



HAL
open science

Déterminants de la participation chez les adolescents avec paralysie cérébrale : une étude longitudinale européenne

van Mô Dang

► **To cite this version:**

van Mô Dang. Déterminants de la participation chez les adolescents avec paralysie cérébrale : une étude longitudinale européenne. Médecine humaine et pathologie. 2012. dumas-00735579

HAL Id: dumas-00735579

<https://dumas.ccsd.cnrs.fr/dumas-00735579>

Submitted on 26 Sep 2012

HAL is a multi-disciplinary open access archive for the deposit and dissemination of scientific research documents, whether they are published or not. The documents may come from teaching and research institutions in France or abroad, or from public or private research centers.

L'archive ouverte pluridisciplinaire **HAL**, est destinée au dépôt et à la diffusion de documents scientifiques de niveau recherche, publiés ou non, émanant des établissements d'enseignement et de recherche français ou étrangers, des laboratoires publics ou privés.

AVERTISSEMENT

Ce document est le fruit d'un long travail approuvé par le jury de soutenance et mis à disposition de l'ensemble de la communauté universitaire élargie.

Il n'a pas été réévalué depuis la date de soutenance.

Il est soumis à la propriété intellectuelle de l'auteur. Ceci implique une obligation de citation et de référencement lors de l'utilisation de ce document.

D'autre part, toute contrefaçon, plagiat, reproduction illicite encourt une poursuite pénale.

Contact au SICD1 de Grenoble : thesebum@ujf-grenoble.fr

LIENS

Code de la Propriété Intellectuelle. articles L 122. 4

Code de la Propriété Intellectuelle. articles L 335.2- L 335.10

http://www.cfcopies.com/V2/leg/leg_droi.php

<http://www.culture.gouv.fr/culture/infos-pratiques/droits/protection.htm>

UNIVERSITE JOSEPH FOURIER

FACULTE DE MEDECINE DE GRENOBLE

Année : 2012

N°

**DETERMINANTS DE LA PARTICIPATION
CHEZ LES ADOLESCENTS AVEC
PARALYSIE CEREBRALE : UNE ETUDE
LONGITUDINALE EUROPEENNE**

THESE

PRESENTEE POUR L'OBTENTION DU DOCTORAT EN MEDECINE

DIPLÔME D'ETAT

DIPLOME D'ETUDES SPECIALISEES

EN SANTE PUBLIQUE ET MEDECINE SOCIALE

M. DANG Van Môm

Né le 16 juillet 1970 à Saïgon (VIETNAM)

THESE SOUTENUE PUBLIQUEMENT A LA FACULTE DE MEDECINE DE GRENOBLE

Le : 13 septembre 2012

DEVANT LE JURY COMPOSE DE

Président du jury : Pr COUTURIER Pascal

Membres :

Pr JOUK Pierre-Simon

Pr FRANCOIS Patrice

Dr VAN BAKEL Marit

Dr FAUCONNIER Jérôme (directeur de thèse)

TABLE DES MATIERES

Introduction	16
La paralysie cérébrale	16
Définition	16
Epidémiologie	17
Participation	18
Paralysie cérébrale et participation	19
Enfants et adultes avec paralysie cérébrale ont une participation restreinte	19
Participation à l'adolescence avec des incapacités physiques	20
Déterminants modifiables de la participation dans la paralysie cérébrale ?	21
Objectifs	22
Méthodes	23
Protocole d'étude	23
Le projet Européen SPARCLE	23
Population d'étude et méthode d'échantillonnage	24
Ethique	24
Recueil de données	25
Variables mesurées	26
Critère de jugement : participation	26
Variables explicatives : déficiences, douleur, comportement, stress parental	29
Variables d'ajustement	32
Analyse statistique par modèles d'équations structurelles	32
Construits latents de participation et de déficience – modèle de mesure	33
Chemins de médiation des facteurs de l'enfance – modèle structurel	38
Etapes de l'analyse par modèles d'équation structurelles	43
Résultats	49
Nombre de répondants	49
Description de l'échantillon	50
Caractéristiques socio-démographiques	50
Participation	50
Déficiences	54
Facteurs contextuels	56
Modifications du modèle	58
Modèles de mesure modifiés	58
Modèle structurel modifié	60
Déterminants de la participation à l'enfance	64
Déterminants directs de la participation à l'adolescence	65
Effet indirect des déterminants de l'enfance	67
Discussion	72
Résumé des résultats	72
Forces et limites de l'étude	72
Comparaison avec les études existantes	74
Distribution des déterminants	74
Association entre déterminants et participation	75
Autres études longitudinales : déficience, qualité de vie, santé psychologique	77
D'autres directions de causalité ?	78
Implications pour la pratique clinique	79
Perspectives	82
En conclusion :	83
Bibliographie	84

LISTE DES TABLEAUX

Tableau 1. Activités du questionnaire de participation LIFE-H.....	27
Tableau 2 : Correspondance entre le score LIFE-H et le niveau de participation dans une activité.....	28
Tableau 3. Caractéristiques socio-démographiques et répartition par centre de l'échantillon longitudinal SPARCLE 2 (n=594).....	50
Tableau 4. Participation dans les domaines d'activités quotidiennes : distribution marginale de l'accomplissement des activités quotidiennes à l'enfance et à l'adolescence (n=594 sujets)..	51
Tableau 5. Participation dans les domaines de rôles sociaux : distribution marginale de l'accomplissement des activités à l'enfance et à l'adolescence (n=594 sujets).....	52
Tableau 6. Déficiences, distribution univariée à l'enfance et à l'adolescence.....	55
Tableau 7. Douleur rapportée par les parents au cours de la semaine précédente, distribution univariée à l'enfance et l'adolescence. Codage initial sur 6 catégories et regroupement en 3 catégories.....	56
Tableau 8. Evolution de la fréquence et de la sévérité de la douleur entre l'enfance et l'adolescence.....	57
Tableau 9. Problèmes psycho-comportementaux (score SDQ) et stress parental (score PSI-SF), distribution univariée à l'enfance et à l'adolescence.....	58
Tableau 10. Corrélations polychoriques entre les déficiences à l'enfance (1a-1f) et à l'adolescence (2a-2f).....	59
Tableau 11. Corrélations résiduelles entre paires d'activités pour une participation donnée..	60
Tableau 12. Effet direct de la déficience sur des activités particulières.....	61
Tableau 13. Items similaires entre les questionnaires PSI (sous-échelle "Enfant difficile") et SDQ.....	62
Tableau 14. Déterminants de la participation à l'enfance.....	64
Tableau 15. Déterminants directs de la participation à l'adolescence.....	65
Tableau 16. Participation adolescente dans les domaines des activités quotidiennes : effets indirects standardisés des déterminants de l'enfance.....	69
Tableau 17. Participation adolescente dans les domaines des rôles sociaux et les activités obligatoires : effets indirects standardisés des déterminants de l'enfance.....	70

LISTE DES ILLUSTRATIONS

- Figure 1. Probabilité d'accomplir une activité sans difficulté en fonction de la participation latente, dans le modèle probit ordonné, illustration par des exemples fictifs. 35
- Figure 2. Modèle de mesurage : variables latentes de participation (a) et de déficience (b). Exemple du domaine d'activité des repas. 37
- Figure 3. Modèle structurel a priori complet, spécifiant les liens entre participation et facteurs contextuels à l'enfance et à l'adolescence dans un domaine d'activité donné. 40
- Figure 4. Sous-modèle structurel a priori, restreint aux variables de l'enfance dans un domaine d'activité donné. 41
- Figure 5. Analyse de médiations. Exemple de l'effet indirect des troubles psycho-comportementaux de l'enfance sur la participation à l'adolescence. 42
- Figure 6. Flux des participants éligibles et inclus dans l'étude SPARCLE 2. 49
- Figure 7. Modèles de mesurage et structurel modifiés. Exemple du domaine de la vie domestique. 63
- Figure 8. Modèle final estimé dans le domaine de la vie domestique. 67
- Figure 9. Modèle alternatif équivalent en inversant le sens des effets entre la participation et les problèmes psycho-comportementaux ou le stress parental. 79

Professeur des Universités - Praticien Hospitalier
2011-2012

Nom	Prénom	Intitulé de la discipline universitaire
ALBALADEJO	Pierre	Anesthésiologie-réanimation
ARVIEUX-BARTHELEMY	Catherine	Chirurgie générale
BACONNIER	Pierre	Biostatistiques, informatique médicale et technologies de communication
BAGUET	Jean-Philippe	Cardiologie
BALOSSO	Jacques	Radiothérapie
BARRET	Luc	Médecine légale et droit de la santé
BAUDAIN	Philippe	Radiologie et imagerie médicale
BEANI	Jean-Claude	Dermato-vénérologie
BENHANOUE	Pierre Yves	Endocrinologie, diabète et maladies métaboliques
BERGER	François	Biologie cellulaire
BLIN	Dominique	Chirurgie thoracique et cardio-vasculaire
BOLLA	Michel	Cancérologie; radiothérapie
BONAE	Bruno	Gastroentérologie; hépatologie; addictologie
BOSSON	Jean-Luc	Biostatistiques, informatique médicale et technologies de communication
BOUGEROL	Thierry	Psychiatrie d'adultes
BRAMBILLA	Elisabeth	Anatomie et cytologie pathologiques
BRAMBILLA	Christian	Pneumologie
BRICAULT	Ivan	Radiologie et imagerie médicale
BRICHON	Pierre-Yves	Chirurgie thoracique et cardio-vasculaire
BRIX	Muriel	Chirurgie maxillo-faciale et stomatologie
CAHN	Jean-Yves	Hématologie
CARPENTIER	Françoise	Thérapeutique; médecine d'urgence
CARPENTIER	Patrick	Chirurgie vasculaire; médecine vasculaire
CESBRON	Jean-Yves	Immunologie
CHABARDES	Stephan	Neurochirurgie
CHABRE	Olivier	Endocrinologie, diabète et maladies métaboliques
CHAFFANJON	Philippe	Anatomie
CHAVANON	Olivier	Chirurgie thoracique et cardio-vasculaire
CHIQUET	Christophe	Ophtalmologie
CHIROSSSEL	Jean-Paul	Anatomie
CINQUIN	Philippe	Biostatistiques, informatique médicale et technologies de communication
COHEN	Olivier	Biostatistiques, informatique médicale et technologies de communication
COUTURIER	Pascal	Gériatrie et biologie du vieillissement
CRACOWSKI	Jean-Luc	Pharmacologie fondamentale; pharmacologie clinique

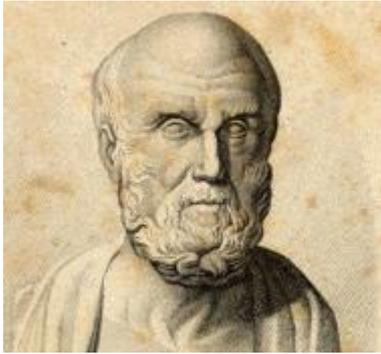
DE GAUDEMARIS	Régie	Médecine et santé au travail
DEBILLON	Thierry	Pédiatrie
DEMATTEIS	Maurice	Addictologie
DEMONGÉOT	Jacques	Biostatistiques, informatique médicale et technologies de communication
DESCOTES	Jean-Luc	Urologie
ESTEVE	François	Biophysique et médecine nucléaire
PAGRET	Daniel	Biophysique et médecine nucléaire
FAUCHERON	Jean-Luc	Chirurgie générale
FERRETTI	Gilbert	Radiologie et imagerie médicale
FEUERSTEIN	Claude	Physiologie
PONTAINE	Eric	Nutrition
FRANÇOIS	Patrice	Epidémiologie, économie de la santé et prévention
GARBAN	Frédéric	Hématologie; transfusion
GAUDIN	Philippe	Rhumatologie
GAVAZZI	Gaetan	Gériatrie et biologie du vieillissement
GAY	Emmanuel	Neurochirurgie
GRIPPET	Jacques	Chirurgie infantile
HALIMI	Serge	Nutrition
HOMMEL	Marc	Neurologie
JOUK	Pierre-Simon	Génétique
JUVIN	Robert	Rhumatologie
KAHANE	Philippe	Physiologie
KRACK	Paul	Neurologie
KRAINIK	Alexandre	Radiologie et imagerie médicale
LANTUEJOUL	Sylvie	Anatomie et cytologie pathologiques
LEBAS	Jean-François	Biophysique et médecine nucléaire
LEBEAU	Jacques	Chirurgie maxillo-faciale et stomatologie
LECCIA	Marie-Thérèse	Dermato-vénérologie
LEROUX	Dominique	Génétique
LEROY	Vincent	Gastroentérologie; hépatologie; addictologie
LETOUBLON	Christian	Chirurgie générale
LEVY	Patrick	Physiologie
LUNARDI	Joël	Biochimie et biologie moléculaire
MACHECOURT	Jacques	Cardiologie
MAGNE	Jean-Luc	Chirurgie vasculaire
MAITRE	Anne	Médecine et santé au travail
MAURIN	Max	Bactériologie-virologie
MERLOZ	Philippe	Chirurgie orthopédique et traumatologique

MORAND	Patrice	Bactériologie-virologie
MORO-SIBILOT	Denis	Pneumologie
MOUSSEAU	Mireille	Cancérologie
MOUTET	François	Chirurgie plastique, reconstructrice et esthétique; brûlogie
PALOMBI	Olivier	Anatomie
PASSAGIA	Jean-Guy	Anatomie
PAYEN DE LA GARANDERIE	Jean-François	Anesthésiologie-réanimation
PELLOUX	Hervé	Parasitologie et mycologie
PEPIN	Jean-Louis	Physiologie
PERENNOU	Dominique	Médecine physique et de réadaptation
PERNOD	Gilles	Médecine vasculaire
PIOLAT	Christian	Chirurgie infantile
PISON	Christophe	Pneumologie
PLANTAZ	Dominique	Pédiatrie
POLACK	Benoît	Hématologie
PONS	Jean-Claude	Gynécologie-obstétrique
RAMBEAUD	Jean-Jacques	Urologie
REYT	Emile	Oto-rhino-laryngologie
RIGHINI	Christian	Oto-rhino-laryngologie
ROMANET	Jean-Paul	Ophthalmologie
SARAGAGLIA	Dominique	Chirurgie orthopédique et traumatologique
SCHMERBER	Sébastien	Oto-rhino-laryngologie
SELE	Bernard	Biologie et médecine du développement et de la reproduction
SERGENT	Fabrice	Gynécologie-obstétrique
SESSA	Carmine	Chirurgie vasculaire
STAHL	Jean-Paul	Maladies infectieuses; maladies tropicales
STANKE	Françoise	Pharmacologie fondamentale
TIMSIT	Jean-François	Réanimation
TONETTI	Jérôme	Chirurgie orthopédique et traumatologique
TOUSSAINT	Bertrand	Biochimie et biologie moléculaire
VANZETTO	Gérald	Cardiologie
VUILLEZ	Jean-Philippe	Biophysique et médecine nucléaire
WEIL	Georges	Epidémiologie, économie de la santé et prévention
ZACUI	Philippe	Néphrologie
ZARSKI	Jean-Pierre	Gastroentérologie; hépatologie; addictologie

**Maître de Conférence des Universités - Praticien Hospitalier
2011-2012**

Nom	Prénom	Intitulé de la discipline universitaire
BONNETERRE	Vincent	Médecine et santé au travail
BOTTARI	Serge	Biologie cellulaire
BOUTONNAT	Jean	Cytologie et histologie
BRENIER-PINCHART	Marie-Pierre	Parasitologie et mycologie
BRIOT	Raphaël	Thérapeutique; médecine d'urgence
CALLANAN-WILSON	Mary	Hématologie; transfusion
CROIZE	Jacques	Bactériologie-virologie
DERANSART	Colin	Physiologie
DETANTE	Olivier	Neurologie
DUMESTRE-PERARD	Chantal	Immunologie
EYSSERIC	Hélène	Médecine légale et droit de la santé
FAURE	Julien	Biochimie et biologie moléculaire
GILLOIS	Pierre	Biostatistiques, informatique médicale et technologies de communication
GRAND	Sylvie	Radiologie et imagerie médicale
HENNEBICO	Sylviane	Biologie et médecine du développement et de la reproduction
HOPPMANN	Pascale	Gynécologie-obstétrique
LABARERE	José	Epidémiologie, économie de la santé et prévention
LAPORTE	François	Biochimie et biologie moléculaire
LARDY	Bernard	Biochimie et biologie moléculaire
LARRAT	Sylvie	Bactériologie-virologie
LAUNOIS-ROLLINAT	Sandrine	Physiologie
MALLARET	Marie-Reine	Epidémiologie, économie de la santé et prévention
MAUBON	Danièle	Parasitologie et mycologie
MC LEER (FLORIN)	Anne	Cytologie et histologie
MOREAU-GAUDRY	Alexandre	Biostatistiques, informatique médicale et technologies de communication
MOUCHET	Patrick	Physiologie

PACLET	Marie-Hélène	Biochimie et biologie moléculaire
PASQUIER	Dominique	Anatomie et cytologie pathologiques
PAYSANT	François	Médecine légale et droit de la santé
PELLETIER	Laurent	Biologie cellulaire
RAY	Pierre	Génétique
RIALLE	Vincent	Biostatistiques, informatique médicale et technologies de communication
SATRE	Véronique	Génétique
STASIA	Marie-Josée	Biochimie et biologie moléculaire
TAMISIER	Renaud	Physiologie



SERMENT
D'HIPPOCRATE

En présence des Maîtres de cette Faculté, de mes chers condisciples et devant l'effigie d'HIPPOCRATE,

je promets et je jure d'être fidèle aux lois de l'honneur et de la probité dans l'exercice de la Médecine.

