Intersex People: Discrimination on the Grounds of Sex, Gender Identity and Gender Expression. Luxembourg: Office for Official Publications of the European Union; 2012. https://doi.org/10.2838/56269
5. **FRA – European Union Agency for Fundamental Rights**. Protection against Discrimination on Grounds of Sexual Orientation, Gender Identity and Sex Characteristics in the EU: Comparative Legal Analysis Update 2015. Vienna, Austria: FRA – European Union Agency for Fundamental Rights, 2015. Rapport Nr. 978-92-9239-892-7.
6. **Grover A**. Report of the Special Rapporteur on the Right of Everyone to the Enjoyment of the Highest Attainable Standard of Physical and Mental Health. United Nations, General Assembly, 10 augustus 2009. Nr. A/64/272.
7. **Hughes IA, Houk C, Ahmed SF, Lee PA, Lwpes Consensus Group, Espe Consensus Group**. Consensus Statement on Management of Intersex Disorders. Arch Dis Child. 2006;91(7):554-563. https://doi.org/10.1136/adc.2006.098319
8. **ILO, OHCHR, UNDP, UNESCO, UNFPA, UNHCR, et al.** Joint Statement of 12 UN Organisations: Ending Violence and Discrimination against Lesbian, Gay, Bisexual, Transgender and Intersex People2015 September.
9. **Lee PA, Houk CP, Ahmed SF, Hughes IA**. Consensus Statement on Management of Intersex Disorders. Pediatrics. 2006;118(2):e488-e500. https://doi.org/10.1542/peds.2006-0738
10. **Méndez JE**. Report of the Special Rapporteur on Torture and Other Cruel, Inhuman or Degrading Treatment or Punishment, Human Rights Council United Nations, Twenty-Second Session. Report. United Nations Human Rights Council, 02/01/2013 2013. Nr. A/HRC/22/53.
11. **Parlementaire Vergadering van de Raad van Europa**. Resolution 1952 (2013) - Children's Right to Physical Integrity. Strasbourg: Raad van Europa, 2013.
12. **Parlementaire Vergadering van de Raad van Europa**. Resolution 2191 (2017) - Promoting the Human Rights of and Eliminating Discrimination against Intersex People. Strasbourg: Raad van Europa, 2017.
13. **Pūras D**. Report of the Special Rapporteur on the Right of Everyone to the Enjoyment of the Highest Attainable Standard of Physical and Mental Health. United Nations, General Assembly, 30 juli 2015. Nr. A/70/213.
14. **Pūras D**. Report of the Special Rapporteur on the Right of Everyone to the Enjoyment of the Highest Attainable Standard of Physical and Mental Health. United Nations, General Assembly, 4 april 2016. Nr. A/HRC/32/33.
15. **Pūras D**. Report of the Special Rapporteur on the Right of Everyone to the Enjoyment of the Highest Attainable Standard of Physical and Mental Health. United Nations, General Assembly, 28 March 2017. Nr. A/HRC/35/21.
16. **Pūras D, Melzer N, Radačić I**. Regulations Regarding Eligibility for the Female Classification (Athletes with Differences of Sex Development) [Ol Oth 62/2018]. Gericht aan: Coe S, International Association of Athletics Federations, IAAF. Geneva, Switzerland: United Nations; 12 September 2018.
17. **Van Heesch MA**. Ze Wisten Niet of Ik een Jongen of Meisje Was: Kennis, Keuze en Geslachtsvariaties - over het Leven Met en Kennen van Intersekse Condities in Nederland [Proefschrift]. Vossiuspers, Amsterdam, Nederland: Universiteit van Amsterdam; 2015.
18. **Working Group on the Universal Periodic Review**. Draft Report of the Working Group on the Universal Periodic Review*: Netherlands. Geneva, Switzerland: United Nations Human Rights Council, 18 May 2017. Nr. A/HRC/WG.6/27/L.13.
19. **Zorginstituut Nederland**. Toetsingskader Kwaliteitsstandaarden, Informatiestandaarden & Meetinstrumenten 2015 - Versie 2.1 - 18 Juni 2018. Zorginstituut Nederland, 2018.

Bijlage A: Definitie van intersekse

**Intersekse is de doorleefde ervaring
van de sociaal-culturele consequenties
van het geboren worden met een lichaam
dat niet past binnen de
normatieve sociale constructies van 'man' en 'vrouw'.**

Bovenstaande definitie van intersekse is niet alleen een beschrijving voor anderen; het is ook een beschrijving *van* intersekse mensen zelf *voor* intersekse mensen. Een definitie zegt intersekse mensen wie zij zijn en anderen hoe intersekse mensen gezien willen worden. Tegelijk is een definitie niet alleen beschrijvend maar ook scheppend: intersekse mensen worden wat in de definitie is beschreven. Dat bepaalt hoe de maatschappij intersekse mensen ziet: als patiënten, als biologische aberraties (freaks of nature), of als een groep mensen die ongelijk wordt behandeld in deze maatschappij.

De Nederlandse wet verwijst op ongeveer 750 plaatsen naar gegenderde begrippen, maar nergens worden die begrippen gedefinieerd[21]. Ook het VN-verdrag inzake de uitbanning van alle vormen van discriminatie van vrouwen (CEDAW) –mogelijk het belangrijkste verdrag voor de positie van vrouwen– bevat geen definitie van vrouw[22]. Zelfs de wetenschap heeft geen eenduidige definitie van het begrip vrouw[9, 10]. Hoewel dat in de toekomst ook voor intersekse moet gelden, is het voorlopig belangrijk om een definitie te hebben die gebruikt kan worden om het verschil met DSD[23] te duiden, bijvoorbeeld binnen sociale wetenschappen.

Eerdere definities werken medicalisering van intersekse in de hand door

- biologische begrippen te gebruiken, waarvan het vaststaat dat die begrippen in relatie tot sekse en gender niet vrij zijn van sociale constructies[24] en normativiteit[8];
- intersekse te verbinden aan kenmerken die niet voor iedereen zichtbaar zijn, bijvoorbeeld genen en hormonen (alleen zichtbaar in een laboratorium), en genitaliën (alleen zichtbaar als iemand is uitgekleed) waardoor de geneeskunde intersekse als een medisch probleem kan claimen ongeacht of de geneeskunde een oplossing kan bieden[25];
- het eenzijdig voorstellen van intersekse als het medisch of biologisch falen van het lichaam waardoor intersekse personen eerder als patiënt gestereotypeerd worden en de keuze[26] voor non-consensuele, non-therapeutische medische behandeling van kinderen acceptabel lijkt.[4, 11].

---

21 Voor een overzicht, zie Bijlage 7 van *M/V en verder - Sekseregistratie door overheid en de juridische positie van transgenders.*[12]

22 http://wetten.overheid.nl/BWBV0002909/1991-08-22

23 Zowel de classificatie als de definitie van DSD werden in 2006 beschreven in wat ook wel bekend staat als de Chicago Consensus Statement.[5], [7]

24 Voor de goede orde: 'sociale constructie' moet niet worden gelezen als 'iets dat niet echt is' of 'iets dat in een laboratorium bedacht is door een stel sociaal wetenschappers'. Een sociale constructie is een werkelijkheid die gedefinieerd wordt door mensen binnen die werkelijkheid – ieder zo geconstrueerde werkelijkheid verandert (of wordt herdefinieerd) door het handelen van mensen[1]. Als iets een sociale constructie is, betekent dit dat het een werkelijkheid is die door mensen gedefinieerd is en die door mensen herdefinieerd kan worden. Zelfs het lichaam is, naast de strikt biologische kenmerken, een sociale constructie; denk daarbij aan het lichaam als tempel van de geest, het maakbare lichaam, en de schoonheid van het lichaam.

25 De geneeskunde wordt zo ingezet als een instrument voor sociale controle - dit proces wordt beschreven in: Zola's *Medicine as an institution of social control*[14]*.

26 Gezondheidswerkers die voorstander zijn van de non-consensuele, non-therapeutische medische behandeling van kinderen, en mensenrechtendeskundigen die daar tegen zijn beantwoorden dezelfde vraag, namelijk *'hoe optimaliseer*

Omdat het label dat iemand krijgt opgeplakt bijdraagt aan de mening van gezondheidswerkers over die persoon[3, 6], hebben Miriam van der Have en Margriet van Heesch een *post-medicine* definitie voor intersekse ontwikkeld die demedicalisering bevordert en ook bij sterk wijzigende maatschappelijke omstandigheden bruikbaar zal blijven:

> *Intersekse is de **doorleefde ervaring** van de **sociaal-culturele consequenties** van het geboren worden met een lichaam dat niet past binnen de de **normatieve sociale constructies van 'man' en 'vrouw'**.*

Deze definitie bevat drie dynamische elementen die door de jaren heen kunnen veranderen of afhankelijk zijn van de omstandigheden waarin de intersekse persoon leeft.

- De **doorleefde ervaring** is sterk leeftijd- en cultuur-afhankelijk. Een meisje van zeven is met andere dingen bezig dan iemand van 20 die kinderen wil krijgen, en iemand die in een accepterende samenleving opgroeit heeft een andere doorleefde ervaring dan iemand die zijn hele leven met een geheim moet rondlopen.
- De **sociaal-culturele consequenties** zijn afhankelijk van de mate waarin een samenleving intersekse accepteert. Dit element is dynamisch omdat een intersekse persoon in een samenleving die intersekse meer of minder accepteert, meer of minder sociaal-culturele gevolgen zal ondervinden.
- De **normatieve sociale constructies van man en vrouw** wijzigen permanent[2].

De drie dynamische elementen benoemen niet alleen wat *veranderlijk* is, maar ook wat *veranderbaar* is. Dat zijn de gebieden waar intersekse belangenbehartiging betekenisvol kan worden gemaakt.
Door ieder van de drie dynamische elementen kan het begrip intersekse in theorie zijn betekenis in de toekomst geheel verliezen. In de praktijk zal dat niet zo snel gebeuren, en zal vooral de betekenis van de term veranderen, net zoals dat bij de begrippen man en vrouw ook gebeurt. Maar ook bij een veranderende betekenis, zal de definitie hetzelfde blijven.

Afgeleiden van deze definitie

In het Engels luidt de definitie:

> *Intersex is the lived experience of the socio-cultural consequences of being born with a body that does not fit in the normative social constructions of male and female.[13]*

Naast deze uitgebreide, op wetenschap gerichte, definitie hebben dezelfde auteurs ook een definitie ontwikkeld voor dagelijks gebruik:

> *Intersekse verwijst naar de ervaringen van mensen die zijn geboren met een lichaam dat niet voldoet aan de normatieve definitie van man of vrouw.*

In het Engels:

> *Intersex refers to the experiences of people who are born with a body that does not meet the normative definition of male or female.*

Hoewel intersekse en DSD dezelfde groep mensen betreft, hebben beide begrippen een andere definitie en zijn daarom geen synoniemen[27].

---

je het levensgeluk van intersekse kinderen?'. Beide groepen maken een afweging van de gevolgen van het wel of niet normaliseren van kinderen, alleen is hun morele weging, en daarmee de uitkomst, verschillend. Het is de ethiek, uitgedrukt als grondrechten die zijn vastgelegd internationaal recht, die bepaalt welke groep de beste optie biedt.

[27] Zie Bijlage B: Verschil Intersekse & DSD.

Verschil met eerdere definities[28]

Eerder is gesteld dat vorige definities medicalisering van intersekse in de hand werken door biologische begrippen te gebruiken. Om te begrijpen waarom dat bij deze definitie niet gebeurt, moet gekeken worden naar wat een definitie is.

Medicalisering door wijze van verifiëren

Wie een toerist bekend wil maken met de Nederlandse taal, wijst naar bijvoorbeeld een stoel en zegt met een zekere nadruk 'stoel'. Dit heeft twee gevolgen: de toerist begrijpt de betekenis van het woord dat uitgesproken wordt als 'stoel', en tegelijk wordt een zogenaamde *ostensieve definitie* (of aanschouwelijke definitie) van het begrip stoel gegeven. Het gebruik van woorden als chromosomen, hormonen, gonaden, enzovoort is slechts een stap verwijderd van de ostensieve definitie. De lichaamsdelen worden niet aangewezen, maar het gebruik van de namen veronderstelt dat de toehoorder begrijpt wat de begrippen inhouden. En als dat niet het geval is, kunnen de lichaamsdelen worden aangewezen in een medische encyclopedie.

Het nadeel van een ostensieve definitie is dat deze beperkt is tot hetgeen aangewezen kan worden of waarvan een tekening kan worden gemaakt. Begrippen als stigma, schaamte of geheimhouding – belangrijke kenmerken van intersekse – zijn op die manier niet te definiëren. Het gevolg is dat definities die verwijzen naar chromosomen, hormonen, gonaden, enzovoort wel vertellen hoe een intersekse persoon kan worden herkend, maar niet wat intersekse is.

Maar zelfs dat 'herkennen' is niet voor iedereen weggelegd. Doordat de chromosomen, hormonen, gonaden, enzovoort niet zichtbaar zijn, is de propositie dat iemand een intersekse persoon is, voor niet-medici wel *in principe verifieerbaar*, maar niet *actueel verifieerbaar*[29]. Anders gezegd: bij een definitie die uitgaat van chromosomen, hormonen, gonaden, enzovoort is alleen een arts in staat om te bepalen of iemand intersekse is.

Medicalisering door een tijdgebonden definitie

Een definitie die 'herkennen' tot doel heeft wordt een *operationele definitie* genoemd[30]. Eerdere definities voor intersekse zijn dus operationeel: ze geven aan hoe een intersekse persoon kan worden herkend. Omdat ze de variabelen beschrijven die dienen als indicatoren (hormonen, chromosomen, gonaden, enzovoort) en de procedures die gevolgd worden bij het meten of waarnemen van deze variabelen (impliciet: medische procedures, want niet iedereen kan in een lichaam kijken), zijn deze definities vooral bedoeld om intersekse te *meten* of te *tellen.*

Operationele definities schetsen een beeld, maar zijn ook afhankelijk van een beeld. De definitie van een boek als 'een informatiedrager bestaande uit bedrukte vellen papier die zijn ingebonden tussen een voorkaft en een achterkaft', is niet bruikbaar voor e-boeken, maar ook niet voor handgeschreven boeken, perkamenten boeken en boekrollen. Door de tijd heen is het beeld dat het woord boek bij mensen oproept veranderd, maar het woord zelf niet. De operationele definities van veel woorden[31] moeten daarom aangepast worden aan nieuwe ontwikkelingen. Of beter gezegd: operationele definities houden niet lang stand als de omstandigheden veranderen. Maar ook geldt dat een operationele definitie het bestaande beeld bevestigd en vernieuwing in de weg staat: nog steeds vinden veel mensen een e-book nog geen 'echt boek'. Dit vasthouden aan verouderde operationele definities staat de acceptatie van nieuwe operationele definities in de weg. Datzelfde geldt ook voor intersekse; een operationele definitie van intersekse die uitgaat van biologische kenmerken staat de paradigma-verschuiving van een ziekte-paradigma naar een stigma-paradigma in de weg.

---

[28] In het kader van dit hoofdstuk beschouwen we 'definitie' als een operationele beschrijving of een conceptuele beschrijving, en worden stipulatieve beschrijvingen buiten beschouwing gelaten.

[29] Het onderscheid tussen in principe verifieerbaar en actueel verifieerbaar is afkomstig uit het werk van de Duitse filosoof en natuurkundige Moritz Schlick.

[30] Operationele definities worden ook wel empirische definities genoemd.

[31] Bijvoorbeeld telefoon (zonder snoer), camera (onderdeel van 'telefoon'), foto (digitaal), film (digitaal), krant (digitaal), taxi (uber), man (spectrum), vrouw (spectrum), betalen (kaart, online), batterij (inclusie van accu), oudere (leeftijdsverschuiving), fiets (met motor), auto (met elektrische motor), baan (inclusie van zzp'ers), beeldscherm (plat), radiozender(kabel/internet), album (van LP naar CD naar online)

Doordat bestaande operationele definities uitgaan van de fysieke kenmerken van intersekse en eventueel de daar mogelijk uit voortkomende psychische problemen, lijkt intersekse alleen deel uit te maken van het gezondheidszorgdomein. In werkelijkheid is intersekse een multidimensioneel concept; in een toekomstige operationele definitie moet zichtbaar zijn dat intersekse deel uitmaakt van tal van andere domeinen, waaronder het historische domein, het sociale domein, het culturele domein, maar ook het medische domein (echter zonder dat op voorhand wordt aangenomen dat intersekse tot een verminderde kwaliteit van leven leidt of dat intersekse per definitie een ongewenste uitkomst van een zwangerschap[32] is).