Je donnerai mes soins gratuitement à l'indigent et n'exigerai jamais un salaire au dessus de mon travail. Je ne participerai à aucun partage clandestin d'honoraires.

Admis dans l'intimité des maisons, mes yeux n'y verront pas ce qui s'y passe ; ma langue taira les secrets qui me seront confiés et mon état ne servira pas à corrompre les mœurs, ni à favoriser le crime.

Je ne permettrai pas que des considérations de religion, de nation, de race, de parti ou de classe sociale viennent s'interposer entre mon devoir et mon patient.

Je garderai le respect absolu de la vie humaine.

Même sous la menace, je n'admettrai pas de faire usage de mes connaissances médicales contre les lois de l'humanité.

Respectueux et reconnaissant envers mes maîtres, je rendrai à leurs enfants l'instruction que j'ai reçue de leurs pères.

Que les hommes m'accordent leur estime si je suis fidèle à mes promesses.

Que je sois couvert d'opprobre et méprisé de mes confrères si j'y manque.

THESE SOUTENUE PAR : M. Van MÔ DANG

TITRE : DETERMINANTS DE LA PARTICIPATION CHEZ LES ADOLESCENTS AVEC PARALYSIE CEREBRALE :
UNE ETUDE LONGITUDINALE EUROPEENNE

CONCLUSION

La présente thèse étudie la participation des adolescents avec paralysie cérébrale dans les situations de vie habituelles, à travers ses associations avec trois déterminants de l'enfance accessibles à une prévention : douleurs, problèmes psycho-comportementaux et stress parental.

L'étude épidémiologique longitudinale prospective a porté sur une cohorte multicentrique représentative d'enfants avec paralysie cérébrale dans neuf régions de sept pays Européens, vus à l'enfance puis à l'adolescence. Dans chaque domaine de participation, on ajuste un modèle d'équations structurelles ; les déterminants de la participation sont intégrés à l'aide d'une régression hiérarchique ascendante ajustée sur la déficience, la participation à l'enfance, le centre, l'âge et le sexe.

Sur les 818 enfants initialement inclus, 594 ont été revus à l'adolescence. Douleur et stress parental à l'enfance sont associés à une participation altérée à l'adolescence dans tous les domaines d'activités quotidiennes sauf la communication, ainsi que dans les domaines des relations et des loisirs. Les troubles psycho-comportementaux à l'enfance sont associés à une participation altérée dans tous les domaines de rôles sociaux, et dans les domaines des soins personnels et de la communication. L'effet des déterminants de l'enfance s'exerce sur la participation adolescente principalement par le biais de la participation à l'enfance.

Les résultats suggèrent que la participation des adolescents avec paralysie cérébrale pourrait être améliorée par des interventions précoces et continues sur la douleur, les problèmes psycho-comportementaux et le stress parental.

VU ET PERMIS D'IMPRIMER

Grenoble, le 30/8/2012

LE DOYEN


J.P. ROMANET


LE PRESIDENT DE LA THESE


PROFESSEUR P. COUTURIER

DETERMINANTS OF PARTICIPATION BY ADOLESCENTS WITH CEREBRAL PALSY:
A LONGITUDINAL EUROPEAN STUDY.

By Van Mô DANG

Abstract

This thesis aims at studying the participation in life situations of adolescents with cerebral palsy, through its relationships with three determinants in childhood that are amenable to interventions: pain, behavioral problems and parenting stress.

The prospective longitudinal epidemiological study has followed a multicentric representative cohort of children with cerebral palsy in nine European regions from seven countries, by visiting them at childhood and adolescence. Within each participation domain, a structural equations model has been fitted; the determinants of participation have been included in the models using a forward hierarchical regression, controlled on impairment, participation in childhood, centre, age and gender.

From the 818 initially visited children, n=594 were interviewed again in adolescence. Pain and parenting stress in childhood are associated with a restricted adolescent participation in all domains of daily life activities except communication, as well as in relationships and recreation. Behavioral problems in childhood are associated with a restricted adolescent participation in all domains of social roles, as well as in personal care and communication. The effect of childhood determinants is mainly mediated through child participation.

The results suggest that participation in adolescents with cerebral palsy could be improved by early and continued interventions on pain, behavioral problems and parenting stress.

REMERCIEMENTS

Je tiens à exprimer toute ma gratitude au Professeur Pascal Couturier, d'avoir accepté de présider le jury de ma thèse sur un sujet qui pourrait paraître bien éloigné de la gériatrie au premier abord. Merci, Monsieur Couturier, de prolonger ainsi l'aimable et précieux soutien que vous m'avez accordé depuis ma venue comme interne chez vous.

Je voudrais très vivement remercier le Professeur Pierre-Simon Jouk d'avoir accepté, avec sa gentillesse et son enthousiasme communicatifs, mon invitation à participer au jury.

Je remercie beaucoup le Professeur Patrice François d'une part de participer au jury, nous faisant profiter de son expérience croisée de pédiatre et d'enseignant et chercheur en santé publique, et d'autre part d'avoir soutenu avec compréhension et confiance mon parcours quelque peu atypique dans le DES de santé publique.

Je voudrais remercier très chaleureusement le Dr Marit Van Bakel, tout d'abord de m'accueillir avec gentillesse et disponibilité au Registre des Handicaps de l'Enfant et Observatoire Périnatal dont elle est co-responsable, et ensuite de m'avoir fait l'honneur d'accepter mon invitation à participer au jury.

Un grand merci naturellement au Dr Jérôme Fauconnier, d'avoir dirigé mon travail de thèse avec tant de patience, de confiance, de disponibilité, de réactivité, d'enthousiasme et... d'humour ! Cela aura été un immense plaisir, Jérôme, de faire ce chemin avec toi comme guide.

How may I thank enough Dr Heather Dickinson, our SPARCLE biostatistician partner from Newcastle, for her just incredibly invaluable support in my statistical endeavors? My gratitude also goes to Pr Allan Colver for welcoming my participation in SPARCLE, and his kind and very stimulating curiosity, and to all the SPARCLE partners for our enriching exchanges.

Je tiens à remercier Audrey Guyard d'avoir partagé avec moi son expérience dans le projet SPARCLE. Comme j'ai apprécié, Audrey, nos encouragements mutuels sur les chemins de nos thèses, parfois embrumés par les mystères des modèles d'équations structurelles !

Je voudrais remercier beaucoup le Dr Christine Cans de m'avoir accepté en stage au RHEOP, en m'offrant les meilleures conditions possibles à la fois pour apprendre sur le terrain les subtilités du Registre et pour terminer le présent travail de thèse. Ton dynamisme et ta pétillante curiosité, Christine, m'ont grandement fait apprécier de travailler à ton contact. Je remercie également les membres du RHEOP de m'avoir intégré avec sympathie parmi eux et ainsi permis d'appréhender différentes facettes de leurs activités.

Je remercie chaleureusement les membres du Département d'Information Médicale du CHU de Grenoble, de m'avoir fait partager leur bel esprit d'équipe œuvrant dans la bonne humeur pendant une première partie du présent travail. Merci, Régine, de ne pas partager que ton bureau, mais aussi tant de conversations amicales avec ton écoute empathique unique.

Je remercie également fort l'équipe de l'Unité de Qualitique et Evaluation Médicale du CHU de Grenoble de m'avoir fourni les moyens de poursuivre cette étude pendant mon stage chez elle... et de me faire partager son art du café, petit moment apaisant du matin.

Mes remerciements vont à nos « aînées » anciennes cointernes, le Dr Elodie Sellier et le Dr Gaelle Bal, pour avoir amicalement et attentivement passé le relais à nous autres des plus « jeunes » générations. Merci également à vous Anne-Sophie, Anne-Marie, Pierre, André, Joris, Bastien et Damien : votre aimable solidarité fait vivre un bel état d'esprit dans notre internat de Santé Publique à Grenoble.

Merci enfin à toi, Claire, de m'avoir épaulé sans faille tout au long de ce parcours, et à toi Marianne, qui m'as donné toute ma place de « papa à Marianne » en dehors des moments où « papa travaille » !

A mes parents

INTRODUCTION

La paralysie cérébrale

Définition

La définition suivante résume différentes formulations utilisées jusqu'ici pour décrire la paralysie cérébrale (*cerebral palsy*, abrégé ci-dessous en PC), et a été adoptée par le réseau Européen des registres de paralysie cérébrale [1] :

La paralysie cérébrale est un ensemble de troubles permanents, mais non fixes, du mouvement et/ou de la posture, ainsi que des fonctions motrices, consécutifs à une perturbation, une lésion ou une anomalie non-progressives affectant le cerveau en développement/immature.

La paralysie cérébrale repose ainsi sur une définition clinique et regroupe des étiologies et présentations hétérogènes. Le principal point commun consiste en des troubles du développement moteur qui constituent le motif initial de consultation le plus fréquent. Les troubles moteurs peuvent affecter la locomotion et la coordination manuelle, ainsi que la déglutition et l'articulation du langage oral.

Les âges de survenue d'une PC correspondent à la période du développement cérébral des fonctions motrices. L'âge exact des lésions est le plus souvent difficile à préciser. Dans la plupart des cas, les troubles s'installent dans la période fœtale ou au cours des trois premières années de vie. Les lésions peuvent être localisées au cerveau, au cervelet ou au tronc cérébral.

Les troubles associés sont fréquents [2] : déficience visuelle ou auditive, perturbation des processus cognitifs pouvant être sévère, incluant les déficits d'attention, ou limitation des capacités de communication ; des problèmes psycho-comportementaux, incluant des troubles autistiques ou des troubles de l'humeur ; une maladie épileptique. Les complications musculo-squelettiques comportent des rétractions musculaires ou tendineuses, des déformations osseuses, ou des luxations de hanche ; elles peuvent apparaître tout au long de la vie, en lien avec la croissance et la spasticité musculaire.

Epidémiologie

La prévalence de la paralysie cérébrale est estimée à environ 2 enfants pour 1000 naissances vivantes, dans les pays développés comme dans les pays en voie de développement [3]. Cette prévalence est restée stable sur les 30 dernières années. La mortalité est plus élevée qu'en population générale, mais la majorité des enfants avec PC atteignent l'âge adulte ; cette proportion varie entre 60 et 90 % selon le niveau de sévérité des déficiences initiales [4].

Les principaux facteurs de risque de survenue de PC sont la prématurité et un bas poids de naissance. La prévalence de la PC est 6 à 10 fois plus élevée chez les enfants nés prématurés par rapport aux enfants nés à terme, ou chez ceux ayant un poids de naissance inférieur à 1500 g par rapport à ceux de poids de naissance normal.

Les étiologies des PC congénitales sont le plus souvent considérées comme multifactorielles ; on peut retrouver une cascade d'éléments favorisants tels qu'une prédisposition génétique, un âge maternel élevé, une grossesse multiple ou une malformation cardiaque. Malgré les progrès de l'imagerie, le diagnostic prénatal d'une PC est rarement possible et reste du domaine de la recherche. Les PC acquises post-néonatales peuvent être d'origine traumatique, infectieuse, ou hypoxique, et représentent 5 à 10 % des cas de PC. On ne retrouve aucune étiologie dans plus de 30 % des cas.

Dans les trois dernières décennies, le taux de prévalence de la paralysie cérébrale a diminué chez les enfants nés prématurés ou avec un faible poids de naissance. Cette diminution reflète probablement les progrès de la prise en charge en néonatalogie. Cependant, on a observé dans le même temps une augmentation continue du taux de ces mêmes enfants nés prématurés ou avec faible poids de naissance. Ces deux tendances peuvent expliquer que la prévalence globale de la PC soit restée stable malgré les efforts de prévention entrepris, en particulier sur les facteurs de PC post-néonatale, par exemple à travers les mesures améliorant la sécurité routière ou la vaccination contre le méningocoque.

Participation

La limitation des activités est un élément essentiel à prendre en compte dans la paralysie cérébrale [2]. Une priorité de la prise en charge est ainsi d'optimiser pour le patient l'accomplissement de ses activités quotidiennes et son engagement dans la vie en société.

Cette perspective, centrale en réhabilitation, repose sur un concept de santé s'étendant au fonctionnement global de la personne. Ce concept global de santé est universel, principe que rappelle le texte désormais classique inscrit en préambule de la Constitution de l'Organisation Mondiale de la Santé (OMS) [5] :

La santé est un état de complet bien-être physique, mental et social, et ne consiste pas seulement en une absence de maladie ou d'infirmité. La possession du meilleur état de santé qu'il est capable d'atteindre constitue l'un des droits fondamentaux de tout être humain, quelles que soient sa race, sa religion, ses opinions politiques, sa condition économique ou sociale.

Pour évaluer les composantes du bien-être d'une personne en rapport avec ses maladies, on peut se référer au cadre général élaboré par l'OMS dans sa Classification Internationale du Fonctionnement, du Handicap et de la Santé (CIF)[6]. La CIF est parfois présentée comme un équivalent fonctionnel de la Classification Internationale des Maladies (CIM). Le fonctionnement d'une personne y est décrit par son « activité » et sa « participation », c'est-à-dire les tâches qu'elle parvient à exécuter et son engagement dans des situations de vie. Pour chaque situation, la capacité de la personne est décrite dans deux contextes : un environnement standard, par exemple sans aide, et son environnement naturel. Les facteurs susceptibles d'influer sur le fonctionnement peuvent être d'ordre personnel, tels que les fonctions corporelles, ou environnemental, tels que les aides techniques, le contexte familial, l'attitude de la société ou les politiques publiques. La CIF a été adaptée pour les enfants et adolescents afin d'enregistrer les situations de vie habituelles à cet âge [7]. Les items de situations sont divisés en chapitres, et affinés à différents niveaux de détail selon les besoins de l'évaluation, par exemple :

- dans le chapitre *d5* des soins personnels, l'item *d520* des soins corporels peut être subdivisé en sous-items plus précis : soins de la peau (*d5200*), des dents (*d5201*), etc.

- dans le chapitre *d8* des domaines majeurs de vie, l'item *d880* d'engagement dans des jeux peut être précisé par l'engagement dans des jeux solitaires (*d8800*), l'observation du jeu d'autrui (*d8801*), etc.

Pour qualifier la participation de l'enfant dans chaque item, on indique l'étendue des problèmes rencontrés : aucun, léger, modéré, sévère, complet.

La CIF traduit une évolution conceptuelle en réhabilitation dans les trois dernières décennies : l'environnement voit son rôle explicitement décrit dans le handicap vécu par la personne malade. Antérieurement, le modèle dit médical du handicap décrivait une cascade reliant les lésions à des déficiences d'organe, responsables à leur tour de limitations fonctionnelles qui pouvaient entraîner un éventuel désavantage pour le patient ; l'environnement pouvait implicitement atténuer le désavantage social consécutif à une limitation fonctionnelle. Ce modèle dit médical sous-tendait notamment la classification précédente de l'OMS, the International Classification of Impairment, Disabilities and Handicaps (ICIDH). Cette vision médicale limitait la lutte contre le handicap aux seules interventions sur les déficiences physiques, quand elles étaient possibles. Le paradigme de la CIF met l'accent sur le rôle de l'environnement dans les désavantages du patient : une même déficience, dans un environnement rendu favorable, peut diminuer, voire faire disparaître un désavantage.

En accord avec la terminologie usuelle en réhabilitation pédiatrique, la « participation » désignera dans la suite le niveau de fonctionnement de la personne dans une situation de vie habituelle.

Paralysie cérébrale et participation

Enfants et adultes avec paralysie cérébrale ont une participation restreinte

La paralysie cérébrale est la cause la plus fréquente d'incapacité physique dans l'enfance [3]. Les enfants avec paralysie cérébrale ont une participation restreinte dans les activités quotidiennes comme dans les rôles sociaux ; ces restrictions de participation, pour un environnement donné, sont liées à la sévérité des déficiences neurologiques [8], [9]. Ainsi, la participation dans les activités de soins personnels est plus difficile pour les enfants avec

paralysie cérébrale qui ont des déficiences locomotrice, bi-manuelle, et intellectuelle ; la participation dans les relations aux autres est altérée en présence de déficiences de cognition ou de communication.

Les adultes avec PC sont à leur tour désavantagés en termes d'emploi, de vie indépendante ou de relations sociales [10]. Dans cette étude Danoise, 68 % des adultes avec PC vivaient de façon indépendante, 13 % avec leurs parents, et 16 % en institution ; 55 % d'entre eux étaient privés des contacts sociaux communément procurés par un emploi en environnement non protégé, un conjoint ou des enfants. La probabilité de vivre indépendamment, de même que celle de vivre avec un conjoint, étaient diminuées en présence de déficience locomotrice ou intellectuelle et d'épilepsie dans l'enfance.

Participation à l'adolescence avec des incapacités physiques

A l'adolescence, les jeunes souffrant d'incapacités physiques doivent surmonter de nombreux obstacles pour accéder à davantage d'autonomie [11]. Comme leurs pairs, ils traversent une phase de développement comportant des changements profonds, physiques, psychosociaux et émotionnels [12]. Cependant, les pathologies chroniques interfèrent sur plusieurs aspects du développement adolescent [13]. Ainsi, la maturation physique est souvent retardée, avec une période pubertaire prolongée [14][15]. Le retard de croissance, fréquent, peut être à l'origine d'une souffrance psychologique en lien avec une image corporelle altérée. Les rapports avec la famille et les pairs se modifient également : les adolescents avec PC ressentent comme les autres le besoin d'établir des liens affectifs hors du cadre familial, mais leur participation sociale s'avère limitée hors du cadre scolaire [16]. Enfin, la jeune personne atteinte d'une pathologie chronique doit transférer sa prise en charge depuis des services de soins pédiatriques, en général étroitement intégrés, vers des services de soins adultes souvent plus cloisonnés. Cette transition occasionne des ruptures de suivi, si bien que des recommandations ont été élaborées afin d'améliorer la cohésion de prise en charge des adolescents souffrant de pathologies chroniques [17].

Par ailleurs, l'irruption du handicap dans la vie d'une famille bouleverse le fonctionnement de celle-ci et nécessite la mise en place de mécanismes d'adaptation qui lui permettent de retrouver un équilibre durant la période de l'enfance [18]. Les modifications physiques,

psychologiques et affectives de l'adolescence introduisent de nouveaux déséquilibres dont les conséquences peuvent être importantes.

En raison de ces multiples sources de vulnérabilité dans cette période de transition, la participation des adolescents avec PC mérite une attention particulière [19]. Une étude récente montre que les adolescents avec PC ont des restrictions de participation dans tous les domaines d'activités et de rôles sociaux, principalement en lien avec leur déficience motrice [20]. On dispose encore de peu de publications étudiant les facteurs accessibles à une prévention associés à la participation des adolescents avec PC.

Déterminants modifiables de la participation dans la paralysie cérébrale ?

Trois problèmes affectent fréquemment les enfants avec paralysie cérébrale et leur famille, sont accessibles à une intervention, et paraissent susceptibles d'influer sur leur participation : la douleur, les problèmes psycho-comportementaux de l'enfant et le stress parental.

Une proportion élevée d'enfants et adolescents avec PC souffre de douleurs chroniques [21], [22]. Le niveau de douleur est corrélé à la sévérité des déficiences [23–25]. Les options thérapeutiques ciblant la douleur peuvent relever du traitement de la spasticité [26] ou de stratégies d'adaptation [27]. La douleur a été identifiée comme un facteur indépendant lié à la participation des enfants avec paralysie cérébrale, dans la plupart des domaines d'activités et de rôle sociaux [9].

Par ailleurs, par rapport aux enfants en population générale, ceux qui ont une paralysie cérébrale sont à risque plus élevé de mal-être psychologique [28], et leurs parents ont une moins bonne santé psychologique [29], [30]. La prise en charge des problèmes psychologiques des enfants avec PC peut faire appel à la relaxation ou à des thérapies cognitivo-comportementales [31]. La détresse psychologique des parents d'enfants avec PC peut être améliorée par des stratégies d'adaptation [32], un réseau informel de soutien social [33], ou des services professionnels de soutien [34]. Le bien-être psychologique de l'enfant et celui de ses parents font partie d'un modèle explicatif plus global rendant compte de tous les facteurs susceptibles d'affecter la participation aux loisirs chez les enfants souffrant d'incapacités [35]. Cependant, peu d'études ont exploré jusqu'ici l'existence d'un lien entre la participation des enfants avec paralysie cérébrale et leur santé psychologique ou celle de leurs parents [36], [37].

Afin de comprendre les facteurs influençant l'impact d'une maladie chronique, les études longitudinales présentent de multiples intérêts. Ces intérêts sont d'autant plus significatifs en pédiatrie, où les processus pathologiques évoluent en même temps que le sujet se développe et poursuit sa maturation [38]. En particulier, un schéma longitudinal permet d'évaluer dans quelle mesure les problèmes de participation à l'adolescence prolongent ceux rencontrés à l'enfance. Par ailleurs, on peut étudier en quoi les modifications observées à l'adolescence sont liées aux facteurs présents antérieurement à l'enfance et pressentir avec plus de conviction une relation de causalité.

Objectifs

L'objectif principal de notre travail est d'identifier quels déterminants à l'enfance sont associés à la participation à l'adolescence chez les jeunes avec paralysie cérébrale, en ciblant plus particulièrement les facteurs qui peuvent faire l'objet d'une intervention de santé : la douleur, les problèmes psycho-comportementaux de l'enfant, et le stress parental. Les autres déterminants pris en compte sont la sévérité des déficiences et le niveau de participation à l'enfance. Les effets sont ajustés sur la région géographique, le sexe et l'âge.

En objectif secondaire, nous étudierons les médiations susceptibles d'expliquer l'effet des facteurs de l'enfance sur la participation à l'adolescence, en particulier à travers la participation à l'enfance et les facteurs à l'adolescence.

METHODES

Protocole d'étude

Le projet Européen SPARCLE

La présente étude s'inscrit dans un projet plus large, intitulé SPARCLE (*Study of PARTicipation of Children with cerebral palsy Living in Europe*). Le projet SPARCLE, initialement financé par la Communauté Européenne, vise à identifier des facteurs modifiables de participation et de qualité de vie des enfants et adolescents avec paralysie cérébrale, en particulier des facteurs environnementaux. Il repose sur une enquête prospective de cohorte couvrant neuf régions de sept pays Européens, les centres étant respectivement :

1. Newcastle (nord de l'Angleterre),
2. Göteborg (ouest de la Suède),
3. Belfast (Irlande du Nord),
4. Grenoble (sud-est de la France),
5. Cork (sud-ouest de l'Irlande),
6. Copenhague (est du Danemark),
7. Viterbo (centre de l'Italie),
8. Toulouse (sud-ouest de la France),
9. Lübeck (nord-ouest de l'Allemagne).

Dans les huit premières régions, les enfants et adolescents étaient échantillonnés à partir de registres de paralysie cérébrale. Comme les registres visent à surveiller la prévalence de la PC par un recueil aussi exhaustif que possible des cas, l'échantillon peut être considéré comme représentatif de toute la population des enfants avec PC dans ces régions.

La première phase, appelée SPARCLE 1, a recruté des enfants avec paralysie cérébrale âgés de 8 à 12 ans en 2004-2005. La deuxième phase, SPARCLE 2, a recruté des adolescents avec

paralysie cérébrale âgés de 16 à 20 ans en 2008-2009, et dont la majorité étaient suivis après avoir déjà participé à SPARCLE 1. Nous rappelons ci-dessous les grandes lignes du protocole de l'étude SPARCLE, qui est décrit en détail par ailleurs [39], [40].

Population d'étude et méthode d'échantillonnage

Les enfants éligibles pour SPARCLE 1 étaient tous ceux nés entre le 31 juillet 1991 et le 1^{er} avril 1997 (c'est à dire entre 8 ans et 12 ans) et notifiés sur les registres de paralysie cérébrale lorsqu'ils habitaient une des huit régions couvertes par un tel registre. Les centres 1, 2, 3 et 6 avaient des registres d'effectifs plus importants que les autres ; dans ces quatre centres, les enfants éligibles ont été échantillonnés aléatoirement à l'intérieur de chaque strate de sévérité de déficience motrice, de façon à obtenir un effectif comparable aux autres centres. Dans la neuvième région, en Allemagne, les enfants avec paralysie cérébrale étaient identifiés par notification à partir de sources multiples. Les neuf centres partageaient la même définition de paralysie cérébrale, établie de manière concertée dans un autre projet européen (référence SCPE). Sur les 1174 enfants éligibles dans les huit premières régions, 743 (63 %) ont pris part à SPARCLE 1, les familles des autres enfants n'ayant pu être contactées ou ayant refusé de participer. La neuvième région a recruté 75 enfants. L'échantillon de SPARCLE 1 était ainsi constitué de 818 enfants.

Chaque enfant inclus dans SPARCLE 1 était si possible à nouveau inclus dans SPARCLE 2 à son adolescence. En prévision d'une attrition de la cohorte initiale, on a recruté des adolescents supplémentaires avec paralysie cérébrale¹ ; le but était d'obtenir un échantillon total de taille comparable à celui des enfants, et de pouvoir ainsi réaliser des études transversales de même puissance qu'à l'enfance. Les inclusions supplémentaires n'ont pas été prises en compte dans la présente étude longitudinale.

Ethique

L'étude a été approuvée par les comités d'éthiques de chaque pays participant. Dans SPARCLE 1, chaque enfant éligible était inclus si les parents donnaient leur consentement,

après avoir été informés par un médecin les connaissait. Au cours de l'enquête pour SPARCLE 1, on obtenait des familles leur permission pour être recontactées quand l'enfant atteindrait l'adolescence. Pour les adolescents supplémentaires recrutés dans SPARCLE 2, le consentement de l'adolescent était recherché en priorité, et celui des parents était en outre requis pour les adolescents âgés de moins de 16 ans (18 ans en France).

Recueil de données

Un attaché de recherche venait rencontrer à leur domicile chaque enfant ou adolescent avec un de ses parents. Il recueillait si possible en une seule visite l'ensemble des données de l'enquête ; il remplissait les questionnaires avec le parent et/ou l'enfant en s'assurant de la compréhension de chaque question. Dans SPARCLE 1, l'attaché de recherche administrait les questionnaires au parent, en incluant l'enfant dans la démarche – à l'exception du questionnaire de qualité de vie, rempli avec l'enfant pris à part lorsqu'il était jugé capable de le renseigner. Dans SPARCLE 2, les questionnaires mettant le plus en jeu la perception de l'adolescent lui étaient administrés en priorité et à part, lorsqu'il était jugé capable d'y répondre – ceci concernait sa qualité de vie, la douleur, et ses difficultés psycho-comportementales ; ces mêmes questionnaires étaient également administrés au parent dans leur version parentale. Le questionnaire de participation était renseigné par l'adolescent lorsqu'il en était jugé capable, sinon par le parent – on fait l'hypothèse que les questions de participation sont suffisamment objectives pour interpréter de la même façon des réponses données par un parent ou par l'adolescent. Le questionnaire d'environnement était rempli avec l'adolescent et le parent. Le reste des questionnaires était uniquement renseigné par le parent. Lors de chaque visite, le temps de recueil variait entre 90 et 120 minutes dans SPARCLE 1 ; selon une attachée de recherche, ce temps variait entre 60 et 180 minutes dans SPARCLE 2. Les attachés de recherche des différents centres suivaient au préalable une formation commune afin d'harmoniser le plus possible les modalités de recueil.

¹ Les adolescents supplémentaires ont été recrutés parmi ceux qui n'avaient pas répondu à l'enquête SPARCLE 1 (représentant 37 % des enfants éligibles), ou parmi ceux qui n'avaient pas été tirés au sort dans les centres 1, 2, 3 et 6.

Variables mesurées

Nous décrivons ici uniquement les variables prises en compte dans notre étude. Dans le projet SPARCLE, d'autres variables sont mesurées, telles que la qualité de vie, la fréquence de participation, ou l'environnement sociétal et architectural ; par souci de simplicité, nous considérerons ces variables comme extérieures à l'objectif de notre investigation.

Critère de jugement : participation

La participation des enfants et des adolescents est évaluée par le questionnaire des habitudes de vie, LIFE-H [41]. Ce questionnaire repose sur une base théorique similaire à la Classification Internationale du Fonctionnement et son adaptation aux enfants et adolescents [7].

Tableau 1. Activités du questionnaire de participation LIFE-H.