De conceptuele definitie

Ondanks dat de woorden vroeger een andere betekenis hadden, weet iedereen wat de huidige betekenis van het woord boek is. Op dezelfde wijze praten we bij muziek die via het internet beluisterd wordt nog steeds over een 'nieuw album' of zelfs 'een nieuwe cd'. We kijken naar 'films' die digitaal zijn, gebruiken 'telefoons' die niets meer te maken hebben met de uitvinding van Bell, en computers met 'drives' waar geen bewegende delen meer in zitten. Dat komt doordat we bewust of onbewust conceptuele definities gebruiken. Conceptuele definities maken het mogelijk dat hetzelfde woord gebruikt kan worden, zelfs als de feitelijke betekenis telkens verandert.

Een conceptuele definitie geeft de tijdloze betekenis van een woord. De conceptuele definitie van intersekse zegt dus niet waaraan een intersekse persoon wordt *herkent*, maar wat intersekse *betekent*. Een conceptuele definitie laat zien hoe de constructie die de definitie is, gerelateerd is aan andere abstracte constructies. Zonder conceptuele definitie is onbekend wat met de operationele definitie gemeten wordt.

De hier beschreven definitie is conceptueel en kan dienen als kader voor een niet-gemedicaliseerde operationele definitie van intersekse.

Intersekse is de doorleefde ervaring van de sociaal-culturele consequenties van het geboren worden met een lichaam dat niet past binnen de normatieve sociale constructies van 'man' en 'vrouw'.

[32] Intersekse wordt steeds vaker al voor de geboorte voorkomen met technieken als embryoselectie via pre-implantatie genetische diagnose (PGD) of geconstateerd met non-invasieve prenatale testen (NIPT). Dergelijke testen zijn gebaseerd op een operationele definitie van intersekse.

Operationele definitie en statistiek

Een operationele definitie, dus een definitie waarmee iets kan worden herkend, maakt statistiek mogelijk. Ten minste, het lijkt alsof statistiek mogelijk wordt. Zonder conceptuele definitie is echter onbekend wát wordt geteld. Als uit sociaal-psychologisch onderzoek blijkt dat 30 procent van de mannen met 47,XXY-chromosomen leerproblemen heeft op de middelbare school (dit percentage is verzonnen), kan het goed zijn dat bij herhaling van het onderzoek tien jaar later, slechts 10 procent dergelijke problemen heeft. Ondanks dat het onderzoek lijkt te gaan over leerproblemen en mannen met het syndroom van Klinefelter, zal het voor iedereen duidelijk zijn dat veel meer factoren een rol spelen. Is de acceptatie door de maatschappij veranderd? Zijn er betere lesmethoden? Worden chromosoomvariaties eerder herkend zodat eerder de juiste begeleiding wordt gegeven? Werkt de huidige begeleiding stigmatisering in de hand en leidt dat juist tot leerproblemen? Is er betere medicatie? Waren in het eerste onderzoek alleen mannen meegenomen die al bij artsen bekend waren en had de onzichtbare groep ook tijdens het eerste onderzoek geen leerproblemen? Waren de onderzoekspopulaties sociaal vergelijkbaar? Dat zijn allemaal factoren die zich niet in een eenvoudige vragenlijst laten vangen, waardoor kwantitatief onderzoek zonder conceptuele definitie minder geschikt is.

Dat probleem geldt niet alleen voor de herhaalbaarheid van het onderzoek. Een onderzoekspopulatie van 280 mannen met 47,XXY-chromosomen naar evenredigheid van het inwonersaantal afkomstig uit 28 EU-landen, zal waarschijnlijk andere resultaten opleveren dan een onderzoek onder 280 mannen met 47,XXY-chromosomen afkomstig uit Nederland[33].

Een conceptuele definitie lost dat probleem niet op, maar maakt wel beter duidelijk welke factoren, die ook constructies zijn, een rol spelen.

[33] Met een correcte conceptuele definitie en een volledige dataset kan statistisch onderzoek veranderingen en de rol van andere factoren wel meenemen in de analyse, maar als de dataset is vertekend door 'Missing Not At Random' zal geen sprake zijn van een volledige, betrouwbare dataset. Dit wordt besproken in Bijlage E: Beperkt zicht op het veld.

Referenties Definitie van intersekse

1. **Berger PL, Luckmann T**. The Social Construction of Reality: A Treatise in the Sociology of Knowledge. London, UK: Penguin Books; 1966 (1991).
2. **Butler J**. Undoing Gender. New York, NY, USA: Routledge; 2004.
3. **Fiske ST, Neuberg SL**. A Continuum of Impression Formation, from Category-Based to Individuating Processes: Influences of Information and Motivation on Attention and Interpretation. In: Zanna MP, redactie. Advances in Experimental Social Psychology. 23: Academic Press; 1990. p. 1-74. https://doi.org/10.1016/S0065-2601(08)60317-2
4. **Heisig SR, Shedden-Mora MC, Hidalgo P, Nestoriuc Y**. Framing and Personalizing Informed Consent to Prevent Negative Expectations: An Experimental Pilot Study. Health Psychology. 2015;34(10):1033-1037. https://doi.org/10.1037/hea0000217
5. **Hughes IA, Houk C, Ahmed SF, Lee PA, Lwpes Consensus Group, Espe Consensus Group**. Consensus Statement on Management of Intersex Disorders. Arch Dis Child. 2006;91(7):554-563. https://doi.org/10.1136/adc.2006.098319
6. **Langer EJ, Abelson RP**. A Patient by Any Other Name...: Clinician Group Difference in Labeling Bias. Journal of consulting and clinical psychology. 1974;42(1):4. https://doi.org/10.1037/h0036054
7. **Lee PA, Houk CP, Ahmed SF, Hughes IA**. Consensus Statement on Management of Intersex Disorders. Pediatrics. 2006;118(2):e488-e500. https://doi.org/10.1542/peds.2006-0738
8. **Lorber J**. Believing Is Seeing: Biology as Ideology. Gender and Society. 1993;7(4):568-581.
9. **Mol A**. Wie Weet Wat een Vrouw Is ... Over de Verschillen en de Verhoudingen tussen Wetenschappen. Tijdschrift voor Vrouwenstudies. 1985;6(1):10-22.
10. **Mol A**. Who Knows What a Woman Is… on the Differences and the Relations between the Sciences. Medicine Anthropology Theor. 2015;2(1):57-75. https://doi.org/10.17157/mat.2.1.215
11. **Streuli JC, Vayena E, Cavicchia-Balmer Y, Huber J**. Shaping Parents: Impact of Contrasting Professional Counseling on Parents' Decision Making for Children with Disorders of Sex Development. The journal of sexual medicine. 2013;10(8):1953-1960. https://doi.org/10.1111/jsm.12214
12. **van den Brink M, Tichelaar J**. M/V en Verder - Sekseregistratie door Overheid en de Juridische Positie van Transgenders. Utrecht: Utrecht Centre for European Research into Family Law (UCERF), 2014.
13. **van der have MJ, van Heesch MA**. Intersex, a Post-Medicine Definition [Powerpoint Slides]. WPATH 24th Scientific Symposium. Amsterdam, the Netherlands, 2016.
14. **Zola IK**. Medicine as an Institution of Social Control*. The Sociological Review. 1972;20(4):487-504. https://doi.org/10.1111/j.1467-954X.1972.tb00220.x

Bijlage B: Verschil Intersekse & DSD

Intersekse is geen synoniem van DSD, maar het betreft wel dezelfde groep mensen.

In wetenschappelijke publicaties worden intersekse en DSD vaak in één adem genoemd. Maar dat is niet terecht; zelden gaat onderzoek naar DSD over intersekse.

Zo'n 12 jaar na de introductie van het acroniem kan niet meer worden gezegd dat intersekse en DSD synoniemen van elkaar zijn[34]. Wel betreft het dezelfde groep mensen. In grote lijnen zijn in de loop van de tijd de volgende verschillen opgetreden, waarbij moet worden opgemerkt dat de werkelijkheid niet zwart/wit is; steeds meer gezondheidswerkers krijgen aandacht voor de maatschappelijke aspecten en begrijpen waarom de Verenigde Naties Nederland aanbevelingen[35] heeft gegeven voor de verbetering van de zorg van intersekse mensen.

Intersekse-gemeenschap	DSD-gemeenschap
…werkt vanuit de sociale wetenschappen.	…werkt vanuit de geneeskunde.
…gaat uit van de doorleefde ervaring.	… gaat uit van het lichaam.
…ziet sekse als spectrum.	…ziet sekse als dichotomie.
…spreekt over mensenrechten.	…spreekt over de beste behandeling.
…wil gelijkwaardigheid.	…discrimineert door trans en intersekse kinderen anders te behandelen.
…accepteert lichamelijke diversiteit.	…ontkent lichamelijke diversiteit dikwijls.
…leidt tot inclusie.	…leidt tot integratie.
…vraagt psycho-sociale ondersteuning omdat de maatschappij intersekse onvoldoende accepteert.	…biedt psychotherapie, bijvoorbeeld om het als niet-normaal getypeerde lichaam te aanvaarden of het aantal zelfmoordpogingen terug te brengen.[3]
…eist lichamelijke integriteit en het recht om zelf te beslissen.	…biedt lichamelijke 'normalisatie' en non-consensuele niet-therapeutische behandelingen.[5]
…wil dat medisch niet-noodzakelijke behandelingen uitgesteld worden tot het kind oud genoeg is om zelf te beslissen.	… denkt dat ouders voor kinderen mogen beslissen over medische niet noodzakelijke behandelingen.[6, 7]
…is tevreden met een goede 'kwaliteit van leven'.	…is tevreden met een 'normaal' lichaam
…wil de maatschappij veranderen.	…wil patiënten veranderen.
…vindt dat intersekse personen zelf mogen bepalen hoe zij zichzelf aanduiden en of zij zichzelf zien als onderdeel van de intersekse-gemeenschap, de dsd-gemeenschap, de lhbti-gemeenschap, of welke gemeenschap dan ook.	…verwerpt het begrip intersekse, de samenwerking met lhbt-organisaties, en intersekse als onderdeel van lhbti-beleid omdat 'de meerderheid van de medische professionals, en veel patiënten en ouders' daar tegen zijn.[1]
…werkt in de maatschappij.	…werkt in ziekenhuizen en patiëntenorganisaties.
In een woord: **demedicalisering**	In een woord: **medicalisering**
Maar het belangrijkste verschil is dat de intersekse-gemeenschap wordt geleid door intersekse mensen en de DSD-gemeenschap wordt geleid door gezondheidswerkers.	

[34] Dat was nog wel het geval in 2006, zoals blijkt uit de titels van de publicaties waarin het acroniem DSD is geïntroduceerd: *Consensus statement on management of intersex disorders*.[2], [4]

[35] Zie de NNID-website voor een overzicht van de aanbevelingen die Nederland inmiddels heeft ontvangen van de VN in relatie tot intersekse: http://nnid.nl/vn-aanbevelingen/

Referenties Verschil intersekse & DSD

1. **Cools M, Simmonds M, Elford S, Gorter J, Ahmed SF, D'Alberton F, et al.** Response to the Council of Europe Human Rights Commissioner's Issue Paper on Human Rights and Intersex People. European urology. 2016. https://doi.org/10.1016/j.eururo.2016.05.015
2. **Hughes IA, Houk C, Ahmed SF, Lee PA, Lwpes Consensus Group, Espe Consensus Group**. Consensus Statement on Management of Intersex Disorders. Arch Dis Child. 2006;91(7):554-563. https://doi.org/10.1136/adc.2006.098319
3. **Khorashad BS, Aghili Z, Kreukels BPC, Reid AG, Roshan GM, Hiradfar M, et al.** Mental Health and Disorders of Sex Development/Intersex Conditions in Iranian Culture: Congenital Adrenal Hyperplasia, 5-A Reductase Deficiency-Type 2, and Complete Androgen Insensitivity Syndrome. Arch Sex Behav. 2018;47(4):931-942. https://doi.org/10.1007/s10508-017-1139-6
4. **Lee PA, Houk CP, Ahmed SF, Hughes IA**. Consensus Statement on Management of Intersex Disorders. Pediatrics. 2006;118(2):e488-e500. https://doi.org/10.1542/peds.2006-0738
5. **Mouriquand P, Caldamone A, Malone P, Frank JD, Hoebeke P**. The ESPU/SPU Standpoint on the Surgical Management of Disorders of Sex Development (DSD). J Pediatr Urol. 2014;10(1):8-10. https://doi.org/10.1016/j.jpurol.2013.10.023
6. **Societies for Pediatric Urology, American Association of Clinical Urologists, American Association of Pediatric Urologists, Pediatric Endocrine Society, Society of Academic Urologists, The Endocrine Society, et al.** Physicians Recommend Individualized, Multi-Disciplinary Care for Children Born 'Intersex' [Internet]. Beverly, MA, USA: The Societies for Pediatric Urology; 2017 [geraadpleegd 27 October 2018]. 17 Nobember 2017. URL: http://spuonline.org/HRW-interACT-physicians-review/.
7. **Wolffenbuttel KP, Hoebeke P**. Open Letter to the Council of Europe. J Pediatr Urol. 2018;14(1):4-5. https://doi.org/10.1016/j.jpurol.2018.02.004

Bijlage C: Sociale gevolgen

Intersekse heeft sociale gevolgen die niet door gezondheidswerkers kunnen/hoeven worden opgelost

Om diverse redenen geeft medisch-wetenschappelijk onderzoek een beperkt en vertekend beeld van de negatieve sociale[36] gevolgen van het niet-accepteren van seksediversiteit door de maatschappij. Er is bovendien weinig onderzoek verricht naar de gevolgen van het persoonlijk trauma. Maar de gegevens die beschikbaar zijn uit recent onderzoek zijn verontrustend. Voor een deel kunnen gezondheidswerkers de problematiek constateren, maar het behoort niet tot hun taak de maatschappij te veranderen. Zelfs als zij dat zouden willen, hebben zij te weinig maatschappelijke invloed om de noodzakelijke verandering te realiseren. En zelfs als ze het zouden kunnen, is hun betrokkenheid bij het ontstaan en het in stand houden van de problematiek reden om gepast afstand te houden[37].

Nederland

In Nederland is door het Sociaal en Cultureel Planbureau verkennend onderzoek gedaan – ook daarin wordt geconcludeerd:

- dat intersekse/DSD niet alleen lichamelijke gevolgen heeft,
- dat intersekse mensen afwegen tegenover wie ze open zijn,
- dat zij zich aanpassen of situaties vermijden zodat hun conditie onzichtbaar blijft,
- dat intersekse/DSD relatievorming, het zelfbeeld als partner of het vormgeven aan een kinderwens kan bemoeilijken,
- dat er sprake is van schaamte en angst voor ongewenste reacties,
- dat die reacties vooral voortkomen uit onwetendheid, ongemak en onbegrip,
- dat de meeste geïnterviewde mensen met intersekse/DSD dit personen in hun sociale omgeving vrijwel niet kwalijk nemen,
- dat ze ongewenste reacties in hun eigen omgeving nauwelijks lijken te associëren met non-acceptatie of discriminatie[24].

Dat beeld komt overeen met de resultaten van het onderzoek dat Margriet van Heesch heeft uitgevoerd. In dat onderzoek vertelden 42 intersekse personen in interviews van twee tot zes uur hun levensnarratieven. Het vertellen ervan bleek een urgentie te hebben in hun leven. Sommigen hadden hun verhaal nog niet eerder aan iemand buiten de medische beroepsgroep durven vertellen – Van Heesch beschrijft een situatie van *'secret stardom'* waarbij de patiënt door gezondheidswerkers wordt behandeld als iemand die heel speciaal is en door artsen bijzonder gewaardeerd wordt, maar die door de geheimhouding niet dezelfde waardering ziet in de maatschappij. Toch wilden de geïnterviewde intersekse mensen dat hun ervaringen niet verloren zouden gaan omdat ze hoopten dat anderen ervan zouden kunnen leren; zij wensten dat het vertellen van hun verhaal het taboe en het stigma op hun geslachtsvariatie zou ombuigen naar meer openheid en minder schaamte.[23]

---

36 Het ligt voor de hand dat negatieve sociale gevolgen als gevolg van maatschappelijke uitsluiting resulteren in negatieve economische gevolgen. Over de economische gevolgen is jammer genoeg nog minder bekend dan over de sociale gevolgen.

37 Voor veel gezondheidswerkers is het moeilijk te accepteren dat zij op zijn minst betrokken zijn bij het ontstaan en in stand houden van problemen die intersekse mensen ondervinden in de maatschappij. Hoewel er tal van publicaties zijn die hierop wijzen en intersekse activisten zich steeds luider laten horen, wordt de visie van intersekse mensen die het niet eens zijn met de behandeling nog steeds bewust of onbewust onjuist weergegeven. Dat is bijvoorbeeld het geval in de reactie van Cools et al. op het rapport van de Europese commissaris voor de mensenrechten[5] en een prioriteitenoverzicht van Meyer Balburg[19].

In de aanbevelingen voor de toekomst schrijft Van Heesch:

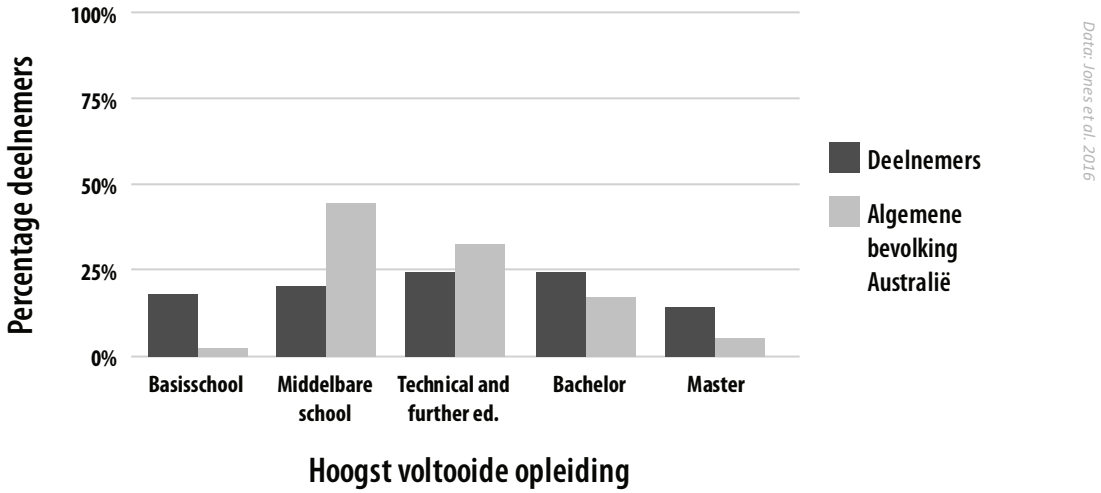
> *Ik hoop dat de zes discoursen die het stigma en het taboe rondom geslachtsvariaties beïnvloedden, uitgedaagd zullen worden. Te noemen: binaire genderopposities, voortplantingsimperatief, heteronormativiteit, homofobie, coïtale imperatief en de geneesbaarheid van interseksualiteit.*[23]

Van Heesch slaat hiermee de spijker op de kop omdat deze zes discoursen voor een belangrijk deel de grondslag vormen voor de medische behandeling van niet-medische problemen. Dit is dan ook precies wat NNID in nieuwe kwaliteitsstandaard voor DSD wil terugzien: de erkenning dat een aanmerkelijk deel van de nu nog verstrekte 'medische' zorg voor intersekse/DSD niet tot de taak van gezondheidswerkers behoort.

Hoewel het onderzoek van Van Heesch daar wel enig inzicht in geeft, is het niet duidelijk wat de gevolgen zijn van de zes discoursen die Van Heesch noemt. Daarvoor is meer onderzoek in Nederland noodzakelijk. Zolang dat onderzoek niet is uitgevoerd, kan worden gekeken naar onderzoeksresultaten uit Australië en Europa.

Australië

Onderzoek naar de ervaringen van intersekse mensen in Australië[16] toonde o.a. aan dat 18% van de deelnemers aan het onderzoek alleen de lagere school heeft bezocht (tegen 2 procent voor de rest van de bevolking). Dat percentage is ook hoger dan het aantal transgender personen in Australië dat de middelbare school niet heeft afgemaakt.

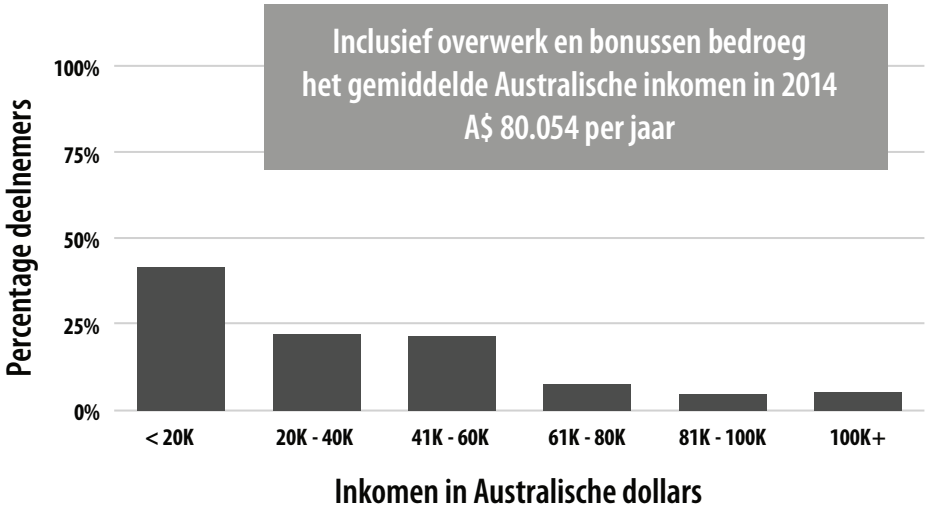


De onderzoekers zeggen hierover:

> *Given that by law Australian young people are required to stay in schools until 15-17 years of age (depending on state and territory laws), this educational disruption suggested that there have been difficulties for people with intersex variations either in school contexts themselves, and/or in relation to their general experiences at schooling age, in ways which affected schooling success and meant they dropped out of/left schools without being able to take advantage of the full qualifications available to them there, and increasingly necessary for opening up job opportunities in modern times.*

Opvallend is dat intersekse personen bij het hoger onderwijs juist beter dan gemiddeld presteren.

Ook het inkomen van intersekse mensen blijft sterk achter bij het gemiddelde. Terwijl het gemiddelde inkomen in Australië ruim 80.000 Australische dollars per jaar bedroeg, verdiende 63 procent van de deelnemers aan het onderzoek minder dan A$ 41.000, en 41 procent zelfs minder dan A$ 20.000.



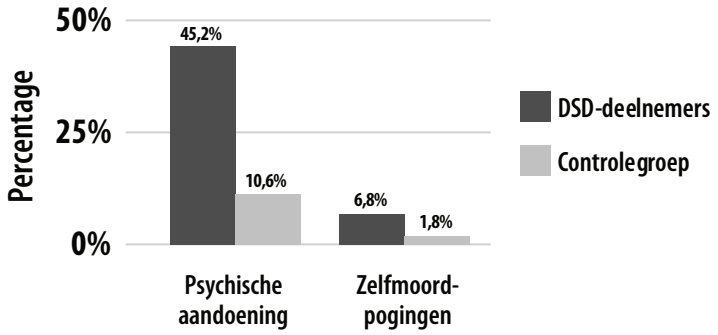
Data: Jones et al. 2016

Het percentage werkzoekenden lag met 12 procent hoger dan het gemiddelde voor de Australische bevolking, en tussen de percentages van 9 tot 15 procent die genoemd worden voor de werkzoekende transgender personen.

Hoewel de medische behandeling van seksediversiteit in Australië niet wezenlijk afwijkt van die in Nederland, is het mogelijk dat door de grotere afstand van inwoners tot gespecialiseerde medische centra de ervaringen van de deelnemers aan het onderzoek sterk verschillen van de ervaringen van intersekse mensen in Europa. Om die reden verdient het aanbeveling een soortgelijk onderzoek, waarbij de deelnemers niet noodzakelijkerwijs uit een gemedicaliseerde omgeving komen, ook in Europa uit te voeren.

Europa

Recent onderzoek in Europa onder intersekse mensen die bekend zijn bij DSD-behandelcentra, toont aan dat de deelnemers aan het onderzoek 3,8 maal vaker een zelfmoordpoging hebben ondernomen dan de controlegroep. Omdat een belangrijke groep deelnemers geen antwoord op de betreffende vraag heeft gegeven, vermoeden de onderzoekers dat het werkelijke percentage nog hoger ligt. Het aantal intersekse personen met psychische klachten is in dit onderzoek 4,3 maal zo hoog als in de controlegroep.[10]



Data: Falhammar et al. 2018

Het is onbekend of de psychische problemen en het hoge percentage zelfmoordpogingen symptomen van de DSD-diagnoses zijn. Dat deze percentages ook bij seksueel misbruikte kinderen[38] sterk verhoogd zijn[3, 4, 11], dat

[38] De WHO definitie voor seksueel misbruik van kinderen luidt: *"Child sexual abuse is the involvement of a child in sexual activity that he or she does not fully comprehend, is unable to give informed consent to, or for which the child is not developmentally prepared and cannot give consent, or that violates the laws or social taboos of society. Child sexual abuse is evidenced by this activity between a child and an adult or another child who by age or development is in a relationship of responsibility, trust or power, the activity being intended to gratify or satisfy the needs of the other*

sommige medische behandelingen en onderzoeken (waaronder een test die beschreven wordt als '*clitoral sensory testing and vibratory sensory testing*'[29]) voor intersekse kinderen als seksueel misbruik kunnen worden geclassificeerd[1, 7, 16, 17, 28], dat wetenschappers en instanties de medische behandeling die een groep intersekse kinderen ondergaat vergelijkbaar acht met Vrouwelijke Genitale Verminking[39] (VGV)[6, 8, 9, 13, 14, 15, 21, 22] en dat een groeiend aantal intersekse mensen zegt de medische aandacht als (seksueel) misbruik te hebben ervaren[2, 12, 18, 20, 25], doet vermoeden dat de medische aandacht de oorzaak is en niet de diagnose.

Meer sociale gevolgen

Vaak wordt aangenomen dat weinig of geen data beschikbaar zijn over de sociale gevolgen van intersekse. Maar in wetenschappelijke publicaties wordt dergelijke informatie regelmatig gepubliceerd. Jammer genoeg spelen de sociale gevolgen zelden een hoofdrol in het onderzoek; de resultaten worden vaak verzameld als onderdeel van onderzoek naar de kwaliteit van leven van de deelnemers.

De publicaties gaan meestal niet in op mogelijke oorzaken. Echter, er is geen wetenschappelijk bewijs dat schooluitval, het niet kunnen vinden van een partner, en suïcide-gedachten, symptomen zijn van seksediversiteit. Sociale uitsluiting is de meest voor de hand liggende oorzaak.

Op de pagina http://nnid.nl/sociale-gevolgen/ publiceert NNID een beknopt overzicht van de sociale gevolgen die in 24, voornamelijk medisch-wetenschappelijke, publicaties worden genoemd.

---

person."[26]
Wells D, Taylor W, Smith T, Welborn A, World Health Organization. Child sexual abuse. Guidelines for Medico-Legal Care for Victims of Sexual Violence. Geneva, Switzerland: World Health Organization; 2003. p. 75-93.

39 De VN-definitie voor Vrouwelijke Genitale Verminking luidt: *"The term 'female genital mutilation' (also called 'female genital cutting' and 'female genital mutilation/cutting') refers to all procedures involving partial or total removal of the external female genitalia or other injury to the female genital organs for non-medical reasons."*[27].

Referenties Sociale gevolgen

1. **Alexander T**. The Medical Management of Intersexed Children: An Analogue for Childhood Sexual Abuse Rohnert Park, CA, USA: Intersex Society of North America; 1997. URL: http://www.isna.org/articles/analog.
2. **Blair K**. When Doctors Get It Wrong. Narrative Inquiry in Bioethics. 2015;5(2):89-92. https://doi.org/10.1353/nib.2015.0029
3. **Browne A, Finkelhor D**. Impact of Child Sexual Abuse: A Review of the Research. Psychological Bulletin. 1986;99(1):66. https://doi.org/10.1037//0033-2909.99.1.66
4. **Cook A, Spinazzola J, Ford J, Lanktree C, Blaustein M, Cloitre M, et al.** Complex Trauma in Children and Adolescents. Psychiatric annals. 2005;35(5):390-398. https://doi.org/10.3928/00485713-20050501-05
5. **Cools M, Simmonds M, Elford S, Gorter J, Ahmed SF, D'Alberton F, et al.** Response to the Council of Europe Human Rights Commissioner's Issue Paper on Human Rights and Intersex People. European urology. 2016. https://doi.org/10.1016/j.eururo.2016.05.015
6. **Dreger AD**. "Ambiguous Sex"—or Ambivalent Medicine?: Ethical Issues in the Treatment of Intersexuality. Hastings Center Report. 1998;28(3):24-35. https://doi.org/10.2307/3528648
7. **Dreger AD**. Rejecting the Tranquilizing Drug of Gradualism in Intersex Care [Blog]. 2015 [bewerkt 21 november 2015; geraadpleegd 24 november 2015]. URL: http://www.alicedreger.com/DSD_human_rights.
8. **Earp BD, Steinfeld R**. Genital Autonomy and Sexual Well-Being. Current Sexual Health Reports. 2018;10(1):7-17. https://doi.org/10.1007/s11930-018-0141-x
9. **Ehrenreich N, Barr M**. Intersex Surgery, Female Genital Cutting, and the Selective Condemnation of "Cultural Practices". Harvard Civil Rights-Civil Liberties Law Review. 2005;40:71.
10. **Falhammar H, Claahsen-van der Grinten HL, Reisch N, Slowikowska-Hilczer J, Nordenstrom A, Roehle R, et al.** Health Status in 1040 Adults with Disorders of Sex Development (DSD): A European Multicenter Study. Endocrine Connections. 2018. https://doi.org/10.1530/ec-18-0031
11. **Fergusson DM, Horwood LJ, Lynskey MT**. Childhood Sexual Abuse and Psychiatric Disorder in Young Adulthood: II. Psychiatric Outcomes of Childhood Sexual Abuse. Journal of the American Academy of Child & Adolescent Psychiatry. 1996;35(10):1365-1374. https://doi.org/10.1097/00004583-199610000-00024
12. **Frader JE**. A Pediatrician's View. Narrative Inquiry in Bioethics. 2015;5(2):139-142. https://doi.org/10.1353/nib.2015.0040
13. **Fraser S, Reisel D**. Constructing the Female Body: Using Female Genital Mutilation Law to Address Genital-Normalizing Surgery on Intersex Children in the United States. International Journal of Human Rights in Healthcare. 2016;9(1). https://doi.org/10.1108/IJHRH-05-2015-0014
14. **Gleichstellungs- und Frauenministerinnen und -minister, -senatorinnen und -senatoren der Länder (GFMK)**, redactie Beschlüsse. 24. Konferenz der Gleichstellungs- und Frauenministerinnen und -minister, -senatorinnen und -senatoren der Länder (GFMK); 2014 1-2 oktober; Wiesbaden, Deutschland: Hessisches Ministerium für Soziales und Integration
15. **Green FJ**. From Clitoridectomies to 'Designer Vaginas': The Medical Construction of Heteronormative Female Bodies and Sexuality through Female Genital Cutting. Sexualities, Evolution & Gender. 2005;7(2):153-187. https://doi.org/10.1080/14616660500200223
16. **Jones T, Hart B, Carpenter M, Ansara G, Leonard W, Lucke J**. Intersex: Stories and Statistics from Australia: Open Book Publishers; 2016. https://doi.org/10.11647/OBP.0089
17. **Knight K, Tamar-Mattis S**. "I Want to Be Like Nature Made Me": Medically Unnecessary Surgeries on Intersex Children in the Us. New York, NY, USA: Human Rights Watch / interAct, July 2017. Nr. 978-1-6231-35027.
18. **Meoded Danon L**. Time Matters for Intersex Bodies: Between Socio-Medical Time and Somatic Time. Social Science & Medicine. 2018;208:89-97. https://doi.org/10.1016/j.socscimed.2018.05.019
19. **Meyer-Bahlburg HFL**. Intersex Care Development: Current Priorities. LGBT Health. 2017. https://doi.org/10.1089/lgbt.2017.0021
20. **Monro S, Crocetti D, Yeadon-Lee T, Garland F, Travis M**. Intersex, variations of sex characteristics, and dsd: the need for change. Huddersfield, UK: University of Huddersfield, October 2017. Nr. 978-1-86218-151-9.
21. **Office of the United Nations High Commisioner for Human Rights**. Good Practices and Major Challenges in Preventing and Eliminating Female Genital Mutilation - Report of the Office of the United Nations High Commissioner for Human Rights. United Nations - General Assembly, 2015. Rapport Nr. A/HRC/29/20.
22. **Pūras D**. Report of the Special Rapporteur on the Right of Everyone to the Enjoyment of the Highest Attainable Standard of Physical and Mental Health. United Nations, General Assembly, 4 april 2016. Nr. A/HRC/32/33.
23. **Van Heesch MA**. Ze Wisten Niet of Ik een Jongen of Meisje Was: Kennis, Keuze en Geslachtsvariaties - over het Leven Met en Kennen van Intersekse Condities in Nederland [Proefschrift]. Vossiuspers, Amsterdam, Nederland: Universiteit van Amsterdam; 2015.
24. **van Lisdonk J**. Leven Met Intersekse/DSD - Een Verkennend Onderzoek Naar de Leefsituatie van Personen Met Intersekse/DSD. Den Haag: Sociaal en Cultureel Planbureau, 18 juni 2014 2014. Rapport Nr. 2014-15 Nr. 978 90 377 0705 2.
25. **Viloria H**. Born Both: An Intersex Life. New York, NY, USA: Hachette Books; 2017.
26. **Wells D, Taylor W, Smith T, Welborn A, World Health Organization**. Child Sexual Abuse. Guidelines for Medico-Legal Care for Victims of Sexual Violence. Geneva, Switzerland: World Health Organization; 2003. p. 75-93.
27. **WHO, OHCHR, UNAIDS, UNDP, UNECA, UNESCO, et al.** Eliminating Female Genital Mutilation: An Interagency Statement -Ohchr, Unaids, Undp, Uneca, Unesco, Unfpa, Unhcr, Unicef, Unifem, Who. Geneva, Switzerland: World Health Organization, 2008. Rapport Nr. 978 92 4 159644 2.
28. **Wiesemann C**. Ethical Guidelines for the Clinical Management of Intersex. Sexual Development. 2010;4(4-5):300-303. https://doi.org/10.1159/000316232
29. **Yang J, Felsen D, Poppas DP**. Nerve Sparing Ventral Clitoroplasty: Analysis of Clitoral Sensitivity and Viability. The Journal of urology. 2007;178(4):1598-1601. https://doi.org/10.1016/j.juro.2007.05.097

Bijlage D: Geen gelijk speelveld

Er is geen gelijk speelveld tussen intersekse organisaties en gezondheidswerkers

De afgelopen jaren zijn miljoenen euro's besteed aan onderzoek naar DSD[40]. Daar staat tegenover dat driekwart van de door intersekse geleide intersekseorganisaties een budget heeft van minder dan US$ 10.000[4]. Dit verschil in speelveld leidt tot (het instant houden van de) medicalisering van intersekse.