Domaines des activités quotidiennes	Domaines des rôles sociaux
<p>Repas Prendre les repas à table (*) Choisir le type et la quantité de nourriture désirés Participer à la préparation des repas Manger au restaurant, dans une cafétéria ou au fast-food</p> <p>Hygiène de santé Se coucher dans le lit et en sortir (*) Bien dormir Faire de l'exercice physique pour entretenir sa santé Pratiquer des activités de détente</p> <p>Soins personnels Soins d'hygiène personnelle (*) Utiliser des toilettes au domicile (*) Utiliser des toilettes hors du domicile (*) S'habiller et se déshabiller (haut du corps) (*) S'habiller et se déshabiller (bas du corps) (*) Participer aux soins médicaux (*) Recourir au cabinet médical ou à l'hôpital locaux (*) Mettre et enlever ses aides techniques</p> <p>Communication Communiquer en tête à tête avec un adulte Communiquer en tête à tête avec des jeunes Communiquer au sein d'un groupe Ecrire Lire et comprendre des mots, livres, consignes, etc. Utiliser le téléphone Utiliser l'ordinateur Utiliser des équipements audio/audiovisuels</p> <p>Vie domestique Rentrer et sortir de chez soi (*) Se déplacer dans la maison (*) Contribuer aux travaux de ménage Aider aux travaux de jardinage Utiliser les éléments ménagers (portes, interrupteurs, etc.) Se déplacer aux abords de la maison</p> <p>Déplacements Se déplacer dans les rues et sur les trottoirs (*) Se déplacer sur des surfaces glissantes ou inégales Rouler à vélo, rollers, en fauteuil, etc. pour le plaisir Voyager comme passager d'un moyen de transport</p>	<p>Responsabilités Reconnaître et utiliser l'argent correctement Gérer de l'argent de poche Gérer un compte en banque (retrait d'argent, etc.) Faire des courses ou des commissions Respecter les biens et les droits des autres Assumer ses propres responsabilités (sécurité personnelle) Soutenir les membres de la famille en cas de besoin</p> <p>Relations interpersonnelles Entretenir une relation affectueuse avec ses parents Entretenir une relation affectueuse avec les autres membres de la famille vivant au domicile Entretenir une relation affectueuse ou amicale avec les autres membres de la famille Entretenir des liens amicaux avec d'autres jeunes à l'école ou dans le cadre de ses loisirs Entretenir des liens amicaux avec d'autres adultes</p> <p>Vie sociale Participer à des activités de groupes communautaires Participer à des activités religieuses ou spirituelles</p> <p>Ecole Se rendre à l'école et se déplacer à l'intérieur de l'école Participer aux cours, tâches et contrôles à l'école (*) Utiliser les installations scolaires (*) Suivre des enseignements complémentaires (éducation physique, musique, etc.) Faire des devoirs à la maison Participer à des sorties organisées par l'école</p> <p>Loisirs Participer à des jeux sportifs ou d'extérieur Participer à des jeux non sportifs (cartes, jeux vidéos) Assister à des événements sportifs Pratiquer des activités manuelles ou artistiques Aller voir des événements artistiques ou culturels Participer à des activités touristiques Se rendre dans des installations culturelles et de loisirs Participer à des activités qui se déroulent dans des installations culturelles et de loisirs</p>

(*) = activité obligatoire.

Le questionnaire LIFE-H : 62 activités obligatoires et facultatives, onze domaines

La participation dans LIFE-H est détaillée sur 62 items d'activités regroupés en onze domaines (cf. Tableau 1). Les six premiers domaines concernent les activités quotidiennes d'ordre personnel : repas, hygiène de vie, soins personnels, communication, vie domestique et

mobilité. Les cinq autres domaines concernent les rôles sociaux : responsabilités, relations aux autres, vie en communauté, scolarité et récréation.

Sur les 62 activités, 15 sont considérées comme « obligatoires », c'est-à-dire que l'enfant ou l'adolescent doit obligatoirement les accomplir, seul ou aidé, pour assurer sa « survie » ; par exemple s'alimenter, s'habiller, mais aussi se rendre à l'école. Chacune des 47 autres activités est dite « facultative », c'est-à-dire que le sujet peut décider de ne pas l'accomplir, soit parce qu'il la trouve trop difficile, soit par absence d'intérêt ; par exemple faire du sport ou gérer de l'argent de poche.

Niveau d'accomplissement d'une activité : codage original et modifié

Le questionnaire LIFE-H fait correspondre un score de participation à la réponse enregistrée pour chaque activité (cf. Tableau 2). Pour une activité obligatoire, le score LIFE-H de participation est un nombre entier allant de 1 (participation la plus faible) à 9 (participation la plus élevée). Pour une activité facultative, le score peut prendre deux valeurs supplémentaires : zéro pour indiquer qu'elle n'est pas accomplie parce que trop difficile ; N/A pour signifier que l'activité est « non applicable », c'est-à-dire que l'enfant ne réalise pas l'activité parce qu'il ne se sent pas concerné ou n'y trouve pas d'intérêt. Le score est d'autant meilleur que le sujet accomplit l'activité sans difficulté *et* avec moins d'assistance technique ou humaine. Le score de chacun des onze domaines de participation est ensuite défini comme la moyenne des scores des activités du domaine, une moyenne calculée sur les valeurs à la fois non manquantes et différentes de N/A.

Tableau 2 : Correspondance entre le score LIFE-H et le niveau de participation dans une activité.

Score	Niveau de difficulté	Type d'assistance
LIFE-H		
9	Sans difficulté	Sans assistance
8	Sans difficulté	Avec aide technique (ou adaptation)
7	Avec difficulté	Sans assistance
6	Avec difficulté	Avec aide technique (ou adaptation)
5	Sans difficulté	Avec assistance humaine supplémentaire
4	Sans difficulté	Avec aide technique (et/ou adaptation) et assistance humaine supplémentaire
3	Avec difficulté	Avec assistance humaine supplémentaire
2	Avec difficulté	Avec aide technique (et/ou adaptation) et assistance humaine supplémentaire
1	Accompli par substitution	Avec assistance humaine totale
0	Non accompli (*)	
N/A	Non applicable (*)	

(*) Seules les activités facultatives peuvent être codées par un score de zéro ou N/A.

Comme le montre le Tableau 2, le calcul original du score LIFE-H mêle deux concepts qu'on souhaite pourtant découpler dans le projet SPARCLE. Le but de SPARCLE est en effet d'évaluer en quoi la participation de l'enfant est facilitée ou gênée par son environnement. Or, l'environnement inclut les aides techniques et l'assistance humaine. Par conséquent, le critère de jugement visé est uniquement la difficulté finale de participation pour l'enfant ou l'adolescent, quel que soit le niveau d'assistance mobilisé.

C'est pourquoi il a été convenu dans SPARCLE 1 de coder plus simplement les réponses au questionnaire LIFE-H :

- une activité obligatoire est accomplie « sans difficulté » ou « avec difficulté » (deux niveaux) ;
- une activité facultative est accomplie « sans difficulté », « avec difficulté » ou « non accomplie car trop difficile » (3 niveaux) ; on code en réponse manquante une activité facultative non accomplie car non applicable.

Les résultats des études de participation dans SPARCLE 1 ont validé l'intérêt interprétatif de ce codage indépendant de l'assistance, après l'avoir comparé avec le codage original de LIFE-H [9].

Ce codage alternatif a ainsi été utilisé de façon exclusive à l'adolescence : on renseigne uniquement la difficulté avec laquelle l'adolescent participe au final à l'activité, sans demander le niveau d'aide requis. Dans SPARCLE 2, il a en outre été décidé de modifier le codage des activités obligatoires : l'adolescent peut indiquer qu'il accomplit l'activité « sans difficulté », « avec un peu de difficulté » ou « avec beaucoup de difficulté », donc sur trois niveaux au lieu de deux. Cette modification visait à harmoniser le nombre de niveaux de participation entre activités obligatoires et facultatives, et simplifier ainsi les analyses statistiques transversales.

Variables explicatives : déficiences, douleur, comportement, stress parental

Déficiences

La déficience *locomotrice* est codée avec le système de classification de la fonction motrice principale, Gross Motor Function Classification System (GMFCS), validé dans la population des enfants avec paralysie cérébrale [42]. La déficience locomotrice peut prendre 5 niveaux

allant de 1 = déficience minimale (marche et emprunte les escaliers sans restriction ; limitation dans les compétences locomotrices plus élaborées) à 5 = déficience sévère (la mobilité personnelle est extrêmement limitée, même avec l'usage de technologies d'assistance).

La déficience *bimanuelle* est codée à l'aide de la Fonction Motrice Fine Bimanuelle, Bimanual Fine Motor Function (BFMF), qui a été élaborée de façon à obtenir une correspondance avec les 5 niveaux de la GMFCS [8] : 1 = déficience minimale (une main manipule sans restriction, l'autre sans restriction ou avec une limitation des gestes élaborés), 5 = déficience sévère (les deux mains peuvent au mieux tenir un objet).

La déficience de la *déglutition* est codée sur 3 niveaux : 1 = absence de problème, 2 = alimentation orale difficile, 3 = alimentation orale impossible requérant de poser une sonde d'alimentation entérale.

La déficience de la *communication* est codée sur 4 niveaux, de « normal » à « absence de communication formelle ».

La déficience *intellectuelle* est codée en 3 catégories : quotient intellectuel (QI) < 50 (déficience dite sévère), QI entre 50 et 69 déficience légère, QI > 70, déficience minimale ou QI normal. Si le QI n'a pas fait l'objet d'une évaluation psychométrique avant l'enquête SPARCLE, la catégorie de déficience intellectuelle est approchée à partir de quatre questions posées aux parents sur les troubles d'apprentissage ou de compréhension de leur enfant.

Chacune des déficiences *visuelle* et *auditive* est codée sur deux niveaux : capacité visuelle fonctionnelle ou non ; absence d'appareillage auditif ou nécessité d'un appareillage auditif avec perte profonde ou sévère > 70 dB.

L'*épilepsie* est une comorbidité fréquemment associée à la paralysie cérébrale. Sans être à proprement parler une déficience, l'épilepsie est susceptible d'affecter les activités de l'enfant par l'impact propre des crises convulsives ou par les effets secondaires des traitements. L'épilepsie est codée sur 5 niveaux de sévérité, de 1 (absence de crise et de traitement sur l'année passée) à 5 (plus d'une crise par semaine l'année passée).

Douleur

La douleur est mesurée en demandant la *fréquence* et la *sévérité* de la douleur ressentie par l'enfant sur la semaine passée, initialement codées sur 6 niveaux. Tous les enfants ne pouvaient renseigner cette fréquence et cette sévérité de façon également fiable en raison du

niveau très variable de leurs capacités cognitives. Aussi est-ce la réponse des parents qui a été retenue afin d'homogénéiser le mode de recueil. Nous avons regroupé la fréquence et la sévérité de douleur en 3 catégories de façon à obtenir des effectifs suffisants :

- fréquence : 1 = jamais / 2 = une ou deux fois ou quelquefois / 3 = assez souvent, souvent ou presque tous les jours
- sévérité : 1 = aucune douleur / 2 = très légère ou légère / 3 = modérée, sévère ou très sévère.

Si fréquence et sévérité de la douleur s'avèrent très corrélées, nous ne garderons que la fréquence comme information de douleur. Sinon, nous définirons un construit latent de douleur dont fréquence et sévérité sont les manifestations.

Difficultés psycho-comportementales

Les difficultés psycho-comportementales de l'enfant ou de l'adolescent sont évaluées par le questionnaire des forces et difficultés, Strength and Difficulties Questionnaire (SDQ) [43]. Le questionnaire SDQ vise à dépister un risque de troubles psychiatriques chez les enfants et adolescents. Il comporte 25 items décomposés en 5 domaines de 5 items : symptômes émotionnels, troubles de conduite, hyperactivité, difficultés avec les pairs, comportement pro-social. Les questions mêlent des formulations négatives (« Ne tient pas en place ou se tortille constamment ») et positives (« Réfléchit avant d'agir »). Chaque réponse est cotée sur trois niveaux correspondant à {pas vrai / un peu vrai / très vrai}, codés {0/1/2} (respectivement {2/1/0}) dans le cas d'une formulation négative (respectivement positive). Le score total de difficultés psycho-comportementales est obtenu en faisant la somme des réponses dans les quatre premiers domaines. En population générale, environ 80 % des enfants ont un score total de difficultés compris entre 0 et 13 (plage de valeurs définie comme « normale »), 10 % entre 14 et 16 (« limite »), et 10 % entre 17 et 40 (« anormale »). Sur un large échantillon épidémiologique au Royaume Uni, un score SDQ anormal était prédictif d'un risque substantiellement accru de troubles psychiatriques [44].

Afin d'éviter des différences marquées d'échelle entre variables, nous utiliserons un score SDQ_N normalisé, c'est-à-dire centré et réduit :

$$SDQ_N = [SDQ - \text{moyenne}(SDQ)] / \text{écart-type}(SDQ).$$

Stress parental

Le stress des parents est évalué à l'aide de l'index de stress parental dans sa version courte, Parenting Stress Index Short Form (PSI-SF, abrégé en PSI dans la suite) [45]. Le score total de stress parental est calculé à partir de 36 questions réparties sur trois domaines :

1. Détresse parentale
2. Dysfonction dans la relation parent-enfant
3. Enfant difficile.

La réponse à chaque question est donnée sur 5 niveaux allant de « tout à fait d'accord » à « pas du tout d'accord ». Le score PSI-SF total prend des valeurs allant de 36 à 180, un score élevé indique un niveau de stress plus important. Sur un échantillon en population générale constitué de 800 mères Américaines d'enfants en âge pré-scolaire, le score total PSI-SF était en moyenne de 71.0 +/- 15.4. Sur cet échantillon, le 90^{ème} percentile du score était à 90, seuil considéré à risque et au-delà duquel un suivi psychologique du parent pouvait être recommandé [45].

De même que pour le score SDQ_N, nous utiliserons un score PSI_N centré et réduit :

$$\text{PSI}_N = [\text{PSI} - \text{moyenne}(\text{PSI})] / \text{écart-type}(\text{PSI}).$$

Variables d'ajustement

L'effet des déterminants de la participation à l'adolescence sera ajusté sur le centre, le sexe et l'âge de l'adolescent au moment de l'enquête.

Analyse statistique par modèles d'équations structurelles

L'analyse s'appuie sur le cadre statistique unificateur des modèles d'équations structurelles (MES). Les MES proposent en effet une généralisation de la régression multiple, et intègrent dans un même modèle deux concepts nous intéressant tout particulièrement, et que nous détaillons ci-après [46, p.7-9]:

- On représente par des variables latentes des construits indirectement mesurés à travers les réponses aux items des questionnaires – ici les construits de participation et de déficience.
- On peut analyser simultanément plusieurs régressions formant des chemins de « causalité ». Grâce à cette analyse dite de chemins de médiation, on est en mesure d'étudier l'effet indirect d'un prédicteur sur une variable dépendante, à travers une variable intermédiaire.

Construits latents de participation et de déficience – modèle de mesurage

Principe de la modélisation par variables latentes

Si intuitivement, nous sommes capables de comprendre les concepts de participation ou de déficience, voire même de les ordonner grossièrement (reconnaître que telle personne aura plus de participation ou moins de déficiences que telle autre), nous sommes incapables de mesurer directement ces concepts, c'est à dire de leur affecter une quantité. Nous ne pouvons le faire qu'indirectement, à travers la mesure d'items qui les représentent. Dans un domaine d'activité et à un âge donné, nous considérons ainsi que la participation est un *construit latent* dont les *indicateurs* sont donnés par les réponses du parent ou de l'adolescent au questionnaire LIFE-H. Autrement dit, la participation est vue comme une quantité inconnue, située sur un continuum, et indirectement observée à travers le niveau de facilité d'accomplissement de chacune des activités du domaine.

Par exemple, dans le domaine des repas, la participation à l'enfance est représentée par une variable latente *Part*, indirectement observée à travers les niveaux de difficulté enregistrés sur quatre activités : une activité obligatoire, Y_1 = prendre les repas, codée sur deux niveaux {1=avec difficulté ; 2=sans difficulté}, et trois activités facultatives, Y_2 = choisir la nourriture, Y_3 = aider à préparer les repas, Y_4 = manger au restaurant, codées chacune sur trois niveaux {0=non, trop difficile ; 1=oui, avec difficulté ; 2=oui, sans difficulté}. La facilité d'accomplissement Y_j d'une activité j est donc une observation ordinale sur un faible nombre de catégories.