Subsidiering van medicalisering door de EU is niet in lijn met het rapport van het Europees Agentschap voor de Grondrechten over intersekse[3] , het rapport van de Commissaris voor de Mensenrechten van de Raad van Europa over de mensenrechten van intersekse personen[1], en de in juni 2013 door de Foreign Affairs Council van de EU gepubliceerde "G*uidelines to promote and protect the enjoyment of all human rights by sexual minorities*"[8].

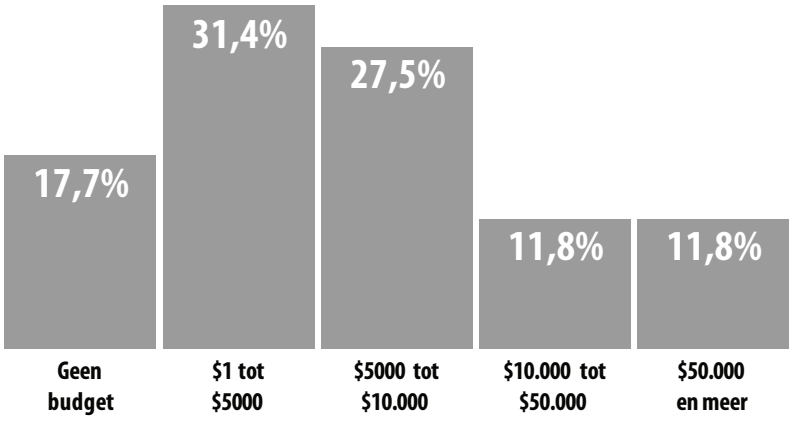
Doordat de financiële steun ontbreekt, blijft ook de organisatorische capaciteit van intersekse organisaties achter, hetgeen de ongelijkheid van het speelveld nog vergroot.

Financiële situatie

Uit recent onderzoek van Howe et al. blijkt dat meer dan driekwart van de door intersekse personen geleide intersekseorganisaties een jaarbegroting heeft van minder dan US$ 10.000[4]. Dit betekent dat de organisaties *of* geen medewerkers kunnen bekostigen *of* hun medewerkers zeer geringe bedragen betalen. In beide gevallen is het risico groot dat medewerkers overwerkt raken en de jonge, kwetsbare organisaties niet meer functioneren.

---

40 I-DSD Registry / DSDnet werd gefinancieerd via COST (European Cooperation in Science and Technology) dat op zijn beurt weer werd gefinancieerd door EU Framework Programme Horizon 2020.
http://www.cost.eu/COST_Actions/bmbs/BM1303
DSDLife wordt gefinancierd via FP7 HEALTH.2012.2.4.4-2 (3 miljoen Euro)
http://cordis.europa.eu/project/rcn/105711_en.html
EuroDSD is inmiddels afgerond maar ontving een subsidie in FP7 Grant No. 201444.
Omdat gezondheidswerkers en onderzoekers grote subsidies ontvangen, zien veel intersekseorganisaties het huidige onderzoek ook als geldzucht. Om die reden vervangen activisten de S van DSD dikwijls door een dollarteken: D$D. Op het eerste gezicht lijkt dit een wat flauwe retorische techniek van activisten, maar de Belgische arts Lieven Annemans toont in zijn boek *Je geld of je leven* aan dat de economie van de gezondheidszorg tal van perverse prikkels kent die zelden bijdragen aan een betere kwaliteit van de zorg[2]. Voor voorbeelden van D$D zie:
http://stop.genitalmutilation.org/post/DSDnet-Intersex-Genital-Mutilators-European-Union



Data: Howe et al. 2017

Budgetten van door intersekse mensen geleide intersekse organisaties in 2016: 76,6% heeft een budget van minder dan 10.000 US$. Niet zichtbaar in deze grafiek: slechts 19,1 procent van de door intersekse geleide intersekse organisaties ontving in 2016 externe financiering van meer dan 10.000 US$.[4]

Uit hetzelfde onderzoek is naar voren gekomen dat in de periode 2014-2016 intersekseorganisaties hun tijd vooral besteedden aan intersekse mensenrechten (39%) en depathologisatie van intersekse (29,3%)[4]. Dit zijn onderwerpen waar de meer op LHBT gerichte organisaties weinig of geen kennis over hebben.

Tegelijk blijkt uit onderzoek gepubliceerd door het Global Philantropy Project en Funders for LGBTQ Issues dat in de periode 2015-2016 aan het onderwerp 'sex characteristics' slechts 1 procent werd besteed van het totale subsidiebedrag dat beschikbaar was voor lhbti-subsidies[5].

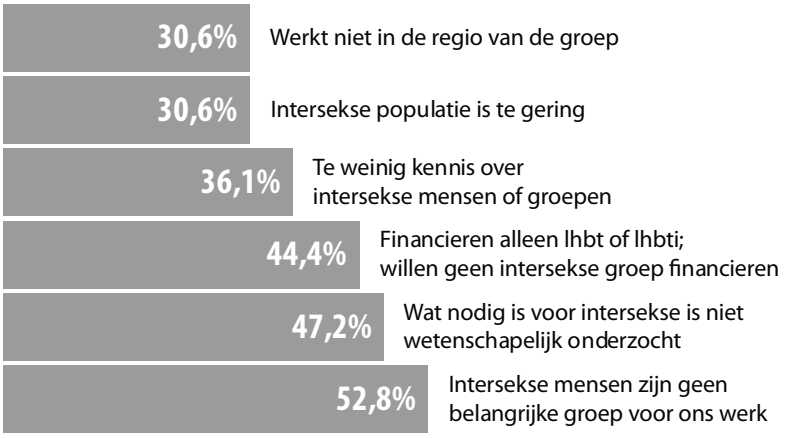
Gezien de uitkomsten van het eerdergenoemde onderzoek van Howe et al. is het onwaarschijnlijk dat de bijna US$ 2,5 miljoen die volgens Kan et al. in 2015/2016 is besteed aan financiering van intersekse-belangenbehartiging terecht is gekomen bij door intersekse personen geleide intersekseorganisaties.

De verdeling van de subsidies staat niet in verhouding tot de prevalentie van het aantal intersekse personen (0,5%[9]), het aantal lhb-personen (4-7%[7]), en het aantal transgender personen (0,4%[6]). Als de financiële ondersteuning wordt verdeeld naar rato van het aantal personen zou tussen 6,3% en 10,2% van het totale subsidiebedrag aan intersekse besteed moeten worden. Dat percentage is overigens nog steeds lager dan de 11% van de totale subsidiestroom die in 2015-2016 besteed is aan 'genderidentiteit'.

In het eerder aangehaalde onderzoek van Howe et al. worden een aantal redenen genoemd waarom intersekseorganisaties niet evenredig veel financiële ondersteuning ontvangen:

- 59,5% van de ondervraagde intersekseorganisaties gaf aan dat de meeste funders in hun communicatie[41] geen belangstelling toonden voor de financiering van interseksegroepen,
- interseksegroepen vragen vaak geen financiële ondersteuning omdat ze geloven dat hun aanvraag niet succesvol zal zijn of omdat ze gewoon niet de tijd hebben te midden van andere activiteiten,
- van de groepen die zonder succes financiering aanvroegen, meldde 52,8% dat donoren hen vertelden dat intersekse personen geen sleutelpopulatie voor hun werk waren,
- 47,2% kreeg van funders te horen dat de behoeften van intersekse personen onvoldoende gedocumenteerd zijn in onderzoek[4].

[41] Websites of open oproepen tot aanvragen voor financiële ondersteuning.



Redenen voor afwijzen subsidieaanvragen in de periode 2014-2016.
Afbeelding afkomstig uit The State of Intersex Organizing (2nd Edition)[4]

Organisatorische situatie

Door gebrek aan financiële middelen en het als gevolg daarvan ontbreken van voldoende ervaren medewerkers zijn intersekseorganisaties over het algemeen slecht georganiseerd. De vrijwilligers worden stelselmatig overvraagd. Uit onderzoek blijkt dat bijna 75 procent van de organisaties steun vraagt voor psychosociale zorg, anti-trauma support, en burnout-preventie – iets dat volgens de onderzoekers niet verrassend is gezien het hoge percentage vrijwilligers, het geringe aantal betaalde medewerkers, en het persoonlijke trauma dat veel leiders van de interseksegemeenschap ervaren[4].

Om de duurzaamheid van de organisatie te verbeteren vragen de intersekseorganisaties kennis over:

- organisatieontwikkeling, inclusief fondsenwerving en het schrijven van subsidieaanvragen (79,4%),
- budgettering en financieel beheer (76,5%),
- monitoring en evaluatie (71,0%),
- ontwikkeling van effectieve programma's en diensten (71,0%)[4].

Jammer genoeg krijgt maar een klein deel, tussen de 14 en 20 procent, van de organisaties toegang tot de benodigde cursussen voor capaciteitsversterking.

Door de gebrekkige organisatorische situatie staan intersekse mensen op een grote afstand van de goed gefinancierde en goed georganiseerde gezondheidswerkers die over intersekse mensen beslissen.

Referenties Geen gelijk speelveld

1. **Agius S**. Human Rights and Intersex People. Issue Paper. Strasbourg, France: Council of the Europe - Commissioner for Human Rights, 2015.
2. **Annemans L**. Je Geld of Je Leven: in de Gezondheidszorg. Kalmthout, België: Van Halewyck / Pelckmans; 2016.
3. **European Union Agency for Fundamental Rights**. The Fundamental Rights Situation of Intersex People. Focus Paper. Wien, Österreich: FRA - European Union Agency for Fundamental Rights, 2015.
4. **Howe E, Frazer S, Dumont M, Zomorodi G**. The State of Intersex Organizing (2nd Edition): Understanding the Needs and Priorities of a Growing but under-Resourced Movement. New York, NY, USA: American Jewish World Service, Astraea Lesbian Foundation for Justice and Global Action for Trans Equality, 2017.
5. **Kan LM, Maulbeck BF, Wallace A**. Global Resources Report 2015/2016: Government and Philanthropic Support for Lesbian, Gay, Bisexual, Transgender, and Intersex Communities. New York, NY, USA: Funders for LGBTQ Issues & Global Philantropy Project April 2018.
6. **Kuyper L**. Transgenders in Nederland: Prevalentie en Attitudes. Tijdschrift voor Seksuologie. 2012;36(2):129-135.
7. **Kuyper L**. Jongeren en Seksuele Oriëntatie: Ervaringen van en Opvattingen over Lesbische, Homoseksuele, Biseksuele en Heteroseksuele Jongeren. Den Haag, Nederland: Sociaal en Cultureel Planbureau, januari 2015. Rapport Nr. SCP 2014-35 Nr. 978 90 377 0727 4.
8. **Raad van de Europese Unie**. Guidelines to Promote and to Protect the Enjoyment of All Human Rights by Lesbian, Gay, Bisexual, Transgender and Intersex (LGBTI) Persons. Foreign Affairs Council meeting; 06/24/2013; Luxembourg: Raad van de Europese Unie / Council of the European Union; 2013.
9. **van Lisdonk J**. Leven Met Intersekse/DSD - Een Verkennend Onderzoek Naar de Leefsituatie van Personen Met Intersekse/DSD. Den Haag: Sociaal en Cultureel Planbureau, 18 juni 2014 2014. Rapport Nr. 2014-15 Nr. 978 90 377 0705 2.

Bijlage E: Beperkt zicht op het veld

Gezondheidswerkers zien slechts een deel van de groep intersekse personen

Medisch-wetenschappelijk onderzoek naar seksediversiteit heeft bijna altijd te maken met effecten die de betrouwbaarheid van de bevindingen negatief beïnvloeden. Een aantal daarvan hebben te maken met het ontwerp van het onderzoek: *sampling bias*[42], *self-selection bias* en *lost to follow-up bias*. Andere tekortkomingen in het ontwerp van het onderzoek komen voort uit de persoonlijk bias van de onderzoeker of degene die onderzocht wordt. Deze effecten worden niet of onvoldoende besproken in medisch-wetenschappelijk onderzoek.

Waarom dit hoofdstuk?

Als een autofabrikant over een auto zegt dat het benzinegebruik gemiddeld 6,4 liter per 100 km bedraagt, denken weinig mensen aan het woord statistiek en aan de weging van verschillende rijomstandigheden. En al helemaal niet aan een reeks wiskundige symbolen en Griekse letters. Maar de recente berichtgeving over 'sjoemelsoftware' laat zien dat het gemiddelde gebruik (en de gemiddelde vervuiling) van een auto geen vaststaand gegeven is. Als het algoritme wordt aangepast – zeg maar de afspraken van hoe gemeten wordt, wat gemeten wordt, en hoe die resultaten geïnterpreteerd worden – blijkt een auto opeens stukken minder zuinig en veel vervuilender dan bij de eerdere test.

Statistiek is ook gebaseerd op dergelijke afspraken. Daar krijgen onderzoekers vrij weinig mee te maken omdat de statistische methoden voor hen meestal alleen maar een functie in een programma zijn, net zoals Excel de functie +SOM(A1:A11) heeft om de waarden in de eerste tien cellen van kolom A bij elkaar op te tellen of +GEMIDDELDE(A1:A11) om het gemiddelde van die reeks cellen te bepalen. Fouten kunnen optreden als de onderzoeker zich bewust of onbewust niet houdt aan de vereisten die de statistiek stelt aan het verzamelen en interpreteren van gegevens. Een voorbeeld van de niet bestaande 'ik heb de handleiding niet gelezen-bias' is de opdracht waarmee in Excel de gemiddelde waarde van 11 cellen wordt bepaald: in kolom A levert dat de uitkomst 5,5 op en in kolom B de uitkomst 5. Dat komt doordat voor Excel een lege cel niet meetelt bij het bepalen van het gemiddelde, maar een cel met de waarde 0 wel.

	A	B	C	D	E	F
1		0				
2	1	1				
3	2	2				
4	3	3				
5	4	4				
6	5	5				
7	6	6				
8	7	7				
9	8	8				
10	9	9				
11	10	10				
12						
13	55	55		← Som rij 1 t/m 11		
14	5,5	5		← Gemiddelde rij 1 t/m 11		
15						

Iemand die aanneemt dat een lege cel bij het berekenen van het gemiddelde meetelt alsof de waarde nul is ingevuld heeft een *vooringenomenheid* waardoor de uitkomst *vertekend* wordt. Zowel de vooringenomenheid als de vertekening worden aangeduid met *bias*. Bij wetenschappelijk onderzoek komen sommige vormen van bias zo vaak voor dat ze namen hebben gekregen en in tientallen publicaties beschreven worden. Maar een ding hebben ze allemaal gemeen: door een bias komt de uitkomst van een onderzoek niet overeen met de werkelijkheid.

In dit hoofdstuk wordt een aantal van die situaties in begrijpelijke taal beschreven.

[42] Een goed Nederlands woord voor bias is 'vertekening', maar hier wordt het ook in Nederland gebruikelijke woord bias gebruikt.

Selection bias

Medisch-wetenschappelijk langetermijn follow-up onderzoek naar seksediversiteit is altijd gebaseerd op een steekproef waarvan niet kan worden vastgesteld of het een representatieve steekproef is. Dat komt doordat de onderzoekers maar met een beperkt aantal intersekse mensen in contact staan en die mensen bovendien een specifieke achtergrond hebben waardoor niet iedereen in de gehele populatie evenveel kans heeft deel uit te maken van de steekproefpopulatie (*sampling bias*).

Als consequentie van deze *sampling bias* ontbreekt de 'lost to follow-up'-groep[43] (inclusief de groep die bewust artsen ontloopt omdat ze tegen het pathologiseren van intersekse zijn) en de groep die nooit gediagnosticeerd is. Omdat de groep die voor onderzoekers onbereikbaar is veel groter is dan de groep die wel bereikbaar is, is het optreden van *observation selection bias*[44] zelfs aannemelijk[5].

Het gevolg van de (observation) selection bias is dat voornamelijk mensen die zichzelf als patiënt beschouwen deelnemen aan het onderzoek.

Als met een publieke oproep buiten de eigen patiëntengroep wordt gekeken, is sprake van een *self-selection bias* omdat deelnemers zelf bepalen of ze wel of niet op zo'n oproep reageren – het is niet te bepalen wie niet heeft gereageerd en wat de invloed daarvan is op de uitkomsten van het onderzoek.

De self-selection bias is gerelateerd aan de *Solicitation sampling bias* waarbij niet iedereen toegang heeft tot het medium dat gebruikt wordt om deelnemers op te roepen: een oproep op Facebook sluit potentieel mensen uit die om principiële reden geen gebruik maken van Facebook, digibeet zijn, of geen computer met internetaansluiting hebben. Hetzelfde geldt voor een oproep in een besloten forum dat alleen op uitnodiging van leden *(gate-keeping)* toegankelijk is.

Het risico van vertekende uitkomsten als gevolg van een selectiebias wordt in veel onderzoek naar seksediversiteit genoemd, maar zelden worden uitspraken gedaan over de mate van invloed van de geconstateerde selectiebias. Integendeel, regelmatig worden de gevolgen van selectiebias uitgelegd als zijnde gering of zelfs als reden om aan te nemen dat de cijfers in de praktijk gunstiger of juist ongunstiger zijn dan het onderzoek aangeeft, terwijl geen van beide aannames worden onderbouwd met feiten.

Om de gevolgen van de hier beschreven vertekeningen te compenseren, zou een model nodig zijn dat de ontbrekende groepen beschrijft, maar het ontbreken van zicht op deze groepen maakt het maken van een model onmogelijk. Daarmee is al bij de selectie van de steekproef een probleem ontstaan dat later in het onderzoek zelfs niet met state-of-the-art statistische methodes is te herstellen. Zo blijft dat wat gezondheidswerkers denken te weten over medische interventies bij seksediversiteit, zo helder mogelijk gezegd, vaak meer een mening dan een feit[45].

---

43 De invloed van *lost to follow-up* (het ontbreken van patiënten die om een onbekende reden geen contact meer heeft met de behandelaars) is zo ernstig en bovendien redelijk goed meetbaar, dat aan het einde van dit hoofdstuk dieper ingegaan wordt op deze bias.

44 Observation selection effect: als alle gevangen vissen langer zijn dan 15 cm, kun je niet concluderen dat in een meer alle vissen langer zijn dan 15 cm als je met je net geen vissen kunt vangen die kleiner zijn dan 15 cm.

45 Of genuanceerder gezegd: wat we denken te weten is gebaseerd op niet volledig en vaak zelfs niet kloppend (wetenschappelijk) onderzoek.

Voorbeeld

Stel dat een rasechte Feyenoord-fan aan 1000 volstrekt willekeurig gekozen geboren-Rotterdammers vraagt of ze Feyenoord een betere voetbalploeg vinden dan Ajax, dan zullen nagenoeg zekerde meeste ondervraagden voor Feyenoord kiezen. Maar dit onderzoek heeft twee problemen. Ten eerste klopt 'volstrekt willekeurig gekozen' niet helemaal: het zijn immers allemaal geboren-Rotterdammers; er is sprake van een *selection bias*.

De uitkomst van het onderzoek zal daarom vrijwel zeker een zeer hoge waarschijnlijkheid kennen ($p < 0.01$), maar helemaal niets zeggen over de voetbalkwaliteiten van Feyenoord in vergelijking met Ajax. Doordat de steekproef verkeerd is gekozen, toont de waarschijnlijkheid (p) alleen aan dat de gegeven antwoorden voldoen aan het verwachte antwoord (Feyenoord is beter dan Ajax) en niet of de gegeven antwoorden de waarheid weergeven.

Het probleem is niet op te lossen met een steekproef van 1000 volstrekt willekeurig gekozen Europeanen, want dan treedt het probleem op dat de meeste ondervraagden geen flauw idee hebben hoe beide clubs spelen. De uitkomst zal daardoor heel dicht bij 50/50 komen te liggen en geeft dus ook geen uitsluitsel over de echte kwaliteiten van Feyenoord en Ajax.

Een representatieve steekproef is onmogelijk als de te onderzoeken groep onzichtbaar is. Denk aan een onderzoek naar Feyenoord supporters die in hun hart een fan van Ajax zijn. Schaamte, stigma en geheimhouding maken dat deze groep onzichtbaar is in de maatschappij en praktisch onbereikbaar voor onderzoekers.

Gevolgen van dit beperkte zicht op het veld

Door de selectiebias, en het feit dat daar weinig tot geen rekening mee wordt gehouden, biedt langetermijn follow-up onderzoek naar seksediversiteit een beperkt zicht op de realiteit. Die vertekening wordt versterkt als gezondheidswerkers niet openstaan voor nieuwe maatschappelijke ontwikkelingen en vooral datgene zien wat ze willen zien *(confirmation bias)*. Ook blijkt uit onderzoek dat de behandelde patiënten een voorkeur hebben voor de gemaakte keuze, ongeacht welke keuze dat was en wie die keuze gemaakt heeft (*choice-supportive bias*).

Confirmation bias verwijst naar onbewuste selectiviteit bij het vergaren en interpreteren van onderzoeksresultaten - de grens tussen bewuste selectiviteit en het onbewust vormgeven van feiten om hypothesen of overtuigingen aan te passen is in de praktijk moeilijk aan te geven; confirmation bias heeft meer te maken met de laatste dan met de eerste[24].

Doordat het beeld dat onderzoekers van seksediversiteit hebben grotendeels bepaald wordt door de ervaringen met de eigen niet-representatieve patiëntenpopulatie, is de kans groot dat onderzoek voornamelijk hun eigen visie bevestigt en andere ervaringen negeert.

Voorbeeld

In augustus 2011 zei Roos Vonk, hoogleraar sociale psychologie én dierenactiviste, in een persbericht dat onderzoek uitgevoerd door haarzelf en haar Tilburgse collega's Marcel Zeelenberg en Diederik Stapel had aangetoond dat vleeseters "egoïstischer, minder sociaal en 'hufteriger'" zijn[46]. Nog geen maand later bekende Stapel de data voor het onderzoek te hebben verzonnen. De Commissie Levelt concludeerde over het werk van Stapel: "Vrijwel niets van al de onmogelijkheden, merkwaardigheden en *sloppyness* […] werd opgemerkt door […] lokale, nationale en internationale vakgenoten en tot een verdenking van fraude kwam het al helemaal niet."[9]. Het gemak waarmee Vonk de onderzoeksresultaten overnam en naar buiten bracht, duidt op een confirmation bias.

Het effect van de selectiebias wordt versterkt door de *choice-supportive bias*. Als mensen gevraagd worden naar de kenmerken van keuze-opties van in het verleden gemaakte beslissingen, worden meer positieve

[46] Het onderzoek sprak over 'denken aan vlees' en niet over vleeseters.

kenmerken genoemd van de gekozen optie dan van de verworpen optie[18, 21, 26]. De Amerikaanse psychologen Mather en Johnson beschreven het effect als volgt:

> *"Many studies […] have demonstrated that after making a choice, people shift their attitudes to be more consistent with the decision they made. People also seem to remember their choices in a regret-minimizing fashion. […] These choice-supportive asymmetries presumably reflect the constructive-reconstructive processes that are a key aspect of remembering. In particular, people may have the implicit theory that because one of the options was selected over the other, it probably had more positive features and fewer negative features than the other option."[20]*

Deze vertekening treedt op ongeacht of mensen de keuze zelf hebben gemaakt, of dat iemand die keuze voor hen heeft gemaakt[28]. Bij langetermijn follow-up onderzoek worden de resultaten nog verder positief gekleurd omdat

- het effect van de bias toeneemt naarmate de beslissing langer geleden is genomen[13, 20],
- mensen naarmate zij ouder worden milder over negatieve emoties denken[19], en
- mensen resultaten in hun herinnering positiever voorstellen als dat beter is voor hun zelfbeeld[2].

Door de aard van de medische interventies en de druk van de sociale constructies die seksediversiteit beheersen, is het aannemelijk dat choice-supportive bias een niet te veronachtzamen invloed heeft op medisch-wetenschappelijk langetermijn follow-up onderzoek naar seksediversiteit in het algemeen en naar de maatschappelijke gevolgen van medische interventies bij seksediversiteit in het bijzonder.

Voorbeeld

De kracht van de choice-supportive bias in een medische omgeving is eerder beschreven: 'zedendelinquenten' die tussen 1920 en 1970 in Nederland 'therapeutisch' gecastreerd werden, betoonden zich in de communicatie naar artsen met grote regelmaat tevreden met de ingreep:[47]

> *Met grote regelmaat betoonden ze zich tevreden met de ingreep, benadrukten ze dat ze er geen spijt van hadden en soms ook schreven ze het jammer te vinden dat ze het niet eerder gedaan hadden. Af en toe sprak er regelrechte dankbaarheid uit de brieven: 'Ik en mijn familie zijn u ten zeerste dankbaar dat u mij in de gelegenheid heeft gesteld mij te laten castreren.' zo schreef een ontslagen verpleegde aan de geneesheer-directeur. Een ander bedankte, refererend aan de castratie, de medewerkers van het asyl voor de inspanning 'om datgene van mij te maken wat ik nu geworden ben, een mens die weer vreugde in het leven kan hebben'.[30]*

Choice-supportive bias is een probleem voor wetenschappelijk onderzoek, maar het is ook een manier voor mensen om hun keuzen voor zichzelf te verklaren:

> *"Ik was in zwaar financieel weer gekomen", bekende de verdachte aan de rechters. Volgens de Gouwenaar kwam dat omdat twee grote klanten van hem failliet waren gegaan. Daardoor konden ze hem niet meer betalen. "Mijn eigen bedrijf stond op springen. Daarom begon ik toen aan die hennep. Echt, ik kon niet anders".[48]*

Ook de aanschaf van kostbare goederen is gevoelig voor de choice-supportive bias: wie zojuist een wagen van 64.000 euro heeft aangeschaft zal bij de telefonische enquête van de dealer hoogstwaarschijnlijk zeggen erg tevreden te zijn met de aanschaf.

Lost to follow-up bias

Bij de *lost to follow-up bias* leiden systematische verschillen tussen vergelijkingsgroepen tot het wegvallen of terugtrekken van deelnemers uit de vergelijkingsgroepen. Degene die verloren zijn gegaan voor follow-up kunnen meer of minder voldoen aan de verwachte uitkomst van het onderzoek en zo het werkelijke verband

---

47 De castratie was een voorwaarde om vrijgelaten te worden en was daardoor cognitief gekoppeld aan de slechte omstandigheden in een gevangenis of in een psychiatrische inrichting.

48 https://www.ad.nl/gouda/echt-ik-kon-niet-anders~ae062424/ Geraadpleegd 27 augustus 2018.

tussen interventie en uitkomst vervormen. De lost to follow-up bias is vaak moeilijk te onderscheiden van de *non-respondent bias*, waarbij de populatie niet representatief is doordat mensen die niet reageren verschillen van mensen die wel reageren om mee te doen aan een onderzoek.

Van de genoemde bias-soorten is de lost to follow-up bias het meest verontrustend omdat door de aard van de bias onbekend is waarom mensen het contact met artsen hebben verbroken, terwijl dat belangrijke informatie is bij het evalueren van een medische behandeling. Om die reden wordt hieronder dieper ingegaan op het verschijnsel lost to follow-up.

In de meeste onderzoeken wordt weinig gezegd over lost to follow-up. Wat wel geschreven wordt is verontrustend. Zo schrijft een internist-endocrinoloog in haar proefschrift:

> *Many patients are lost to follow-up after discharge from pediatric care. In the present cohort, one third lacked any form of ongoing specialist care. Lack of care was most prevalent among older patients. It is unclear which patients are prone to lack ongoing medical care. It might be that socio-economic factors play a role. We have insufficient data to investigate this.*[12]

Zij citeert andere onderzoeken die minstens even ernstige problemen schetsen:

> *Several specialized TS [Turner Syndrome] clinics have been established in the US and Europe to provide a coordinated multidisciplinary care service. Based on the experience of these centers, recommendations for standard of care and periodic screening have been put forward. Despite these efforts, however, adult women with TS often lack appropriate medical attention. In a young French TS population, only 3.5% received appropriate medical care. In an adult US TS population, only one third had undergone the three examinations considered standard care for TS women, i.e. cardiac and renal ultrasound, and audiology. In a Belgian cohort, 12.7% lacked medical attention despite reported health problems and 14.5% lacked HRT. An inventory among Dutch TS women previously followed at a single pediatric clinic showed that appropriate specialist care was continued in only a minority.*[12]

In onderstaande tabel, die verre van volledig is, staan het percentage deelnemers dat niet beschikbaar was voor deelname bij een aantal vrij recente onderzoeken.

Onderzoek	N	Lost to follow-up	Declined	No response	Overleden
Alpern 2016 [1]	247	78 (31,6%)	44 (17,8%)	35 (14,2%)	
Broekhuijsen 2007 [6]	81[49]	29	1	13	
Callens 2015 [7]	18[50]	*	8 (44%)		
Callens 2016 [8]	123[51]	?	123+ (> 50%)	?	
Devernay 2009 [11]	891[52]	323 (31%)			
Freriks 2015 [12]	133[53]	9	47		2
Hutson 2012 [14]	54[54]	10	3		
Hutson 2012 [14]	81[55]	21			
Hutson 2012 [14]	148[56]	31	27	18	11

[49] Turner Syndroom. Wilhelmina Kinderziekenhuis Utrecht

[50] Mannen met phalloplasty. Geen info over lost to follow-up, behalve verwijzing in tekst: “Because case numbers are in general low and many patients are lost to follow-up, there are extremely few reports of the outcome after surgery.” 18 mannen uitgenodigd, 10 deden mee.

[51] “Fourthly, more than half of the eligible individuals with DSD approached declined participation in the study, for unclear reasons. The non-responders and participants groups did not differ significantly in the medical variables (van der Zwan et al., 2013a, 2013b); however, they might differ in other aspects.”

[52] Turner Syndroom. Percentage Lost-to-follow-up niet bekend – alleen het aantal aangeschreven vrouwen en het aantal deelnemers wordt vermeld. Slechts 3,5% (20 uit 568) deelneemsters had de jaren voorafgaand aan het onderzoek medische hulp gezocht/gekregen zoals volgens internationale aanbevelingen noodzakelijk is.

[53] Turner Syndroom. The main reasons for declining to participate were the burden of a full day of examination besides regular medical follow-up (at the cost of work or study) and travel distance.

[54] Meisjes: 16 CAH, 2 ovo-testicular DSD, 1 XX virilisatie. Jongens: 5 46,x/46,XY partiële gonadale dysgenesie, 3 ovo-testicular DSD, 3 PAIS, 6 XY-ondervirilisatie. Vijf anderen met vanishing testes syndrome, klinefelter syndrome, 5ARD, 17b-hsd en ‘placental insuffiency’.

[55] Meisjes: 17 CAH en verschillende andere diagnoses.“A representative sample of 32 out of the remaining 61 patients were examined in the gynaecology clinic. Of those patients who were not examined, they had a similar range of diagnoses as those that were seen and their surgical management was identical to those that were seen in the clinic.”

[56] 50 reacties uit een groep van 148: “This gave us an overall participation rate of 53%.”