Une approche classique consisterait à approcher la participation d'un domaine par la simple somme ou moyenne des items d'activités. Mais nous ferions alors implicitement des hypothèses qui paraissent excessivement simplificatrices dans notre situation. D'une part, on

considérerait que les items ont un poids identique par rapport au concept mesuré ; par exemple, « choisir la nourriture » et « aider à préparer les repas » seraient également discriminants pour décrire le niveau de participation aux repas. D'autre part, on supposerait que les niveaux de réponse ordinaire sont équidistants ; par exemple, la différence séparant « non, trop difficile » de « oui, avec difficulté » serait identique à celle séparant « oui, avec difficulté » et « oui, sans difficulté ».

Il paraît préférable de spécifier explicitement la nature du lien entre la participation latente de l'adolescent/l'enfant et sa facilité à accomplir chaque activité, dans le *modèle de mesure*. L'étude de ce lien utilise des méthodes d'analyse factorielle [47]. Les fréquences des niveaux de facilité sont souvent fortement asymétriques du fait d'un effet plafond : pour de nombreuses activités, 60% à 80% des adolescents les accomplissent sans difficulté. En traitant les réponses Y_j comme des variables continues de type intervalle, on pourrait induire des biais de régression non négligeables. C'est pourquoi nous prendrons en compte la nature ordinaire des réponses, à travers un lien non-linéaire avec la participation latente [48].

Modèle de mesure pour des observations ordinaires

On modélise par un lien *probit ordonné* la distribution statistique de la facilité Y_j à accomplir une activité j , conditionnellement à la participation latente $Part$. Dans ce modèle, la probabilité d'accomplir l'activité j avec un niveau de facilité au moins égal à la catégorie $c \in \{0,1,2\}$ s'écrit comme une fonction croissante de la participation latente :

$$\Pr(Y_j \geq c \mid Part) = \Phi(\lambda_j \cdot Part - \tau_{jc}) \quad (1)$$

où Φ est la fonction de répartition de la loi normale centrée réduite (illustration en Figure 1). L'activité j est caractérisée par la pente λ_j et les seuils $(\tau_{j0}=-\infty, \tau_{j1}, \tau_{j2})$. Dans le cadre de la théorie des réponses aux items (Item Response Theory ou IRT), les paramètres λ_j et $(\tau_{j0}=-\infty, \tau_{j1}, \tau_{j2})$ s'interprètent respectivement comme la discrimination et la difficulté de réalisation de l'activité à ses différents niveaux. En effet, plus une activité a des seuils de difficulté τ_{jc} élevés, plus faible sera la probabilité (1) de l'accomplir au niveau de facilité c , pour un enfant ayant une participation latente $Part$ donnée (cf. Figure 1.a). De même, plus une activité a une discrimination λ_j élevée, plus la probabilité (1) de l'accomplir augmente rapidement avec le niveau de participation latente, et plus cette activité distinguera ainsi nettement les sujets ayant différents niveaux de participation (cf. Figure 1.b).

Un lien *logit* aurait pu être choisi à la place du lien probit entre la participation latente et les indicateurs d'activité. Cela reviendrait à remplacer la fonction de répartition $\phi(z)$ de la loi normale centrée réduite par la loi logistique $\text{Logistic}(z) = 1/(1+e^{-z})$. Le modèle de mesurage obtenu serait alors un modèle à cotes proportionnelles, qui se ramène à un modèle de Rasch dans le cas particulier où les différents items ont tous la même pente de difficulté $\lambda_j = 1$ [47]. Le choix d'un lien logit présenterait l'avantage d'interpréter sous la forme d'odds ratio ajustés les coefficients de régression de la participation latente sur ses variables explicatives [49]. Toutefois, les modèles basés sur un lien logit ne peuvent pas être estimés à l'aide de l'algorithme d'estimation par moindres carrés que nous avons retenu dans notre travail (voir plus loin le paragraphe sur l'estimation des paramètres du modèle), d'où notre choix du lien probit².

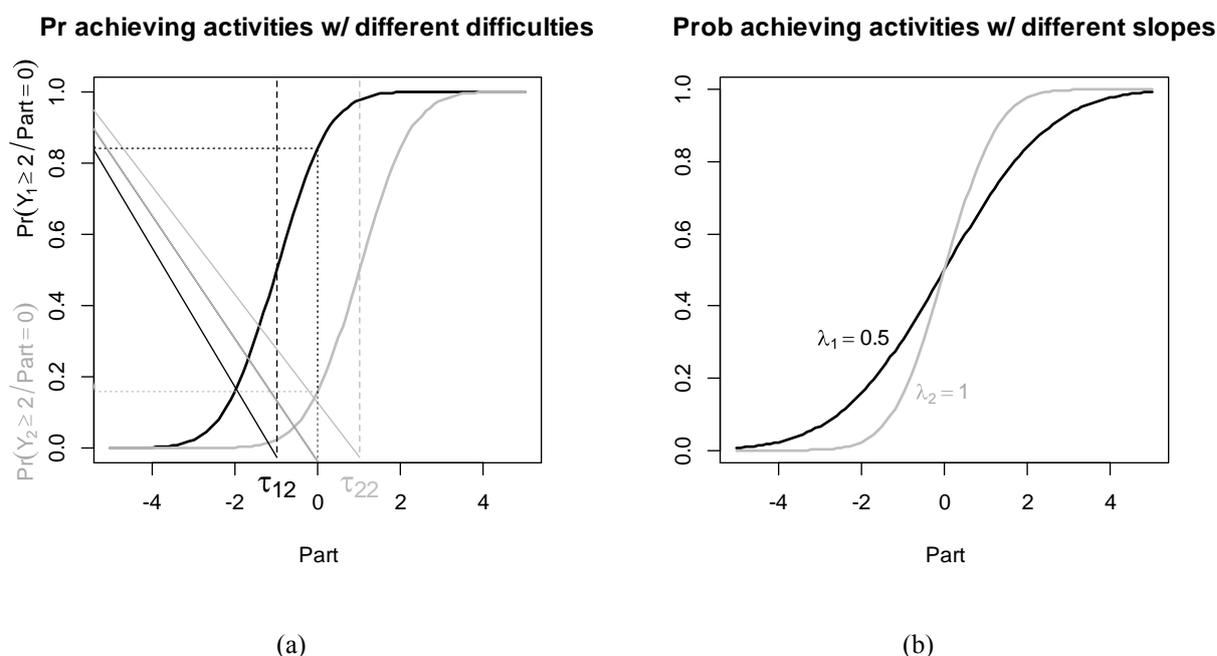


Figure 1. Probabilité d'accomplir une activité sans difficulté en fonction de la participation latente, dans le modèle probit ordonné, illustration par des exemples fictifs.

En (a), l'activité 2 est plus difficile que l'activité 1 : $\tau_{22} = +1 > \tau_{12} = -1$. Un enfant ayant une participation latente de 0 a une probabilité de 0.16 (resp. 0.84) d'accomplir les activités 2 (resp. 1) sans difficulté. En (b), l'activité 2 est plus discriminante que l'activité 1 : $\lambda_2 = 1 > \lambda_1 = 0.5$.

Comme une variable latente continue n'a pas d'échelle définie, le modèle qui l'intègre doit fixer un paramètre pour être identifiable – c'est-à-dire pour que les paramètres inconnus

² En pratique, les deux lois sont très proches à un facteur d'échelle près : $\text{Logistic}(1.701 z) = \phi(z) \pm 0.01$, et les modèles obtenus sont très proches en utilisant l'un ou l'autre lien.

puissent être estimés à partir des observations. Nous retiendrons le choix usuel de fixer la pente d'un des indicateurs observés, typiquement $\lambda_1=1$.

Participation et déficience latentes à l'enfance et à l'adolescence

Dans un domaine donné, la participation à l'enfance et la participation à l'adolescence sont donc modélisées comme deux variables latentes continues $Part_{(1)}$ et $Part_{(2)}$ (cf. Figure 2a). Ces deux variables latentes sont définies à partir des mêmes activités enregistrées à deux moments différents.

Pouvons-nous faire l'hypothèse d'un modèle de mesurage invariant dans le temps, qui consisterait à supposer que les activités ont les mêmes pentes et seuils de difficulté à l'enfance et à l'adolescence ? Dans notre situation, le modèle de mesurage ne peut pas être considéré comme invariant, pour deux raisons :

- les activités obligatoires sont codées sur trois niveaux à l'adolescence au lieu de deux à l'enfance ;
- à l'adolescence, on renseigne la facilité de participation à une activité sans désormais demander le niveau d'assistance technique ou humaine mobilisé ; de ce fait, il est raisonnable de supposer que le répondant perçoit différemment la question posée.

Nous supposerons par ailleurs que les différentes déficiences reflètent un construit latent de déficience globale. Cette hypothèse simplificatrice est fondée sur le constat que les déficiences sont souvent associées chez les enfants avec paralysie cérébrale [50]. Les déficiences individuelles sont des observations ordinales sur deux à cinq niveaux, avec présence d'effets de seuil. Aussi modéliserons-nous également par un lien probit ordonné la distribution des déficiences conditionnellement à la déficience latente globale. Les déficiences étant susceptibles d'évoluer dans le temps, nous prévoyons de modéliser une variable latente de déficience distincte à l'enfance et à l'adolescence, $Déficience_{(1)}$ et $Déficience_{(2)}$ (Figure 2b).

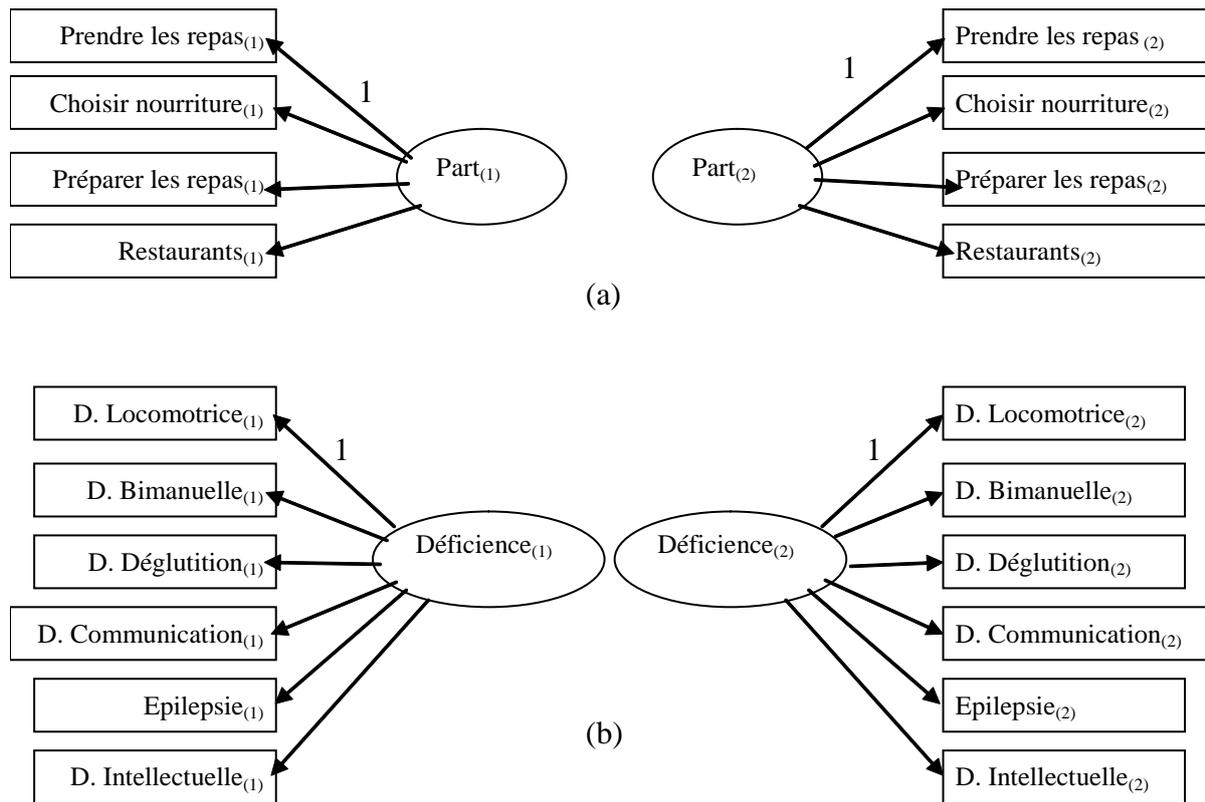


Figure 2. Modèle de mesure : variables latentes de participation (a) et de déficience (b). Exemple du domaine d'activité des repas.

Les variables latentes sont représentées par des ellipses, les variables observées par des rectangles.

Réponses continues sous-jacentes et corrélations polychoriques

Le modèle probit ordonné équivaut à supposer que chaque réponse ordinaire Y_j résulte du seuillage d'une variable de réponse continue Y_j^* sous-jacente à Y_j [51] selon la règle :

$$Y_j = c \text{ si } \tau_{jc} < Y_j^* < \tau_{j(c+1)}$$

La variable latente sous-jacente de réponse Y_j^* est reliée à la participation latente par :

$$Y_j^* = \lambda_j \cdot \text{Part} + E_j$$

où E_j est un terme de perturbation indépendant de Part : E_j modélise l'erreur de mesurage de l'activité j sous la forme de fluctuations de la réponse Y_j qui seraient indépendantes de la participation latente. Dans le modèle probit ordonné, la perturbation E_j a une distribution normale centrée $N(0, \theta_j)$.

Le concept de variable de réponse continue sous-jacente est à la base du calcul de la matrice de *corrélacion polychorique* entre variables ordinales, utilisée dans les méthodes d'estimation d'un MES. La corrélation polychorique entre deux variables ordinales Y_1 et Y_2 se définit comme la corrélation ρ entre les variables normales sous-jacentes Y_1^* et Y_2^* ; la corrélation ρ est calculée conjointement avec les seuils τ_{1c} et τ_{2c} de façon à prédire au mieux la table de contingence observée constituée par les fréquences des paires (Y_1, Y_2) dans l'échantillon [52], [53]. On peut de même calculer la *corrélacion polysérielle* entre une variable continue X et une variable ordinale Y , comme la corrélation entre X et une variable normale Y^* sous-jacente à Y [54].

Chemins de médiation des facteurs de l'enfance – modèle structurel

Dans ce travail, nous faisons l'hypothèse que les facteurs de l'enfance (douleur, problèmes psycho-comportementaux et stress parental) sont susceptibles d'affecter la participation à l'adolescence. D'autres variables sont prises en compte en raison de leur corrélation potentielle avec la participation adolescente : les mêmes facteurs à l'adolescence, la participation à l'enfance, la déficience, l'effet du centre, le sexe et l'âge. La modélisation par équations structurelles permet de spécifier de façon simultanée la nature des liens supposés exister entre toutes les variables observées et latentes ; ces liens constituent le modèle dit structurel, et complètent le modèle de mesurage décrit plus haut. Le lien entre deux variables X et Y peut être un effet directionnel, par exemple $X \rightarrow Y$ lorsqu'on suppose que X a un effet sur Y , ou une corrélation, comme $X \leftrightarrow Y$ lorsqu'on ne fait aucune hypothèse sur la direction de l'effet entre X et Y . En l'absence de lien spécifié entre X et Y , on suppose implicitement que X et Y n'ont pas de corrélation résiduelle, autrement dit que les covariations de X et Y sont entièrement expliquées par les autres liens du modèle.