Rolston 2015 [25]	67	11 (16,4%)	17 (25,3%)	22 (32,8%)	
Springer 2014 [27]	?[57]				

NNID is bezorgd over dit soort informatie, niet alleen omdat overduidelijk sprake is van noodzakelijk zorg waar mensen geen gebruik van maken, maar ook omdat niet bekend is waarom mensen wegblijven bij een behandelend arts. Aangenomen moet worden dat deze mensen niet zomaar het contact hebben verbroken. In de statistiek staat dit 'Missing Not At Random' (MNAR) bekend als een belangrijke reden waarom onderzoeksresultaten niet de werkelijkheid weergeven. Er zijn geen mogelijkheden om de ontbrekende data aan te vullen; voorkomen dat het percentage lost to follow-up zo laag mogelijk blijft is de enige betrouwbare oplossing.

Effect van lost to follow-up

Het grotendeels onbegrepen verschijnsel lost to follow-up leidt schijnbaar tot een belangrijke gevolgtrekking: als zoveel mensen lange tijd geen arts zien, is schijnbaar geen sprake van een medisch probleem[58], maar het is evengoed mogelijk dat lost to follow-up veroorzaakt wordt door ontevredenheid met de medische behandelding. Ook het achterhouden van medische informatie door artsen wordt als een mogelijke oorzaak gezien[17].

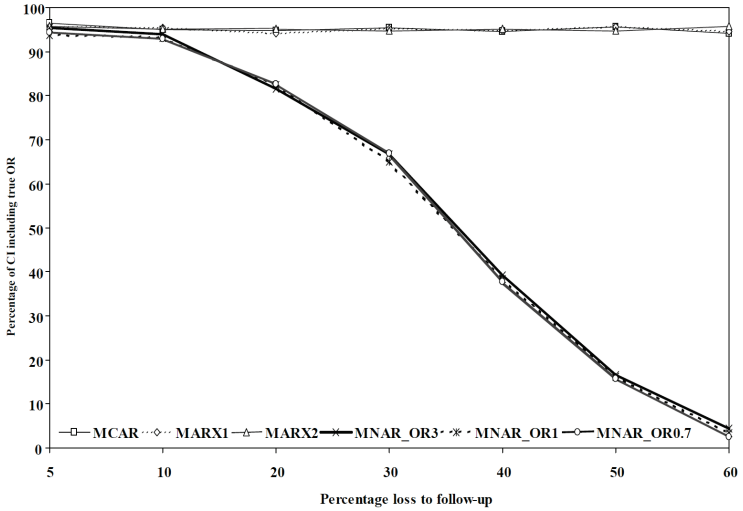
Ongeacht de oorzaak heeft lost to-follow-up met zekerheid een negatief effect op de betrouwbaarheid van onderzoek, want lost to follow-up is verdwenen bewijs. Verdwenen bewijs is van alle tijden, zegt Nassim Taleb, auteur van The Black Sawn – de ex voto's (votiefgeschenken) in een bedevaartsoort zeggen alleen iets over de mensen wier gebeden verhoord zijn – er is geen plek waar de niet-verhoorde gebeden zichtbaar zijn[29]. Dat verdwenen bewijs wordt in onderzoek vaak wel genoemd in de sterkte/zwakte analyse, maar verder genegeerd.

Kristman et al. hebben aangetoond dat bij 'Missing Not At Random' (MNAR) –daarvan is sprake als patiënten met een reden wegblijven, en dit is vrijwel altijd het geval bij follow-up onderzoek– en een lost to follow-up percentage van 20% al een aanmerkelijke bias optreedt in de Odds Ratio (OR)[15]. Dergelijke percentages, of hoger, zijn niet ongebruikelijk bij medisch-wetenschappelijk onderzoek naar DSD. De invloed hiervan op de betrouwbaarheid van de onderzoeksresultaten mogen niet worden genegeerd omdat uit onderzoek is gebleken dat bij MNAR de lost to follow-up groep niet overeenkomt met de groep die wel beschikbaar is voor onderzoek[4, 22].

---

57 Hypospadie. "The majority of papers do not address the issue of "lost to follow-up" or "excluded from the study".

58 Dit is natuurlijk een zwak argument – zelfs als er geen medische problemen zijn opgetreden, kan het gevaar daartoe wel degelijk aanwezig zijn. Toch staat dit argument, althans een variant daarvan, in een medische publicatie: "Although some patients were lost to follow-up, the records showed that these underwent fewer operations and were slightly older than those that were reviewed, suggesting that non-participants may actually have experienced better outcomes than those seen in the clinic." [14]



Afbeelding: Kristman et al. 2004

Dekking (percentage betrouwbaarheidsintervallen met inbegrip van de echte Odds Ratio) van 95% betrouwbaarheidsintervallen ten opzichte van het percentage lost to follow-up op basis van 1000 simulaties van een cohort met steekproefgrootte 500 met alle mechanismen van lost to follow-up (MCAR, MAR, en MNAR). Gegevens zijn gegenereerd uit een studiemodel met echte odd ratio's van 3,0, 1,0 en 0,7.[15]

Een veelgebruikte, maar onjuiste, oplossing voor het MNAR-type lost to follow-up, is *listwise deletion*: de onderzoekers negeren de ontbrekende data en stellen aan de hand van de wel beschikbare data een op het eerste gezicht evenwichtige steekproefpopulatie samen. Maar deze oplossing is alleen geschikt voor MCAR – Missing *Completely* At Random, een andere type lost to follow-up, waarbij het ontbreken van data geheel onafhankelijk is van wie wel of niet aan het onderzoek heeft deelgenomen.[10]

Als het mogelijk zou zijn de ontbrekende data in een model te beschrijven, zou de ontbrekende data vervangen kunnen worden door objectieve schattingen uit dat model. Maar in de praktijk is het onmogelijk dat model te kennen omdat alleen inzicht bestaat in de data die wel beschikbaar is.[3 , 16 , 23]

De data die ontbreken door lost to follow-up zijn zelfs met state-of-the-art statistische methodes niet te herstellen. Het resultaat is dat medisch-wetenschappelijk langetermijn follow-up onderzoek alleen iets zegt over de onderzochte groep en niet over de groep intersekse mensen of DSD-patiënten die niet aan het onderzoek hebben deelgenomen.

Referenties Beperkt zicht op het veld

1. **Alpern AN, Gardner M, Kogan B, Sandberg DE, Quittner AL**. Development of Health-Related Quality of Life Instruments for Young Children with Disorders of Sex Development (DSD) and Their Parents. Journal of Pediatric Psychology. 2017;42(5):544-558. https://doi.org/10.1093/jpepsy/jsw022
2. **Bahrick HP, Hall LK, Berger SA**. Accuracy and Distortion in Memory for High School Grades. Psychological science. 1996;7(5):265-271. https://doi.org/10.1111/j.1467-9280.1996.tb00372.x
3. **Basic E, Rendtel U**. Assessing the Bias Due to Non-Coverage of Residential Movers in the German Microcensus Panel: An Evaluation Using Data from the Socio-Economic Panel. AStA Advances in Statistical Analysis. 2007;91(3):311-334. https://doi.org/10.1007/s10182-007-0030-5
4. **Bisgard KM, Folsom AR, Hong C-P, Sellers TA**. Mortality and Cancer Rates in Nonrespondents to a Prospective Study of Older Women: 5-Year Follow-Up. American journal of epidemiology. 1994;139(10):990-1000. https://doi.org/10.1093/oxfordjournals.aje.a116948
5. **Bostrom N**. Anthropic Bias: Observation Selection Effects in Science and Philosophy: Routledge; 2002.
6. **Broekhuijsen-van-Henten D, de-Vroede M**. Follow-up van Volwassen Vrouwen Met het Syndroom van Turner Bij een Utrechts Cohort. Ned-Tijdschr-Geneeskd. 2007;151:1630-1634.
7. **Callens N, De Cuypere G, T'Sjoen G, Monstrey S, Lumen N, Van Laecke E, et al.** Sexual Quality of Life after Total Phalloplasty in Men with Penile Deficiency: An Exploratory Study. World journal of urology. 2015;33(1):137-143. https://doi.org/10.1007/s00345-014-1283-8
8. **Callens N, van Kuyk M, van Kuppenveld JH, Drop SL, Cohen-Kettenis PT, Dessens AB, et al.** Recalled and Current Gender Role Behavior, Gender Identity and Sexual Orientation in Adults with Disorders/Differences of Sex Development. Hormones and Behavior. 2016;86:8-20. https://doi.org/10.1016/j.yhbeh.2016.08.008
9. **Commissie Levelt, Commissie Noort, Commissie Drenth**. Falende Wetenschap: De Frauduleuze Onderzoekspraktijken van Sociaal-Psycholoog Diederik Stapel. Tilburg, Nederland: Tilburg University, 28 november 2012.
10. **Deng Y, Hillygus DS, Reiter JP, Si Y, Zheng S**. Handling Attrition in Longitudinal Studies: The Case for Refreshment Samples. Statistical Science. 2013;28(2):238-256. https://doi.org/10.1214/13-STS414
11. **Devernay M, Ecosse E, Coste J, Carel J-C**. Determinants of Medical Care for Young Women with Turner Syndrome. The Journal of Clinical Endocrinology & Metabolism. 2009;94(9):3408-3413. https://doi.org/10.1210/jc.2009-0495
12. **Freriks K**. Turner Syndrome in Adulthood: A Childhood Disease Grown Up [Proefschrift]. Nijmegen: Radboud Universiteit; 2015.
13. **Henkel LA, Mather M**. Memory Attributions for Choices: How Beliefs Shape Our Memories. Journal of Memory and Language. 2007;57(2):163-176. https://doi.org/10.1016/j.jml.2006.08.012
14. **Hutson JM, Warne GL, Grover SR**. Short-, Medium- and Long-Term Outcomes Following Surgery for Disorders of Sex Development (DSD) at Royal Children's Hospital. Disorders of Sex Development - an Integrated Approach to Management: Springer; 2012. p. 265-277.
15. **Kristman V, Manno M, Côté P**. Loss to Follow-up in Cohort Studies: How Much Is Too Much? European journal of epidemiology. 2004;19(8):751-760. https://doi.org/10.1023/B:EJEP.0000036568.02655.f8
16. **Kristman VL, Manno M, Côté P**. Methods to Account for Attrition in Longitudinal Data: Do They Work? A Simulation Study. European journal of epidemiology. 2005;20(8):657-662. https://doi.org/10.1007/s10654-005-7919-7
17. **Lee PA, Nordenström A, Houk CP, Ahmed SF, Auchus R, Baratz A, et al.** Global Disorders of Sex Development Update since 2006: Perceptions, Approach and Care. Horm Res Paediatr. 2016. https://doi.org/10.1159/000442975
18. **Mather M**. Why Memories May Become More Positive as People Age. Memory and emotion: Interdisciplinary perspectives. 2006:135-158.
19. **Mather M, Carstensen LL**. Aging and Motivated Cognition: The Positivity Effect in Attention and Memory. Trends in cognitive sciences. 2005;9(10):496-502. https://doi.org/10.1016/j.tics.2005.08.005
20. **Mather M, Johnson MK**. Choice-Supportive Source Monitoring: Do Our Decisions Seem Better to Us as We Age? Psychology and aging. 2000;15(4):596. https://doi.org/10.1037/0882-7974.15.4.596
21. **Mather M, Shafir E, Johnson MK**. Misremembrance of Options Past: Source Monitoring and Choice. Psychological science. 2000;11(2):132-138. https://doi.org/10.1111/1467-9280.00228
22. **McLean RR, Hannan MT, Epstein BE, Bouxsein ML, Cupples LA, Murabito J, et al.** Elderly Cohort Study Subjects Unable to Return for Follow-up Have Lower Bone Mass Than Those Who Can Return. American journal of epidemiology. 2000;151(7):689-692. https://doi.org/10.1093/oxfordjournals.aje.a010263
23. **Molenberghs G, Beunckens C, Sotto C, Kenward MG**. Every Missingness Not at Random Model Has a Missingness at Random Counterpart with Equal Fit. Journal of the Royal Statistical Society. 2008;70(2):371-388. https://doi.org/doi:10.1111/j.1467-9868.2007.00640.x
24. **Nickerson RS**. Confirmation Bias: A Ubiquitous Phenomenon in Many Guises. Review of general Psychology. 1998;2(2):175. https://doi.org/10.1037/1089-2680.2.2.175
25. **Rolston AM, Gardner M, Vilain E, Sandberg DE**. Parental Reports of Stigma Associated with Child's Disorder of Sex Development (DSD). International journal of endocrinology. 2015;2015(980121):1-15. https://doi.org/10.1155/2015/980121
26. **Shafir E, LeBoeuf RA**. Rationality. Annual review of psychology. 2002;53(1):491-517. https://doi.org/10.1146/annurev.psych.53.100901.135213
27. **Springer A**. Assessment of Outcome in Hypospadias Surgery–a Review. Frontiers in pediatrics. 2014;2. https://doi.org/10.3389/fped.2014.00002
28. **Stoll Benney K, Henkel LA**. The Role of Free Choice in Memory for Past Decisions. Memory. 2006;14(8):1001-1011. https://doi.org/10.1080/09658210601046163
29. **Taleb NN**. The Black Swan: The Impact of the Highly Improbable. New York, NY, USA: Random House; 2007.
30. **Vijselaar J, Gijzeman J, Bouwens B, Bertens R**. Therapeutische Castratie en Andere Psychiatrische Behandelingen van Zedendelinquenten 1920-1970. Den Haag, Nederland: ZonMW, 2015. Rapport Nr. 200/6/2015/ZW Nr. 9789057631450.

Bijlage F: Beperkingen onderzoek

Beperkingen in bestaand onderzoek maken harde conclusies onmogelijk

Een groot deel van intersekse mensen is 'lost to follow-up', weigert aan onderzoek mee te werken, of is nooit gediagnosticeerd. Alsof dat nog niet voldoende problematisch is, zeggen gezondheidswerkers dat behandelingen in het verleden niet te vergelijken zijn met de behandelingen die nu worden aangeboden. Daardoor bestaat een gebrek aan bruikbaar langetermijn follow-up onderzoek. Bovendien is het langetermijn onderzoek dat wel is uitgevoerd vaak zwak doordat a) de populatie niet zelden bestaat uit patiënten die zijn aangemeld door gezondheidswerkers (de niet-aangemelde patiënten blijven zo uit zicht) en b) het feitelijk een stapeling is van onderzoek naar mensen met verschillende diagnoses, die in verschillende landen met een verschillende cultuur en verschillende gezondheidszorg, in verschillende periodes in verschillende centra zijn behandeld. Deze grote hetereogeniteit en variabiliteit maakt het lastig, zo niet onmogelijk, uit langetermijn follow-up onderzoek conclusies te trekken die gelden voor intersekse mensen in het algemeen.

Het ESPU/SPU-standpunt voor de chirurgische behandeling van Disorders of Sex Development stelt dat de slechte cosmetische en functionele uitkomsten die nu gerapporteerd worden betrekking hebben op chirurgie van 20 jaar geleden en technieken die al lang niet meer worden gebruikt; tegelijk wordt gesteld dat nog 15 jaar moet worden gewacht voordat de huidige procedures kunnen worden geëvalueerd[17]. Dit kan niet anders worden gelezen dan dat ESPU/SPU geen heil ziet in langetermijn follow-up onderzoek.

Er zijn tenminste twee andere redenen waarom langetermijn follow-up onderzoek bij intersekse moeilijk of onmogelijk is:

- Ook als chirurgie buiten beschouwing wordt gelaten, is zelfs in een kleine groep intersekse mensen meestal geen sprake van een uniforme en vergelijkbare behandeling;
- Omdat het ontzeggen van een (naar de mening van artsen) noodzakelijke behandeling onethisch is, ontbreekt een controlegroep.

Vanwege de geschetste problemen wordt de *kwaliteit van leven* (QoL – Quality of Life), of eventueel de aan *gezondheid gerelateerde kwaliteit van leven* (HRQoL), vaak gezien als indicator voor het succes van de behandeling. Maar door de grote hoeveelheid andere gebeurtenissen die iemand heeft meegemaakt, is het zelfs met instrumenten die op een specifieke groep gericht zijn niet aannemelijk dat een hoge kwaliteit van leven een bewijs vormt voor de eventuele positieve effecten van de medische behandeling in het (verre) verleden[59]. De belangrijkste hindernis voor het gebruik van QoL in langetermijn follow-up onderzoek bij intersekse mensen ligt in wat met QoL-onderzoek wordt gemeten. HRQoL-onderzoek meet transversale verschillen in de kwaliteit van leven bij patiënten op een bepaald moment in de tijd (onderscheidende instrumenten) of longitudinale veranderingen in kwaliteit van leven bij patiënten in een bepaalde periode (evaluerende instrumenten)[9]. Er wordt gesproken over verschillen of veranderingen en dat betekent dat een uitgangssituatie (baseline) bekend moet zijn. Aangezien die baseline niet aanwezig is ('nooit gemeten') of een paradigmatische veronderstelling[60] is ('intersekse is een medische noodsituatie; dus is de QoL bij de geboorte

[59] Bovendien is het erg moeilijk om indicatoren in QoL-onderzoek te wegen, zoals blijkt uit onderzoek naar de QoL in 329 Amerikanse stedelijke gebieden, waarbij 59 steden zowel op de eerste plaats als de laatste plaats konden uitkomen, afhankelijk van de weging van de indicatoren.[2]

[60] Paradigmatische veronderstellingen "zijn de structurerende veronderstellingen die we gebruiken om de wereld te ordenen in fundamentele categorieën. Meestal herkennen we ze zelfs niet eens als veronderstellingen, zelfs niet nadat we er op zijn gewezen. In plaats daarvan, volharden we in de overtuiging dat ze objectief gezien correcte weergaven van de werkelijkheid zijn, van de feiten waarvan we weten dat ze waar zijn. […] Paradigmatische veronderstellingen

al laag en de medische behandeling draagt bij aan een betere QoL'), is óf onbekend wat de betekenis van de uitkomst is, óf de uitkomst vertekend. Langetermijn follow-up onderzoek naar de gevolgen van de medische behandeling van intersekse dat gebaseerd is op QoL leidt daarom niet tot inzicht in de gevolgen van de eerdere behandeling.[61]

Het ontbreken van een relevante controlegroep heeft consequenties voor de kwaliteit van het onderzoek. Zoals eerder gezegd bestaat er geen grote groep intersekse mensen die nooit een medische behandeling heeft ondergaan, die in dezelfde sociale omstandigheden leeft als de te onderzoeken groep, en die ook nog eens bekend is bij onderzoekers. Ook als onderzoek wordt uitgevoerd met een controlegroep die zeer dicht bij de intersekse persoon staat, bijvoorbeeld een (tweeling)broer of zus, is de kans groot dat door de niet-gedeelde omgevingsfactoren de situaties van beide personen na, bijvoorbeeld, 18 jaar te verschillend zijn voor langetermijn follow-up onderzoek. De derde mogelijkheid is gebruik maken van gegevens over de nationale (of Europese) bevolking, maar gezien de grote sociale verschillen in een land is de kans groot dat zo eerder sprake is van een sociaal-geografische vergelijking dan van onderzoek naar intersekse[62].

Zo lang langetermijn follow-up onderzoek naar intersekse wordt uitgevoerd door onderzoekers die zich niet bewust zijn van de mensenrechtenaspecten van de behandeling, zullen de conclusies zelfbevestigend en niet generaliseerbaar zijn. De kans is groot dat de toekomstige behandeling dan niet bepaald wordt door wetenschappelijk inzicht, maar door een mengeling van hoop, aannames, vooroordelen en persoonlijke waarden.

Beperkingen recente grote onderzoeken

Onderzoekers zijn alert op Type 1-fouten (foutpositief)en Type 2-fouten (foutnegatief). Dat kan niet altijd gezegd worden van Type 3-fouten en type 4-fouten. De Type 3-fout is gedefinieerd als "the error committed by giving the right answer to the wrong problem".[11] Uitgangspunt hierbij is dat het niet de intentie is om het verkeerde probleem op te lossen. De Type 4-fout is gedefinieerd als "the incorrect interpretation of a correctly rejected hypothesis"[14]. De Type 3-fout wordt ook wel uitgelegd als 'het *onbedoeld* juist oplossen van het verkeerde probleem' terwijl de Type 4-fout wordt uitgelegd als 'het *bedoeld* oplossen van de verkeerde problemen'.[16]

Eind jaren 1960 bleek dat door Apollo-astronauten meegebrachte maanstenen niet in de bestaande theorieën over de maan pasten. In plaats van die theorieën op te geven deden wetenschappers alles om een verklaring te vinden die wel binnen hun theorie paste; de maanstenen kwamen uit een klein gebied en daarom kon, zo zeiden ze, niet zonder twijfel worden vastgesteld dat hun theorieën niet klopten, of ze pasten hun theorie enigszins aan, zonder de kern ervan te verwerpen.[15]

Hetzelfde zien we bij artsen die niet willen toegeven dat hun visie – vaak het resultaat van jaren werken met patiënten – niet meer geaccepteerd wordt in een veranderende maatschappij. In plaats van de nieuwe inzichten te accepteren, zoeken ze naar nieuwe 'bewijzen' om aan te tonen dat zij gelijk hebben en de veranderende maatschappij niet. Op zich is dat geen probleem – een wetenschapper heeft de taak de een nieuwe hypothese niet zonder meer te accepteren. Er ontstaat pas een probleem als de type 3-fout een type 4-fout wordt.

Het aanpassen van een principieel onjuiste theorie over de maan aan niet binnen die theorie passende maanstenen, kan gezien worden als een type 3-fout. Net als het aanbrengen van relatief kleine wijzigingen in een medische behandeling, terwijl de hoeveelheid bewijs groeit dat de basis van de behandeling onjuist is. Maar het motiveren van de 'normaliserende' behandeling van intersekse kinderen door te 'bewijzen' dat kinderen niet ontevreden zijn met die behandeling, is een Type 4-fout omdat een juist antwoord wordt gezocht

---

worden pas kritisch onderzocht nadat er veel weerstand tegen is ontstaan, en er is een aanzienlijke hoeveelheid tegenbewijs en ontkennende ervaringen nodig om ze te veranderen. Maar als ze worden betwist en veranderd, zijn de gevolgen voor ons leven explosief.[3] (Vertaling MvdH)

61 Recent onderzoek heeft dan ook aangetoond dat de Kwaliteit van Leven veel meer afhankelijk is van de gezondheidssituatie dan van de diagnose.[18]

62 Hier is ook de steekproefomvang van belang.

op de verkeerde vraag[63]. Die fout is ernstiger dan de Type 3-fout - bij Type 3 bedot de onderzoeker zichzelf, bij Type 4 wordt een ander bedot[64].

De vraag die gesteld moet worden is niet 'Is het kind achteraf tevreden?' of 'Welke operatietechniek geeft het beste cosmetische en/of functionele resultaat?' maar 'Is het een mensenrechtenschending als we een operatie die uitgesteld kan worden, toch uitvoeren zonder de volledig geïnformeerde en vrije toestemming van het kind zelf?'.

Veel medisch-wetenschappelijk langetermijn follow-up onderzoek naar seksediversiteit is er op gericht te bewijzen dat kinderen later tevreden zijn met de behandeling en is daarom gevoelig voor Type 4-fouten. Daarin staat onderzoek naar seksediversiteit niet alleen, opvallend veel onderzoek bevat Type 3-fouten[22] of Type 4-fouten[14].

De combinatie van verschillende biassen in onderzoek naar seksediversiteit, waaronder de variabiliteit van de steekproefpopulatie, en het ontbreken van aandacht voor de mensenrechtenaspecten in onderzoek, maakt het vrijwel onmogelijk op grond van dat onderzoek uitspraken te doen die van nut zijn voor de onderzochte groep of voor de niet-onderzochte groep.

In de kaders verderop in dit hoofdstuk wordt de variabiliteit van de verzameling cases besproken voor twee recente projecten, I-DSD-registry[65] en het dsd-LIFE[66],.

Conclusie

Behandelaars doen pogingen om via samenwerkende internationale netwerken via langetermijn follow-up onderzoek een rechtvaardiging te vinden voor hun handelen[20], maar de grote heterogeniteit die het gevolg is van ondermeer het grote aantal verschillende diagnoses, het gebrek aan standaardisatie in de behandeling, de verschillende culturele achtergrond van de deelnemers, en de verschillen in sociale acceptatie in verschillende perioden, levert dit geen informatie op die zo betrouwbaar is als onderzoekers willen doen geloven. De onderzoeksresultaten zijn mogelijk ook vertekent doordat de meeste gezondheidswerkers, enkele uitzonderingen daargelaten[6] niet openstaan voor veranderde sociale waarden en de noodzaak van een wezenlijk andere medische behandeling[7].

Zo lang gezondheidswerkers de mensenrechtenaspecten van de medische behandeling van intersekse mensen negeren, zal ook het medisch wetenschappelijk onderzoek die aspecten negeren. Doordat de gezondheidswerkers hun handelen baseren op medische publicaties die gebaseerd zijn op het handelen van gezondheidswerkers, bestaat een cirkel die een goede, op mensenrechten gebaseerde, medische behandeling van intersekse mensen in de weg staat.

---

63 De wens om een intersekse kind aan te passen komt immers voort uit sociale waarden die niet meer zijn dan aannames, in plaats van een zorgvuldige onderbouwde (maar onjuiste) theorie die algemeen aanvaard is.

64 Of zoals de Amerikaanse schrijver Thomas Pynchon schreef: *"If they can get you asking the wrong questions, then they don't have to worry about the answers."*

65 I-DSD is een internationaal project dat beoogt onderzoekers en clinici te helpen meer te weten te komen over de oorzaken van disorders of sex development (DSD) en de effecten daarvan op het leven van mensen. I-DSD ondersteunt onderzoek en gesprekken tussen alle belanghebbenden -onderzoekers, clinici en patiëntenvertegenwoordigers- om de kwaliteit van de gezondheidszorg en de kwaliteit van leven voor de getroffenen van DSD te verbeteren. https://www.i-dsd.org/

66 dsd-LIFE streeft naar duurzame verbetering van de klinische zorg voor patiënten met verschillen of stoornissen in de geslachtsontwikkeling (DSD) op Europees niveau. Het consortium dsd-LIFE richtte werkgroepen op voor de gebieden psychosociale adaptatie, HRQOL en psychologisch welzijn, psychoseksuele ontwikkeling, chirurgie, hormonen en metabolisme, de visie van patiënten/ouders, ethiek en culturele context. Er is contact opgenomen met patiëntenondersteuningsgroepen om de meningen, ideeën en zorgen van patiënten te integreren. https://www.dsd-life.eu/home/

I-DSD-registry

I-DSD registry is een web-based register dat in 2008 is gestart en voortkomt uit het EuroDSD-programma. Het doel van het register is 'leren & educatie' en daarmee een verbeterde behandeling van DSD. Opname van gegevens in het register is afhankelijk van zowel de arts als de (vertegenwoordigers van de) patiënt; de arts beslist of de patiënt gevraagd wordt toestemming te verlenen om gegevens op te nemen in het register en of deze gegevens gedeeld mogen worden met onderzoekers binnen de landen van de Europese Economische Ruimte en/of daarbuiten. Data zijn voor onderzoekers niet te herleiden tot individuele patiënten, maar via een voor iedere patiënt unieke identificatiecode, kan de onderzoeker wel contact opnemen met de behandelend arts en zo indirect met de patiënt, bijvoorbeeld voor deelname aan onderzoek. In februari 2010 bevatte het register informatie over 548 cases, verdeeld over meer dan 27 diagnoses. Van de 548 cases was in 430 gevallen DNA-materiaal beschikbaar voor verder onderzoek.[1]

Op de website van de I-DSD Registry worden 25 publicaties vermeld die gerelateerd zijn aan data in het register[67].

De gegevens die worden verzameld zijn het geboortejaar, de naam van de aandoening, de klachten die de patiënt bij diagnose had en indien bekend de uitslagen van genetische onderzoek.[68]

In I-DSD wordt niet voor alle cases dezelfde gedetailleerde informatie opgeslagen, en wat wel is opgeslagen is door de keuze van de behandelend arts of de patiënt niet in alle gevallen zichtbaar voor onderzoekers. Informatie over de leeftijd waarop de geslachtstoekenning heeft plaatsgevonden, de uitkomsten van gedetailleerd endocrinologisch en genetisch onderzoek, de bijdragen van het multidisciplinaire team en de invloed van de ouders op het proces van de geslachtstoekenning ontbreekt geheel. Voor het onderzoek van Kolesinka et al. naar de ontwikkeling van de geslachtstoekenning door de jaren heen, was slechts 85% van de cases in de registry te benaderen.[12]

Het is een bewuste keuze om het aantal verplichte velden zoveel mogelijk te beperken, om zo de administratieve last voor de arts te beperken en de accuratesse van de wel ingevoerde gegevens te bevorderen. Desalniettemin blijken er zorgen bestaan over de accuratesse van de beschrijving van fysieke kenmerken. Hoewel het door 'geografische omstandigheden en regels omtrent de vertrouwelijkheid' moeilijk is om de nauwkeurigheid van het register te bepalen, gaat het register uit van een foutpercentage in de gegevens van vijf procent.[13]

In maart 2016 bevatte het register 2062 cases, ingevoerd door 53 centra in 24 landen. Het register had op dat moment 265 geregistreerde gebruikers, waarvan 163 het register in de voorafgaande 12 maanden hadden gebruikt.[10]

Door de grote heterogeniteit van de diagnoses, het grote verschil in de behandeling die personen van verschillende leeftijden is aangeboden, het feit dat de cases alleen gediagnosticeerde personen betreft, de grote variatie in geografische herkomst en het grote aantal personen dat de informatie invoert, is het aantal van 2062 cases nog steeds gering, de mate van vergelijkbaarheid gering en het risico van een selectiebias groot.

---

67 https://www.gla.ac.uk/schools/medicine/research/childhealth/researchinterests/i-dsdproject/publicationsdissemination/ Geraadpleegd 24-8-2018.

68 Informatiebrief vanaf 16 jaar I-DSD I-CAH registry version 1.0 https://www.gla.ac.uk/media/media_415109_en.pdf Geraadpleegd 24-8-2018

dsd-LIFE

Het dikwijls zeer kleine aantal deelnemers is een bekend zwak punt van eerder uitgevoerde onderzoeken. Internationale samenwerking lijkt dan voor de hand te liggen, zodat meer mensen aan het onderzoek kunnen deelnemen. Echter, het stapelen van onderzoeken die elk zwak zijn, biedt geen oplossing.

Het consortium dsd-LIFE bestaat uit 16 organisaties in zes landen. Het totale inwoneraantal van deze landen bedraagt 273.699.177 (2017). Dat betekent dat er ongeveer 1,4 miljoen intersekse mensen wonen[69].

Uitgaande van algemeen aanvaarde statistische standaarden voor het bepalen van de grootte van een steekproef, zijn voor een betrouwbaarheidsniveau van 90% 272 deelnemers nodig, bij een betrouwbaarheidsniveau van 95% zijn 385 deelnemers nodig en bij een betrouwbaarheidspercentage van 99% 664 deelnemers[70]. Opmerkelijk genoeg zijn dat nauwelijks meer deelnemers dan voor een onderzoekspopulatie van 85.000 mensen, het aantal intersekse mensen in Nederland. Internationale samenwerking lijkt dus aantrekkelijk – zeker als het consortium 1040 intersekse mensen bij elkaar kan brengen.

Toch zijn er minstens twee statistische regels waardoor ook met deze steekproef van 1040 mensen niet de juiste resultaten worden gevonden.

Regel 1: een onbekende, onverwachte variabiliteit in de samenstelling van de populatie of van de steekproef heeft een negatieve invloed op de betrouwbaarheid. Met andere woorden: de steekproef moet een getrouwe afspiegeling zijn van de populatie; wie wil weten hoe de mensen in Amsterdam over Ajax denken, moet de steekproef niet louter bevolken met Rotterdammers. En zelf niet met 50 procent Amsterdammers en 50% Rotterdammers. In het geval van dsd-LIFE, zit daar het probleem. Voor de afzonderlijke diagnoses is er geen enkele groep die groot genoeg is om te voldoen aan de gangbare statistische uitgangspunten voor een steekproef[71]. Dsd-Life schermt met het indrukwekkende getal van 1040 deelnemers, maar deze mensen vertegenwoordigen minstens 36 diagnoses (ondergebracht in zeven groepen die in omvang variëren van 1 tot 301 patiënten) die in verschillende landen met een verschillende cultuur en een verschillende gezondheidszorg, in verschillende periodes in verschillende centra zijn behandeld door artsen die verschillende technieken hebben gebruikt. Of zoals een auteur in een ander onderzoek zegt: *"As expected, any collection of new samples based on a different mix of DSD syndromes, treatment histories, sampling sources, and self-selection biases will produce a different pattern of results"*[21]

Het zonder meer combineren van de pakweg 36 deelonderzoeken waarvan hier sprake is, wordt *lumping* of *collapsing* genoemd. Het is de eenvoudigste en meest gebruikte manier data uit twee onderzoeken te combineren, maar heeft als negatief gevolg dat effecten tegen elkaar kunnen wegvallen (zie onderstaande afbeelding).[5]

Heel kort door de bocht: als mannen met het Syndroom van Klinefelter en vrouwen met CAH samen (dus zonder enig onderscheid) meedoen aan een onderzoek naar het testosteronniveau, zouden de onderzoeksresultaten voor beide groepen onbruikbaar zijn[72].