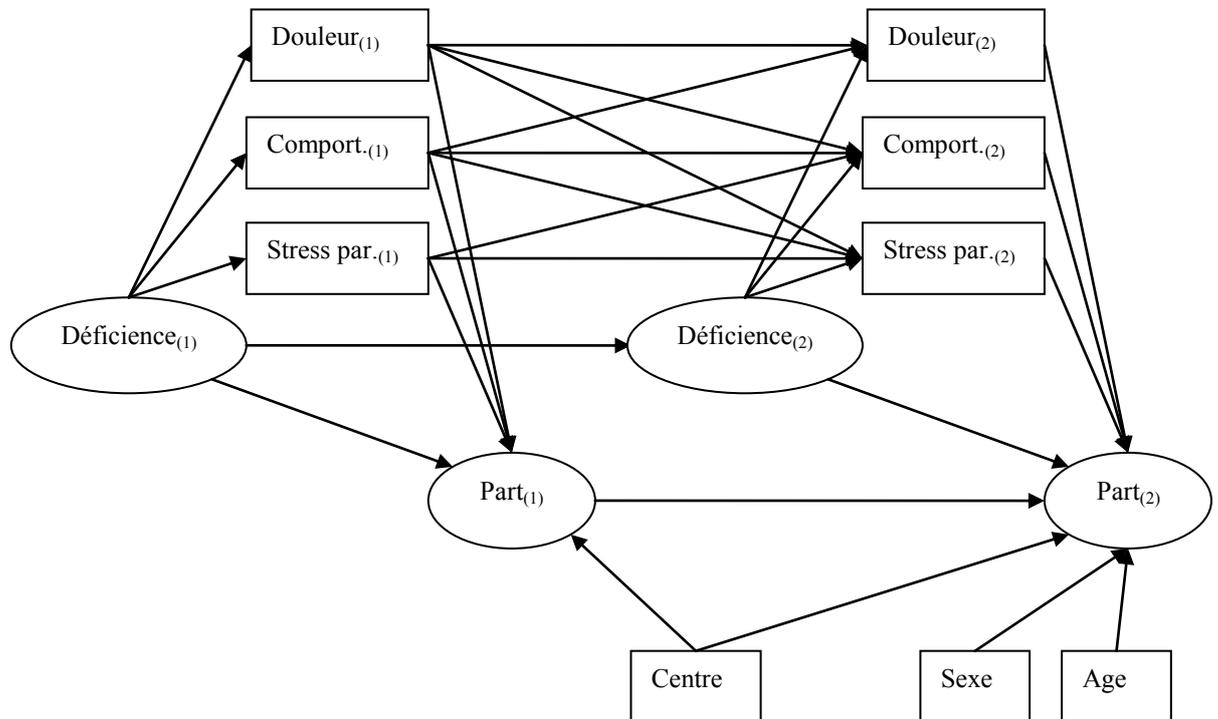
Modèle structurel complet reliant les variables de l'enfance et de l'adolescence

Nous supposons que les liens suivants peuvent a priori exister (cf. Figure 3) :

- La participation latente à l'adolescence est influencée par :
 - o la participation latente à l'enfance ; il s'agit de l'effet autorégressif représentant la part de la participation qui reste stable dans le temps [55]

- les facteurs co-occurents observés à l'adolescence : la douleur, les problèmes comportementaux et le stress parental, ainsi que la déficience latente
- l'effet centre, qui est supposé inclure la politique publique et l'attitude sociétale locales
- le sexe et l'âge au moment de l'enquête.
- La participation à l'enfance est influencée par :
 - les facteurs co-occurents observés à l'enfance : douleur, problèmes comportementaux, stress parental, et déficience latente
 - l'effet centre.
- Douleur, problèmes comportementaux et stress parental sont influencés par la déficience co-occurente.
- Douleur, problèmes comportementaux et stress parental à l'adolescence sont influencés par les mêmes facteurs à l'enfance, avec la possibilité d'influences croisées, par exemple de la douleur à l'enfance sur le stress parental à l'adolescence.

Figure 3. Modèle structurel a priori complet, spécifiant les liens entre participation et facteurs contextuels à l'enfance et à l'adolescence dans un domaine d'activité donné.

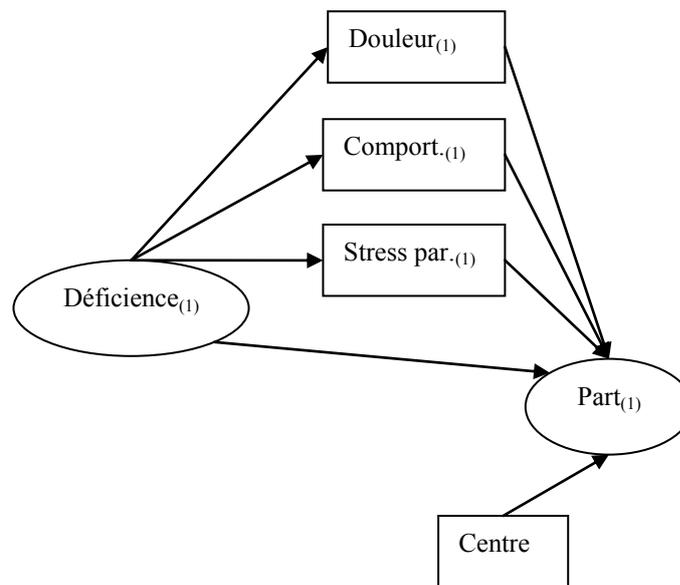


Par souci de lisibilité, le diagramme représente les variables latentes en omettant les indicateurs observés qui y sont associés.

Sous-modèle structurel restreint à l'enfance

Une analyse préalable portera sur le sous-modèle de la Figure 4, restreint aux variables de l'enfance. Cette analyse préalable permettra de distinguer, dans chaque domaine d'activité, quels facteurs contextuels sont significativement associés à la participation de l'enfant. Seuls les liens significatifs à l'enfance seront conservés dans le modèle complet de la Figure 3.

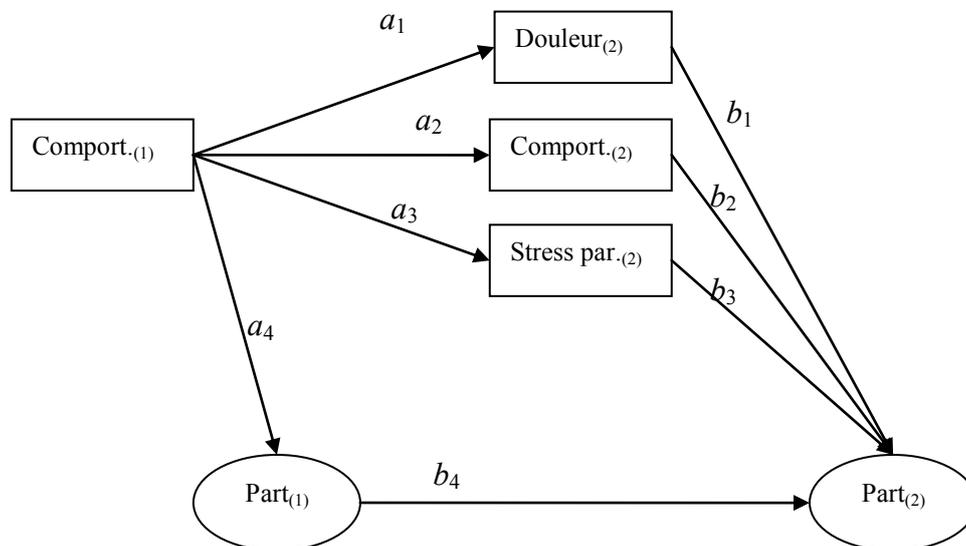
Figure 4. Sous-modèle structurel a priori, restreint aux variables de l'enfance dans un domaine d'activité donné.



Principe de l'analyse de médiations

Une fois que les liens du modèle structurel sont spécifiés, on peut estimer les effets directs et indirects d'une variable indépendante sur une variable dépendante par une analyse dite de chemins causaux (*path analysis*). Ainsi, dans le modèle de la Figure 3 chacun des facteurs modifiables de l'enfance (douleur, problèmes comportementaux et stress parental) est lié de façon indirecte à la participation adolescente à travers son effet à la fois sur la participation à l'enfance et sur les mêmes facteurs à l'adolescence.

Figure 5. Analyse de médiations. Exemple de l'effet indirect des troubles psycho-comportementaux de l'enfance sur la participation à l'adolescence.



Par exemple, les troubles psycho-comportementaux de l'enfance peuvent affecter la participation adolescente à travers les quatre variables médiatrices illustrées dans la Figure 5. On définit l'*effet indirect partiel* des troubles psycho-comportementaux de l'enfance via la douleur à l'adolescence, comme le produit des effets directs le long de ce chemin causal :

$$EI_{\text{douleur}(2)} = a_1 b_1. \quad (2)$$

La significativité statistique de cet effet indirect est obtenue grâce à sa variance, qu'on peut estimer par la méthode de Sobel [56] :

$$Var [EI_{\text{douleur}(2)}] = a_1^2 Var [a_1] + b_1^2 Var [b_1].$$

Le rapport $\frac{EI_{\text{douleur}(2)}}{\sqrt{Var [EI_{\text{douleur}(2)}]}}$ s'interprète comme un z-score de distribution normale centrée réduite sous l'hypothèse d'une absence d'effet. L'effet indirect partiel est considéré comme significatif si ce rapport dépasse en valeur absolue 1.96, le seuil critique de $p=0.05$ de la distribution normale centrée réduite.

L'effet indirect total via l'ensemble des médiateurs est la somme des effets indirects individuels :

$$EI_{\text{total}} = a_1 b_1 + a_2 b_2 + a_3 b_3 + a_4 b_4 \quad (3)$$

et sa variance se calcule comme une combinaison des variances des coefficients individuels et de leurs covariances [57]. A partir de cette variance, on obtient de même un z-score indiquant la significativité statistique de l'effet indirect total des troubles psycho-comportementaux de l'enfance sur la participation à l'adolescence.

Etapes de l'analyse par modèles d'équation structurelles

L'analyse d'un modèle d'équations structurelles nécessite de valider différentes étapes, résumées ci-après. Pour plus de détails, le lecteur pourra se référer par exemple à l'ouvrage de Kline [46].

Spécification des variables et des liens

Nous avons spécifié précédemment les variables et les liens supposés exister entre elles (Figure 2 et Figure 3). Nous supposons de plus que, parmi la douleur, les problèmes comportementaux ou le stress parental, seuls certains de ces facteurs contextuels affectent de façon indépendante la participation co-occurrence d'un domaine d'activité donné. Par exemple, nous estimons possible qu'après ajustement sur un niveau de douleur donné, la participation des enfants dans le domaine des soins personnels ne soit pas affectée de façon indépendante par les problèmes comportementaux de l'enfance, mais qu'elle puisse l'être pour la participation à la vie sociale. Afin de prévoir une telle éventualité, nous intégrerons les facteurs contextuels en tant que prédicteurs de la participation co-occurrence à l'aide d'une procédure de régression hiérarchique ascendante. L'objectif est de conserver un modèle aussi parcimonieux que possible.

Le modèle est-il identifié ?

Après avoir spécifié un MES, une première étape de validation consiste à vérifier qu'il est théoriquement identifié : les paramètres inconnus du modèle doivent pouvoir être estimés à partir des observations disponibles. Les paramètres du modèle comportent les pentes de discrimination et les seuils de difficulté du modèle de mesurage, ainsi que les coefficients de régression reliant les différentes variables entre elles. Les observations sont les éléments de la matrice de corrélation empirique de l'échantillon ; il s'agit ici de la matrice des corrélations polychoriques et polysérielles car certaines variables sont ordinales. On utilise les règles

heuristiques d'identification rappelées dans [46]. Le modèle spécifié par les Figure 2 et Figure 3 est un modèle de régression structurelle qui est identifié car :

- la partie de mesurage est un modèle d'analyse factorielle confirmatoire standard³, consistant en au moins deux facteurs, comportant chacun au moins deux indicateurs
- la partie structurelle est dite réursive, c'est-à-dire qu'elle ne comporte pas de boucle de rétroaction ; par exemple, la Figure 3 ne modélise pas d'effet réciproque de Part₍₁₎ vers Déficience₍₁₎.

Estimation des paramètres par moindres carrés pondérés

Les paramètres d'un MES peuvent être estimés par différentes approches, relevant soit du maximum de vraisemblance, soit des moindres carrés généralisés. Nous avons choisi d'estimer le modèle par un algorithme des moindres carrés pondérés (*Weighted Least Squares* ou WLS), principalement en raison de la faisabilité calculatoire de cette procédure. Les approches par maximum de vraisemblance requièrent en effet une intégration numérique sur autant de dimensions que de variables latentes ; cette intégration s'avère très coûteuse pour notre modèle comportant quatre variables latentes dans chacun des onze domaines d'activité.

On note \mathbf{s} le vecteur des moments empiriques de l'échantillon (moyennes, variances-covariances, ainsi que seuils et corrélations polychoriques et polysérielles quand certaines variables sont ordinales), $\boldsymbol{\sigma}(\boldsymbol{\theta})$ les moments prédits par le modèle, $\boldsymbol{\theta}$ les paramètres du modèle à estimer, c'est-à-dire les coefficients de régression, les corrélations libres et les pentes de discrimination des indicateurs. Le principe de l'estimation par moindres carrés pondérés consiste à rechercher les paramètres $\boldsymbol{\theta}$ du modèle minimisant l'écart entre les moments empiriques et ceux prédits par le modèle. Cet écart s'écrit dans le cas général :

$$F_{\text{WLS}}(\boldsymbol{\theta}) = (\mathbf{s} - \boldsymbol{\sigma}(\boldsymbol{\theta}))' \mathbf{W}^{-1} (\mathbf{s} - \boldsymbol{\sigma}(\boldsymbol{\theta})). \quad (4)$$

Le choix de la matrice de poids \mathbf{W} donne lieu à différentes variantes de la procédure d'estimation. La recherche des paramètres $\boldsymbol{\theta}$ minimisant (4) procède par optimisation itérative à partir d'une solution initiale $\boldsymbol{\theta}_0$.

³ Un modèle d'analyse factorielle confirmatoire est dit standard quand les facteurs latents ne partagent pas d'item commun.

La méthode d'estimation retenue est une variante robuste des moindres carrés pondérés, où le critère minimisé fait appel à une matrice de poids \mathbf{W} diagonale rendant l'estimation plus stable pour des échantillons de taille modérée de l'ordre de $N=200$ à 1000 [58]. Cette méthode robuste des moindres carrés pondérés permet de calculer des critères d'ajustement du modèle, après correction du χ^2 et des degrés de liberté par des facteurs impliquant les moyennes et les variances des paramètres, d'où sa dénomination de Mean and Variance-Adjusted Weighted Least Squares (WLSMV). Sur des données simulées, la méthode WLSMV donne des résultats comparables à une estimation par maximum de vraisemblance lorsque l'échantillon est de taille suffisante et que les distributions des observations ont une asymétrie modérée [59].

La procédure d'estimation peut échouer par absence de convergence ou déboucher sur des solutions impropres, par exemple comportant des corrélations supérieures à 1 ou des variances négatives. De telles anomalies dans les résultats doivent amener à rechercher des causes, notamment parmi :

- une non-identification théorique du modèle qui n'aurait pas été détectée à l'étape précédente
- une sous-identification empirique due à une dépendance linéaire quasi-parfaite entre certaines variables
- une corrélation élevée mais non prise en compte, entre des indicateurs de différentes variables latentes.

Données manquantes : l'absence peut dépendre des covariables observées

Les données manquantes sont prises en compte en supprimant les cas par paire de variables (*pairwise deletion*), c'est-à-dire qu'une statistique bivariée est calculée à partir de tous les individus ayant des valeurs présentes sur les deux variables concernées. Cette stratégie est utilisée par la méthode d'estimation par moindres carrés pondérés WLSMV. La méthode WLSMV avec suppression par paire donne des estimateurs consistants sous l'hypothèse que l'absence de données ne peut dépendre que des covariables observées [60]. Autrement dit, conditionnellement aux variables explicatives observées, on suppose que l'absence de données sur des variables expliquées est indépendante à la fois des variables expliquées non observées et des variables expliquées observées. Par exemple, dans le sous-modèle de la

Figure 4, connaissant les covariables de douleur, troubles psycho-comportementaux et stress parental, l'absence de réponse à un item de participation est supposée indépendante à la fois de la valeur de la réponse non observée et des réponses observées sur les autres items.