---

69 Uitgaande van **van Lisdonk J.** Leven met intersekse/DSD[26].

70 Bij een beoogde foutmarge van 5% en een aangenomen mate van spreiding van 50%. Als de steekproef kan worden genomen uit een eindige populatie, of als de werkelijke mate van spreiding bekend is, zal de minimale steekproefgrootte verschillen van de hier genoemde aantallen.

71 Betrouwbaarheidsniveau 95%, mate van spreiding van 50%, beoogde foutmarge 5%. Bij voldoende betrouwbaar eerder onderzoek zou de mate van spreiding misschien tot een kleinere steekproefgrootte kunnen leiden, maar dat betrouwbare onderzoek ontbreekt juist.

72 Dit laat zien dat aantallen niet zaligmakend zijn. Het is de data-analyse die dergelijke problemen moet benoemen. Kortom, dat de 1040 deelnemers van dsd-LIFE worden onderverdeeld in een aantal groepen is het direct gevolg van de data-analyse. Een soortgelijk probleem doet zich voor bij de tamelijk flauwe grap dat volgens statistici de gemiddelde mens één borst en één testis heeft. De factor geslacht verstoort het causale verband waardoor het gemiddelde tamelijk onzinnig, of op zijn minst onbruikbaar is geworden: cijfermatig klopt het, maar de 'informatie' is in de praktijk niet relevant. Dit wordt een confounder genoemd – data-analyse moet duidelijk maken wat de confounders zijn en hoe de invloed wordt verwerkt in het onderzoek. Het splitsen van de steekproefpopulatie van dsd-LIFE in deelgroepen is daarom correct, maar toont tegelijk aan dat 1040 deelnemers weinig zegt over de betrouwbaarheid van de uitkomsten van het onderzoek.

Study 1 Results

	T	C
S	15	5
F	85	95

RR=3.0

Study 2 Results

	T	C
S	5	15
F	95	85

RR=1/3

Overall ('collapsed') Results

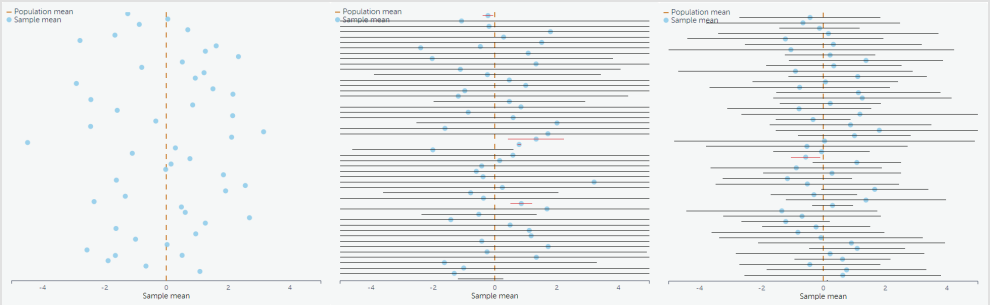
	T	C
S	20	20
F	180	180

RR=1.0

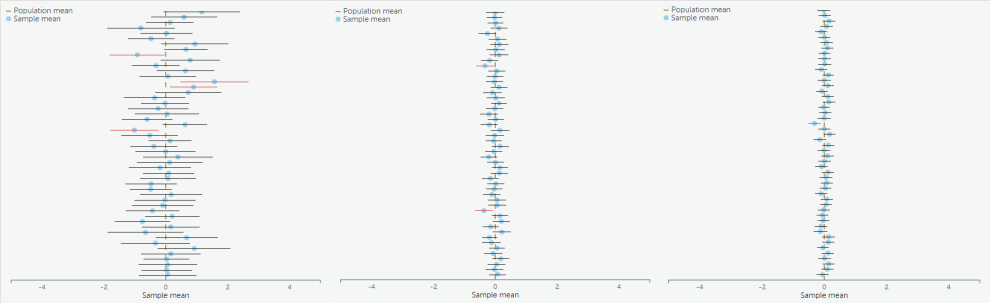
Voorbeeld van het effect van het samenvoegen van verschillende onderzoeken.
RR = relative risk, S = success, F = failure, T = treatment group and C=Control group.

Voorbeeld afkomstig uit: Demets 1987

Regel 2: stapeling van meerdere zwakke onderzoeken resulteert niet in een sterker onderzoek[73].
Onderzoekers die betrokken zijn bij dsd-LIFE splitsen de 1040 deelnemers meestal op in een aantal groepen: Turner Syndroom, CAH, 45,XY (inclusief 45,XO/46,XY), en Klinefelter Syndroom (inclusief 47,XYY). Ieder van deze groepen heeft een steekproefgrootte die een nog min of meer acceptabele foutmarge oplevert[74]. Maar het is onduidelijk waarom de steekproef van 1040 naar de mening van de onderzoekers gesplitst moet worden in 4 groepen en niet in de ongeveer 36 verschillende diagnoses die in de steekproef aanwezig zijn. Net als voor de gehele steekproef, geldt dat ieder van de vier groepen zoveel variabiliteit kent dat de betrouwbaarheid van de uitkomsten niet meer op statistische wijze kan worden vastgesteld.



N=1 N=3 N=5



N=20 N=200 N=385

Simulatie van telkens 50 steekproeven. De blauwe punt toont het gemiddelde van de steekproef, de zwarte lijn de interval waarbinnen de werkelijke uitkomst kan liggen. In alle zes de afbeeldingen is uitgegaan van een betrouwbaarheidsniveau van 95 procent. De simulaties laten duidelijk zien dat een kleinere steekproefgrootte gepaard gaat met een grotere foutmarge. Bij een te kleine steekproefomvang zijn de uitkomsten niet geschikt om toekomstige uitkomsten te voorspellen. Bij N=1, feitelijk casuïstiek, zijn in het geheel geen conclusies voor de toekomst te trekken.

---

73 Voor de goede orde: deze kritiek heeft geen betrekking op het stapelen of combineren zelf. Er zijn methoden om, onder bepaalde voorwaarden, onderzoeksresultaten te combineren[4], [8], [19].

74 Zie Tabel 1 voor een overzicht van foutmarges voor de diverse diagnoses.

Tegelijk geldt dat voor de afzonderlijke diagnoses de aantallen zo gering zijn dat het a) onduidelijk is (en zelfs onwaarschijnlijk) dat nog sprake is van een normaalverdeling[24] en b) een steekproefgrootte van 10 of minder tot zeer grote foutmarges leiden, waardoor het bewijs zwak is en de uitkomst niet bruikbaar is als onderbouwing van beslissingen in toekomstige cases. Echter, dat mag geen reden zijn om de afzonderlijke diagnoses samen te voegen – er is, bijvoorbeeld, geen reden om aan te nemen dat CAIS en PAIS identiek zijn. Het stapelen van bedenkelijk of zwak bewijs in de hoop dat sterker bewijs ontstaat wordt ook wel de *faggot fallacy* genoemd[75].

Dsd-LIFE is een stapeling van onderzoek naar mensen met verschillende diagnoses, die in verschillende landen met een verschillende cultuur en verschillende gezondheidszorg, in verschillende periodes in verschillende centra zijn behandeld. Zelfs als de steekproef een perfecte afspiegeling zou zijn van de populatie (en dat is het *niet* door de selectiebias) zegt het resultaat alleen iets over de huidige situatie van de onderzochte groep. Er kunnen geen conclusies uit worden getrokken voor de toekomst.[76]

[75] *Faggot* heeft hier de betekenis van een bundel dunne stokjes.[23]

[76] Recent onderzoek vond dan ook grote variaties tussen de scores voor structurele kwaliteit van zorg zowel binnen een diagnostische groep als binnen een land.[25]

Tabel 1: Foutmarge bij de verschillende diagnoses binnen het dsd-LIFE-onderzoek uitgaande van een aangenomen mate van spreiding van 50% en betrouwbaarheidsniveaus van 90%, 95%, en 99%. Een hogere foutmarge betekent dat de gemeten resultaten minder zeker zijn. De steekproefgrootte wordt over het algemeen zo gekozen dat de foutmarge 5% bedraagt. Bij een te kleine steekproefgrootte wordt de foutmarge hoger.

Diagnose	N_{groep}	$N_{diagn.}$	Foutmarge Betrouwbaar-heidsniveau 90%	Foutmarge Betrouwbaar-heidsniveau 95%	Foutmarge Betrouwbaar-heidsniveau 99%
Turner Syndrome	301		5	6	7
Monosomy: 45,X		150	7	8	11
Mosaic: 45,X/46,XX		31	15	18	23
Isochromosomes: 45,X/46,X,i(Xq)|46X,i(Xq)|45,X/46,X,i(Xq)/47,X,i(Xq)		59	11	13	17
Deletions: 45,X/46,X,del(X)|46,X,del(X)		19	19	22	30
Polyploidy: 45,X/46,XX/47,XXX|45,X/47,XXX|45,X/46,XX/47,XXX/48,XXXX		16	20	24	32
Ring material: 45,X/46,X,r(X)		12	24	28	37
Others and unknown		14	22	26	24
Klinefelter syndrome	224		5	7	9
47,XXY		204	6	7	9
47,XXY/46,XY		6	33	40	53
47,XXY/46,XX		3	47	57	74
Others and unknown		5	37	44	58
46,XX testicular males		6	33	40	53
XY-DSD	222		6	7	9
Complete gonadal dysgenesis		21	18	21	28
Partial gonadal dysgenesis		37	13	16	21
XY ovotesticular DSD		5	37	44	58
CAIS		71	10	12	15
PAIS		35	14	17	22
3β-HSD deficiency		2	58	69	91
17β-HSD deficiency		11	25	30	39
5α-reductase deficiency		4	41	49	64
17α-hydroxylase/17,20 lyase deficiency		1	82	98	129
Unknown steroid synthesis defect with adrenal insufficiency		1	82	98	129
Unknown androgen synthesis defect		1	82	98	129
Hypospadias		25	16	20	26
Others and unknown		8	29	36	46
XX-DSD	21		18	21	28
XX gonadal dysgenesis		20	18	22	29
XX ovotesticular DSD		1	82	98	129
CAH	226		5	7	9
Salt-wasting 21OHD		111	8	9	12
Simple virilising 21OHD		66	10	12	16
Non-classical 21OHD		34	14	17	22
Unknown phenotype 21OHD		3	47	57	74
STAR		1	82	98	129
3β-HSD deficiency		2	58	69	91
11β-hydroxylase deficiency		6	33	40	53
POR deficiency		2	58	69	91
Unknown		1	82	98	129
45,X/46,XY	45		12	15	19
47,XYY with gonadal dysgenesis	1		82	98	129

females: 717 males: 311 'other': 12 total: 1040

Referenties Beperkingen en onderzoek

1. **Ahmed SF, Rodie M, Jiang J, Sinnott RO**. The European Disorder of Sex Development Registry: A Virtual Research Environment. Sexual Development. 2010;4(4-5):192-198. https://doi.org/10.1159/000313434
2. **Becker RA, Denby L, McGill R, Wilks AR**. Analysis of Data from the Places Rated Almanac. The American Statistician. 1987;41(3):169-186. https://doi.org/10.1080/00031305.1987.10475474
3. **Brookfield SD**. The Getting of Wisdom: What Critically Reflective Teaching Is and Why It's Important. Becoming a Critical Reflective Teacher. Forthcoming ed. San Francisco, CA, USA: Jossey-Bass; 1995.
4. **Cohen J**. Statistical Power Analysis for the Behavioral Sciences. 2nd ed. Hillsdale, NJ, USA: Lawrence Earlbaum Associates; 1988.
5. **Demets DL**. Methods for Combining Randomized Clinical Trials: Strengths and Limitations. Statistics in Medicine. 1987;6(3):341-348. https://doi.org/10.1002/sim.4780060325
6. **Devore T**. To My Colleagues - Statement from Tiger Devore [Blog]. 2015 [bewerkt 21 november 2015; geraadpleegd 24 november 2015]. URL: http://alicedreger.com/Tiger_Devore.
7. **Dreger AD**. Rejecting the Tranquilizing Drug of Gradualism in Intersex Care [Blog]. 2015 [bewerkt 21 november 2015; geraadpleegd 24 november 2015]. URL: http://www.alicedreger.com/DSD_human_rights.
8. **Glass GV**. Primary, Secondary, and Meta-Analysis of Research. Educational Researcher. 1976;5(10):3-8. https://doi.org/10.3102/0013189X005010003
9. **Guyatt GH, Feeny DH, Patrick DL**. Measuring Health-Related Quality of Life. Annals of Internal Medicine. 1993;118(8):622-629. https://doi.org/10.7326/0003-4819-118-8-199304150-00009
10. **I-DSD Registry**. I-DSD/I-Cah Registry Newsletter: Spring 2016. Glascow, UK: I-DSD Project; 2016.
11. **Kimball AW**. Errors of the Third Kind in Statistical Consulting. Journal of the American Statistical Association. 1957;52(278):133-142. https://doi.org/10.1080/01621459.1957.10501374
12. **Kolesinska Z, Ahmed SF, Niedziela M, Bryce J, Molinska-Glura M, Rodie M, et al.** Changes over Time in Sex Assignment for Disorders of Sex Development. Pediatrics. 2014:peds. 2014-1088.
13. **Kourime M, Bryce J, Jiang J, Nixon R, Rodie M, Ahmed SF**. An Assessment of the Quality of the I-DSD and the I-Cah Registries - International Registries for Rare Conditions Affecting Sex Development. Orphanet Journal of Rare Diseases. 2017;12(1):56. https://doi.org/10.1186/s13023-017-0603-7
14. **Marascuilo LA, Levin JR**. Appropriate Post Hoc Comparisons for Interaction and Nested Hypotheses in Analysis of Variance Designs: The Elimination of Type Iv Errors. American Educational Research Journal. 1970;7(3):397-421. https://doi.org/10.3102/00028312007003397
15. **Mitroff II, Featheringham TR**. On Systemic Problem Solving and the Error of the Third Kind. Behavioral science. 1974;19(6):383-393. https://doi.org/10.1002/bs.3830190605
16. **Mitroff II, Silvers A**. Dirty Rotten Strategies: How We Trick Ourselves and Others into Solving the Wrong Problems Precisely. Roberts KH, Mitroff II, redactie. Stanford, CA, USA: Stanford University Press; 2010.
17. **Mouriquand P, Caldamone A, Malone P, Frank JD, Hoebeke P**. The ESPU/SPU Standpoint on the Surgical Management of Disorders of Sex Development (DSD). J Pediatr Urol. 2014;10(1):8-10. https://doi.org/10.1016/j.jpurol.2013.10.023
18. **Rapp M, Mueller-Godeffroy E, Lee P, Roehle R, Kreukels BPC, Köhler B, et al.** Multicentre Cross-Sectional Clinical Evaluation Study About Quality of Life in Adults with Disorders/Differences of Sex Development (DSD) Compared to Country Specific Reference Populations (dsd-LIFE). Health and Quality of Life Outcomes. 2018;16(1):54. https://doi.org/10.1186/s12955-018-0881-3
19. **Rosenthal R**. Combining Results of Independent Studies. Psychological Bulletin. 1978;85(1):185. https://doi.org/10.1037/0033-2909.85.1.185
20. **Sandberg DE, Callens N, Wisniewski AB**. Disorders of Sex Development (DSD): Networking and Standardization Considerations. Hormone and metabolic research. 2015;47(05):387-393. https://doi.org/10.1055/s-0035-1548936
21. **Schützmann K, Brinkmann L, Schacht M, Richter-Appelt H**. Psychological Distress, Self-Harming Behavior, and Suicidal Tendencies in Adults with Disorders of Sex Development. Arch Sex Behav. 2009;38(1):16-33. https://doi.org/10.1007/s10508-007-9241-9
22. **Schwartz S, Carpenter KM**. The Right Answer for the Wrong Question: Consequences of Type III Error for Public Health Research. American journal of public health. 1999;89(8):1175-1180. https://doi.org/10.2105/AJPH.89.8.1175
23. **Skrabanek P, McCormick J**. Follies & Fallacies in Medicine. 3rd ed. Whithorn, Scotland, UK: Tarragon Press; 1998.
24. **Taleb NN**. Black Swans and the Domains of Statistics. The American Statistician. 2007;61(3):198-200. https://doi.org/10.1198/000313007X219996
25. **Thyen U, Ittermann T, Flessa S, Muehlan H, Birnbaum W, Rapp M, et al.** Quality of Health Care in Adolescents and Adults with Disorders/Differences of Sex Development (DSD) in Six European Countries (dsd-LIFE). BMC Health Services Research. 2018;18(1):527. https://doi.org/10.1186/s12913-018-3342-0
26. **van Lisdonk J**. Leven Met Intersekse/DSD - Een Verkennend Onderzoek Naar de Leefsituatie van Personen Met Intersekse/DSD. Den Haag: Sociaal en Cultureel Planbureau, 18 juni 2014 2014. Rapport Nr. 2014-15 Nr. 978 90 377 0705 2.