Indices d'ajustement global d'un modèle aux données : χ^2 , RMSEA, CFI, TLI.

Pour évaluer la qualité du modèle estimé, une approche statistique usuelle consiste à calculer un χ^2 d'ajustement aux données à partir de l'écart entre les moments empiriques et théoriques prédits par le modèle. On rejette le modèle si le χ^2 empirique dépasse le seuil critique à $p=0.05$ du χ^2 théorique pour le nombre de degrés de liberté du modèle. Cependant, dans le cas des modèles d'équations structurelles, ce principe conduit souvent à rejeter systématiquement le modèle du fait de l'écart fréquent des données avec l'hypothèse de multi-normalité des variables. Différents indices approchés ont été proposés afin de surmonter cette difficulté, et donner une idée de l'acceptabilité du modèle étudié.

Un indice souvent rapporté est la racine carrée de la moyenne des erreurs d'approximation (*Root Mean Square Error Of Approximation* ou RMSEA). Basé sur un rapport entre le χ^2 et le nombre de degrés de liberté, le RMSEA favorise les modèles parcimonieux. La plage de ses valeurs possibles est $[0 ; +\infty[$. Un modèle est d'autant mieux ajusté aux données que le RMSEA est proche de zéro. Aucun seuil de RMSEA n'est universellement admis pour accepter un modèle, mais à partir de données simulées, il a été suggéré de considérer l'ajustement d'un modèle comme respectivement excellent, bon ou médiocre lorsque son RMSEA est inférieur à 0.01, 0.05 ou 0.08, ou inacceptable quand $\text{RMSEA} > 0.10$ [61]. Le RMSEA permet de calculer un intervalle de confiance, par exemple à 0.90, car il suit une distribution non centrale du χ^2 .

Nous rapporterons également un indice d'ajustement dit incrémental fréquemment utilisé : le Comparative Fit Index (CFI). Le CFI compare l'ajustement du modèle à un modèle hypothétique d'indépendance complète, où les corrélations entre variables observées seraient toutes nulles. Le CFI a une étendue de valeurs égale à $[0 ; 1]$, et le modèle est considéré offrir un ajustement acceptable lorsque $\text{CFI} > 0.95$ [62].

Ajustement relatif entre modèles et régression hiérarchique

Nous sommes amenés à comparer des modèles emboîtés $M_0 \subset M_1$, en particulier pour tester des régressions hiérarchiques. Par exemple, lorsque nous voulons tester l'hypothèse d'un effet des problèmes comportementaux notés x_2 , sur la participation, y , indépendamment de l'effet de la douleur x_1 , on a :

$$M_1 : y = \beta_1 \cdot x_1 + \beta_2 \cdot x_2 + \varepsilon$$

$$M_0 : y = \beta_1 \cdot x_1 + 0 \cdot x_2 + \varepsilon \text{ (contrainte } \beta_2=0\text{)}.$$

Comme le modèle M_1 est moins contraint, son estimation \hat{M}_1 a un écart aux données forcément plus faible que le modèle estimé \hat{M}_0 , car la fonction d'écart (4) se trouve minimisée sur un espace de paramètres plus large. En régression hiérarchique traditionnelle, cela se traduirait par $\chi^2(\hat{M}_1) < \chi^2(\hat{M}_0)$; la différence $\Delta\chi^2 = \chi^2(\hat{M}_0) - \chi^2(\hat{M}_1)$ suit une loi du χ^2 avec $d.d.l.(\Delta\chi^2) = d.d.l.(\hat{M}_0) - d.d.l.(\hat{M}_1)$ sous l'hypothèse $M_0=M_1$; le test classique du rapport de vraisemblance rejetterait alors M_0 en faveur de M_1 si l'amélioration observée $\Delta\chi^2$ était supérieure au seuil critique d'un χ^2 à $d.d.l.(\Delta\chi^2)$ degrés de liberté, à $p=0.05$ par exemple.

Dans le cas où le modèle est estimé par l'algorithme WLSMV, on compare des modèles emboîtés $M_0 \subset M_1$ à l'aide d'une procédure similaire à celle décrite ci-dessus. Une modification doit y être apportée, car le χ^2 d'ajustement et ses degrés de libertés d sont calculés après correction par des facteurs faisant intervenir moyennes et variances des paramètres estimés [63], [64].

Modifications du modèle

Si le modèle obtenu est associé à de mauvais indices d'ajustement aux données, il convient d'en rechercher les causes avant d'interpréter les résultats d'estimation, et proposer si besoin des modifications du modèle initial.

L'examen des indices de modification fournit une aide pour comprendre les écarts entre le modèle et les données. Chaque indice suggère de quelle quantité on améliorerait l'écart du χ^2 si on relâchait une contrainte du modèle, c'est-à-dire si on laissait librement estimer un lien directionnel ou de corrélation entre deux variables. Les modifications ainsi suggérées ne doivent être intégrées au modèle que si elles ont une signification substantive au regard de la théorie du domaine d'application [65].

Une autre procédure diagnostique consiste à examiner les résidus de corrélation, c'est-à-dire les écarts entre les corrélations observées et celles prédites par le modèle. Une règle heuristique communément admise consiste à investiguer tout résidu de corrélation dont la valeur absolue dépasse 0.10 [46].

Interprétation des résultats

Pour répondre à notre question de recherche, nous nous intéresserons aux coefficients de régression du modèle structurel. Dans chaque domaine d'activité, nous examinerons les effets directs des variables explicatives sur la participation à l'enfance et la participation à l'adolescence, sous la forme des coefficients de régression non standardisés avec leur significativité statistique. Contrairement à leur version standardisée, les coefficients de régression non standardisés permettent de comparer les effets entre études appliquant des modèles comparables à des données différentes. Nous évaluerons enfin l'effet des déterminants de l'enfance sur la participation adolescente à l'aide des effets indirects partiels et totaux, selon les formules (2) et (3), standardisés afin de comparer leur importance relative.

Modèles équivalents

La modélisation par équations structurelles est parfois qualifiée de causale en raison de la possibilité d'analyser des chemins de causalité. En fait, la causalité ainsi étudiée résulte des hypothèses faites en construisant le modèle. Le cadre de la MES ne permet généralement pas en lui-même de déduire des données la direction des effets entre les variables observées. En inversant les directions des effets ou en les remplaçant par des corrélations non analysées, on obtient des modèles équivalents dont l'ajustement aux données est théoriquement identique au modèle de départ [66]. Nous discuterons les modèles équivalents qui auraient pu être envisagés pour expliquer les liens observés entre les variables.

Logiciels utilisés

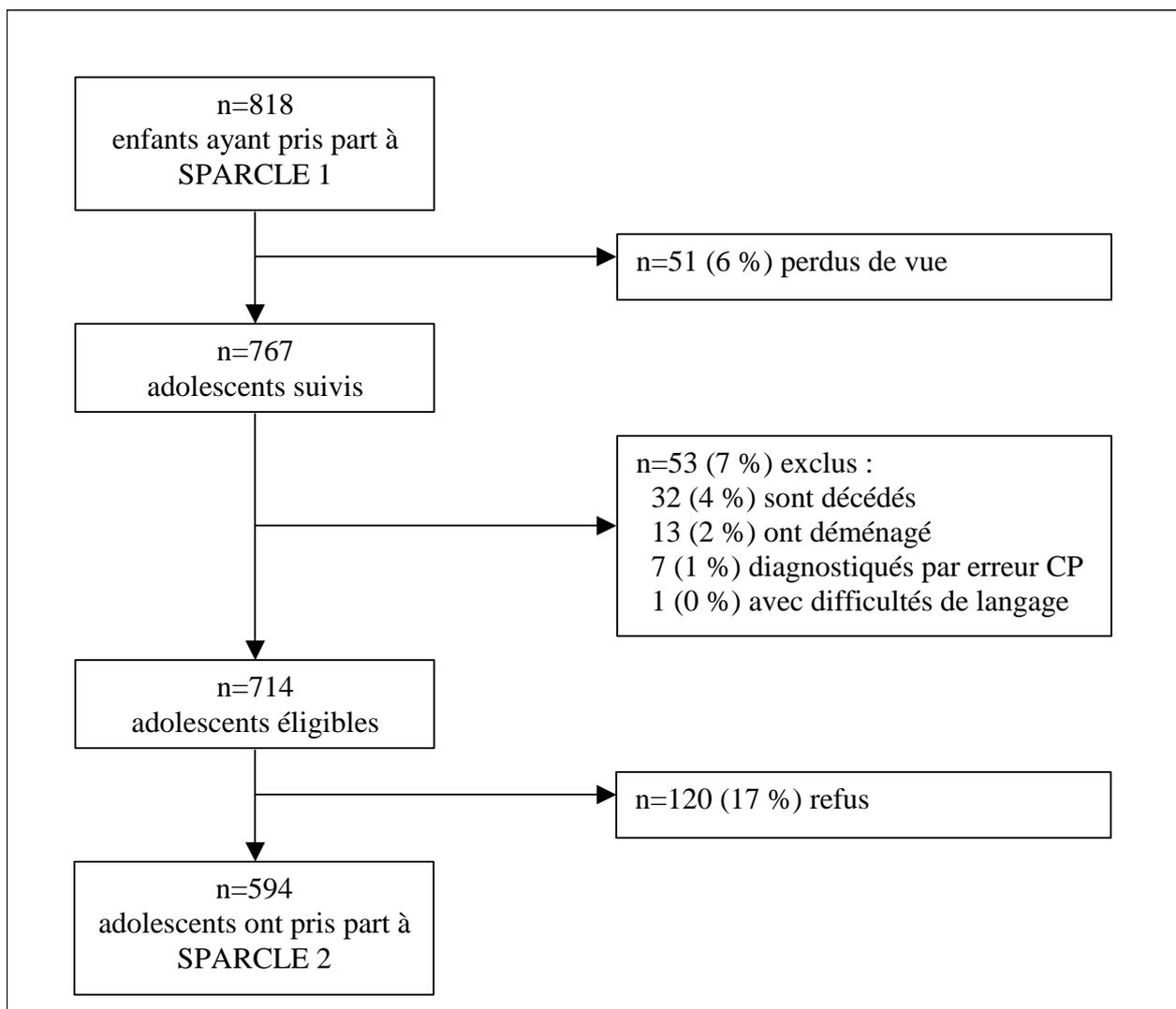
Pour estimer les paramètres des modèles d'équations structurelles, nous avons utilisé le logiciel Mplus dans sa version 6.12 [49]. Le logiciel open source R, version 2.15.0 a servi à mettre en forme les données, obtenir les statistiques descriptives, mener les procédures de régression hiérarchique, et présenter les résultats.

RESULTATS

Nombre de répondants

Sur les 818 enfants ayant pris part à l'enquête SPARCLE 1, 224 n'ont pas participé à SPARCLE 2, soit un taux d'attrition global de $224/818=27\%$ (cf. Figure 6).

Figure 6. Flux des participants éligibles et inclus dans l'étude SPARCLE 2.



L'attrition est étudiée en détail par ailleurs [67], nous en rappelons ici les principaux points. La trace de 51/818 (6%) des enfants a été perdue à l'adolescence. Parmi les 767 enfants suivis, 32 (4%) sont décédés ; en analyse multivariée, le risque de décès est augmenté chez les

enfants qui présentaient dans SPARCLE 1 des troubles sévères de déglutition requérant une nutrition entérale, et un déficit intellectuel sévère. Les autres motifs d'exclusion à l'adolescence étaient un déménagement hors de la région d'étude (2%), un diagnostic de paralysie cérébrale porté par erreur à l'enfance et corrigé entretemps (1%), et des difficultés de langage pour une famille. Parmi les 714 familles d'adolescents éligibles au suivi longitudinal, 120/714 (17%) ont refusé de participer. Le refus était plus fréquent chez les parents ayant un niveau élevé de stress et un niveau d'étude moins élevé. Au total, n=594 adolescents ont constitué l'échantillon longitudinal de SPARCLE 2 étudié dans ce travail.

Description de l'échantillon

Caractéristiques socio-démographiques

Au moment de l'enquête SPARCLE 2, les adolescents avaient un âge moyen de 15,1 +/- 1,5 ans, au minimum 12,0 et au maximum 18,6 ans (cf. Tableau 3). Le ratio garçon/fille était de 1,38:1. Les effectifs des neuf centres variaient entre 41 et 85 participants.

Tableau 3. Caractéristiques socio-démographiques et répartition par centre de l'échantillon longitudinal SPARCLE 2 (n=594).

Age, moyenne (+/- écart-type)	15.1 (+/- 1.5)
Sexe féminin, n (%)	249 (42)
Centre	
Newcastle, n (%)	80 (13)
Gotenberg, n (%)	68 (11)
Belfast, n (%)	85 (14)
Grenoble, n (%)	50 (8)
Cork, n (%)	74 (12)
Copenhagen, n (%)	77 (13)
Viterbo, n (%)	41 (7)
Toulouse, n (%)	55 (9)
Lubeck, n (%)	64 (11)

Participation

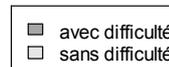
Les Tableau 4 et Tableau 5 détaillent la distribution marginale des réponses au questionnaire de participation LIFE-H à l'enfance et à l'adolescence, respectivement dans les domaines d'activités quotidienne et des rôles sociaux.

Tableau 4. Participation dans les domaines d'activités quotidiennes : distribution marginale de l'accomplissement des activités quotidiennes à l'enfance et à l'adolescence (n=594 sujets).

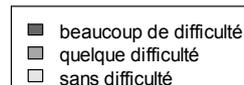
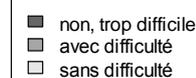
	Enfance			Adolescence		
	Distribution (%)	N/A n (%)	Manq. n (%)	Distribution (%)	N/A n (%)	Manq. n (%)
Repas	0 20 60 100			0 20 60 100		
Prendre repas*		-	0 (0)		-	1 (0)
Choisir nourriture		45 (8)	10 (2)		71 (12)	9 (2)
Préparer repas		121 (20)	3 (1)		162 (27)	5 (1)
Restaurants		20 (3)	4 (1)		24 (4)	3 (1)
Hygiène de santé	0 20 60 100			0 20 60 100		
Entrer/sortir du lit*		-	0 (0)		-	1 (0)
Bien dormir		9 (2)	15 (3)		0 (0)	13 (2)
Exercice physique		28 (5)	6 (1)		63 (11)	4 (1)
Activités de détente		18 (3)	5 (1)		32 (5)	2 (0)
Soins personnels	0 20 60 100			0 20 60 100		
Soins d'hygiène*		-	0 (0)		-	2 (0)
Toilettes domicile*		-	4 (1)		-	1 (0)
Toilettes extérieur*		-	9 (2)		-	1 (0)
Habiller le haut*		-	1 (0)		-	2 (0)
Habiller le bas*		-	2 (0)		-	2 (0)
Participer soins médic.*		-	9 (2)		-	5 (1)
Cabinet médic./Hôpital*		-	15 (3)		-	6 (1)
Aides techniques		144 (24)	6 (1)		157 (26)	5 (1)
Communication	0 20 60 100			0 20 60 100		
Communiquer <-> adulte		2 (0)	5 (1)		1 (0)	3 (1)
Communiquer <-> jeunes		4 (1)	5 (1)		5 (1)	3 (1)
Communiquer <-> groupe		4 (1)	5 (1)		8 (1)	3 (1)
Ecrire		10 (2)	1 (0)		47 (8)	6 (1)
Lire		2 (0)	6 (1)		6 (1)	3 (1)
Téléphone		25 (4)	5 (1)		12 (2)	5 (1)
Ordinateur		19 (3)	4 (1)		11 (2)	3 (1)
Audiovisuel		9 (2)	2 (0)		6 (1)	3 (1)
Vie domestique	0 20 60 100			0 20 60 100		
Entrer/sortir de maison*		-	2 (0)		-	2 (0)
Déplac. dans maison*		-	1 (0)		-	1 (0)
Travaux ménage		85 (14)	1 (0)		105 (18)	3 (1)
Travaux jardinage		154 (26)	0 (0)		191 (32)	5 (1)
Accessoires maison		1 (0)	5 (1)		6 (1)	5 (1)
Déplac. autour maison		6 (1)	3 (1)		11 (2)	5 (1)
Déplacements	0 20 60 100			0 20 60 100		
Déplac. trottoirs*		-	4 (1)		-	1 (0)
Surfaces glissantes		3 (1)	3 (1)		11 (2)	6 (1)
Vélo/roller loisir		24 (4)	3 (1)		75 (13)	4 (1)
Passager véhicule		5 (1)	3 (1)		3 (1)	4 (1)

Activités obligatoires (*)

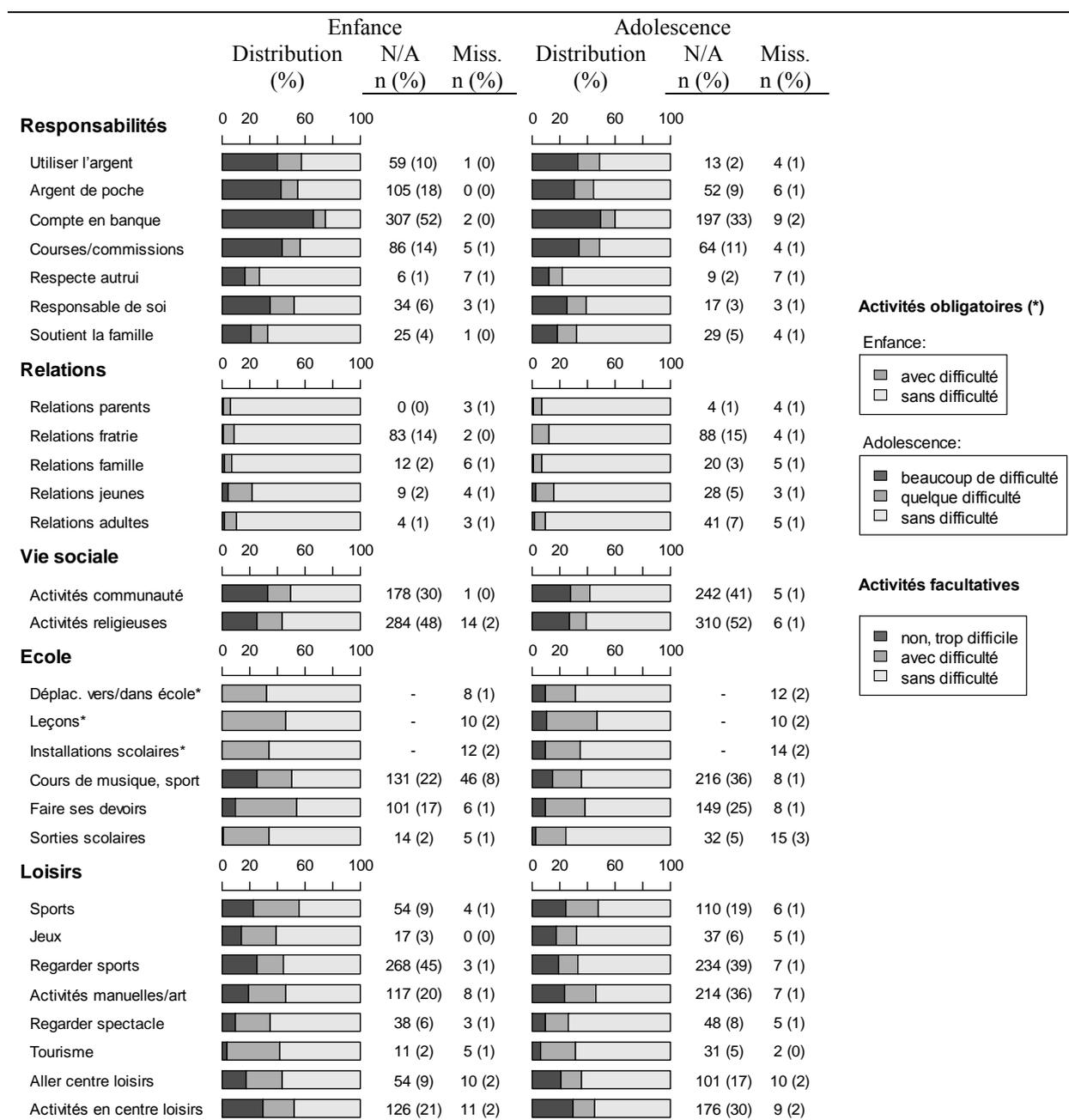
Enfance:



Adolescence:

**Activités facultatives**

*= activité obligatoire. Graphique de distribution : pourcentages des niveaux de facilité observés pour accomplir l'activité. Catégorie N/A = activité non accomplie car non applicable (activité facultative). Manq. = réponse manquante.

Tableau 5. Participation dans les domaines de rôles sociaux : distribution marginale de l'accomplissement des activités à l'enfance et à l'adolescence (n=594 sujets).

En dehors des activités extra-scolaires dans le domaine de l'école à l'enfance (« Classes »), le taux de non-réponse aux items de participation est resté constamment inférieur à 3%. Les activités facultatives étaient considérées comme non applicables par une proportion de sujets variant entre 0% (lecture à l'enfance, sommeil à l'adolescence) et 52% (gestion d'un compte bancaire à l'enfance, activités religieuses à l'adolescence) ; pour rappel, une activité est dite non applicable quand elle est considérée comme dépourvue d'intérêt par l'enfant/l'adolescent

ou bien inadaptée à son âge ; une telle réponse est traitée en donnée manquante dans l'analyse.

Le domaine de la vie sociale est décrit par seulement deux activités, qui ont enregistré une proportion élevée de réponses de non accomplissement car non applicables, chez respectivement 41% et 52% des adolescents dans les activités de groupe et religieuses ; ni l'une ni l'autre de ces activités n'était considérée applicable chez 26% des adolescents, avec des disparités majeures entre les centres. C'est pourquoi le domaine de la vie sociale n'a pas été analysé. Le même problème était constaté dans ce domaine pour les données de participation à l'enfance, et avait déjà été noté par les concepteurs du questionnaire LIFE-H [9].

La distribution des facilités de participation renseignées montre que les différentes activités avaient des difficultés d'accomplissement très variables. Le taux des adolescents accomplissant une activité sans difficulté variait ainsi de 31% (se déplacer sur des surfaces glissantes ou inégales) à 93% (entretenir une relation affectueuse avec ses parents) ; ceux n'accomplissant pas une activité en raison de sa difficulté représentaient une proportion allant de 0.3% (entretenir une relation affectueuse avec les membres de sa famille vivant au domicile autres que ses parents) à 49% (gestion d'un compte en banque).

Pour la plupart des activités, la fréquence des niveaux d'accomplissement était stable entre l'enfance et l'adolescence. On constate une modification de la distribution des facilités de participation entre l'enfance et l'adolescence pour 20 activités, en comparant ces distributions par un test du χ^2 au seuil $p=0.05$ (dans le cas d'une activité obligatoire, on a fusionné à l'adolescence les catégories « accomplie avec un peu de difficulté » et « avec beaucoup de difficulté » afin de rendre comparables les distributions à l'enfance et l'adolescence). Quand on examine le taux de non accomplissement en raison de la difficulté ou le taux d'accomplissement sans difficulté, la difficulté globale a augmenté pour trois activités : utilisation d'équipement audiovisuel (non accomplie en raison de la difficulté chez 4% des enfants et 10% des adolescents), déplacements autour de la maison (non accomplissement passant de 7 à 13%), utilisation d'une bicyclette, roller etc. (non accomplissement passant de 20 à 27%). A l'inverse, la difficulté globale a diminué pour quinze activités : exercice physique, installation des aides techniques, écriture, être passager de moyens de transport, gestion d'argent de poche, gestion d'un compte en banque, courses, responsabilité de ses

propres affaires, activités extra-scolaires, sorties scolaires, pratique sportive, assister à des événements sportifs, ou artistiques, tourisme.

Déficiences

Les déficiences ont été enregistrées avec peu de données manquantes (entre 0 et 6/594, cf. Tableau 6). Leur distribution était asymétrique avec effet de seuil. Le plus faible niveau de déficience était en effet le plus fréquemment observé, représentant à l'adolescence (respectivement à l'enfance) : 34% (30%) en locomotion, 35% (34%) en habileté bimanuelle, 71% (72%) pour l'épilepsie, 76% (72) en déglutition, 59% (57%) en communication, 46% (49%) en cognition. Rappelons que le plus faible niveau n'équivaut pas à une absence de déficience ; par exemple, un enfant ou un adolescent avec paralysie cérébrale qui a une déficience locomotrice de niveau I peut marcher dehors et emprunter les escaliers, mais n'est pas forcément capable de maintenir un appui unipodal prolongé. Les déficiences auditives et visuelles avaient une prévalence trop faible pour être exploitées (respectivement 3% et 8% à l'adolescence), et ont été exclues de l'analyse.

Tableau 6. Déficiences, distribution univariée à l'enfance et à l'adolescence.

	Enfance	Adolescence
Capacité locomotrice de la classification GMFCS		
L'enfant marche et emprunte les escaliers, n (%)	176 (30)	204 (34)
L'enfant marche à l'intérieur, n (%)	132 (22)	105 (18)
L'enfant marche avec des limitations, n (%)	102 (17)	76 (13)
La mobilité est limitée et requiert une assistance physique aux déplacements, n (%)	85 (14)	78 (13)
La mobilité est sévèrement limitée ainsi que la station assise, n (%)	99 (17)	131 (22)
Manquant, n (%)	0 (0)	0 (0)
Habilité bimanuelle		
Sans limitation, n (%)	201 (34)	206 (35)
Deux mains limitées pour les gestes fins, ou une main ne peut que tenir, n (%)	162 (27)	136 (23)
L'enfant a besoin d'aide pour exécuter les tâches, n (%)	95 (16)	109 (18)
L'enfant a besoin d'aide et d'un appareillage adapté, n (%)	71 (12)	73 (12)
L'enfant a besoin d'assistance humaine totale, n (%)	65 (11)	67 (11)
Manquant, n (%)	0 (0)	3 (1)
Epilepsie		
Aucune crise et aucun traitement dans l'année écoulée, n (%)	427 (72)	418 (71)
Aucune crise et a été sous traitement dans l'année écoulée, n (%)	55 (9)	63 (11)
Moins d'une crise / mois dans l'année écoulée, n (%)	48 (8)	47 (8)
Plus d'une crise / mois et moins d'une crise / semaine dans l'année écoulée, n (%)	32 (5)	21 (4)
Plus d'une crise par semaine dans l'année écoulée, n (%)	32 (5)	39 (7)
Manquant, n (%)	0 (0)	6 (1)
Déglutition		
S'alimente par la bouche sans problèmes, n (%)	429 (72)	448 (76)
S'alimente par la bouche mais avec difficulté, n (%)	131 (22)	99 (17)
Alimentation partielle ou totale par sonde naso-gastrique ou de gastrotomie, n (%)	34 (6)	44 (7)
Manquant, n (%)	0 (0)	3 (1)
Communication		
Communication normale, n (%)	341 (57)	349 (59)
Des problèmes mais communique par la parole, n (%)	102 (17)	91 (15)
Utilise des méthodes alternatives formelles de communication, n (%)	73 (12)	77 (13)
Aucune communication formelle, n (%)	78 (13)	73 (12)
Manquant, n (%)	0 (0)	4 (1)
Cognition		
Déficience intellectuelle absente ou minime, n (%)	289 (49)	274 (46)
Déficience intellectuelle légère, n (%)	138 (23)	154 (26)
Déficience intellectuelle sévère, n (%)	162 (28)	165 (28)
Manquant, n (%)	5 (1)	1 (0)
Audition		
N'a pas besoin d'appareillage auditif, n (%)	583 (98)	575 (97)
A besoin d'appareillage. Perte profonde ou sévère >70 décibels, n (%)	10 (2)	18 (3)
Manquant, n (%)	1 (0)	1 (0)
Vision		
Capacité visuelle normale (fonctionnelle), n (%)	553 (93)	549 (92)
Aveugle ou capacité visuelle réduite (non fonctionnelle), n (%)	41 (7)	45 (8)
Manquant, n (%)	0 (0)	0 (0)

Les pourcentages des niveaux de déficience sont calculés sur les valeurs présentes.

Facteurs contextuels

La douleur au cours de la semaine précédente était renseignée pour 586/594 des enfants et des adolescents (1% de données manquantes, cf. Tableau 7). Aucune douleur n'était rapportée chez environ un tiers des enfants et des adolescents. Lorsque la douleur était présente, elle était rapportée comme étant survenue une ou deux fois ou quelquefois pour environ la moitié des sujets, et plus fréquemment que cela chez 18% des enfants et 26% des adolescents. Son intensité était rapportée comme étant très légère ou légère chez 45% des enfants mais seulement 36% des adolescents, et modérée, sévère ou très sévère chez 25% des enfants et 37% des adolescents.

Tableau 7. Douleur rapportée par les parents au cours de la semaine précédente, distribution univariée à l'enfance et l'adolescence. Codage initial sur 6 catégories et regroupement en 3 catégories.

Codage original 6 catégories	Enfance	Adolescence	Trois catégories	Enfance	Adolescence
Fréquence de douleur			Fréquence de douleur		
jamais, n (%)	174 (30)	158 (27)	jamais, n (%)	174 (30)	158 (27)
une ou deux fois, n (%)	143 (24)	147 (25)	une ou deux fois ou parfois, n (%)	308 (53)	276 (47)
parfois, n (%)	165 (28)	129 (22)			
assez souvent, n (%)	51 (9)	55 (9)	plus que parfois, n (%)	104 (18)	152 (26)
très souvent, n (%)	20 (3)	32 (5)			
(presque) tous les jours, n (%)	33 (6)	65 (11)	manquant, n (%)	8 (1)	8 (1)
manquant, n (%)	8 (1)	8 (1)			
Sévérité de douleur			Sévérité de douleur		
aucune, n (%)	175 (30)	158 (27)	aucune, n (%)	175 (30)	158 (27)
très légère, n (%)	135 (23)	91 (16)	très légère ou légère, n (%)	263 (45)	211 (36)
légère, n (%)	128 (22)	120 (20)			
modérée, n (%)	104 (18)	161 (27)	modérée à très sévère, n (%)	148 (25)	217 (37)
sévère, n (%)	31 (5)	43 (7)			
très sévère, n (%)	13 (2)	13 (2)	manquant, n (%)	8 (1)	8 (1)
manquant, n (%)	8 (1)	8 (1)			

Les pourcentages sont calculés sur les valeurs présentes.

Fréquence et sévérité de la douleur étaient augmentées à l'adolescence dans les trois niveaux les plus élevés : quand on compare la proportion d'enfants et d'adolescents avec une fréquence de douleur supérieure à quelquefois (ou une sévérité de douleur supérieure à légère), l'hypothèse de proportion identique est rejetée avec $p < 0.001$ (cf. Tableau 8).

Tableau 8. Evolution de la fréquence et de la sévérité de la douleur entre l'enfance et l'adolescence.

Fréquence de douleur		Adolescence		Sévérité de douleur		Adolescence	
		jamais → parfois	plus que parfois			aucune, très légère ou légère	modérée à très sévère
Enfance jamais → parfois plus que parfois		376	100	Enfance aucune, très légère ou légère modérée à très sévère		298	134
		54	48			68	78
McNemar test	χ^2 (df)	13.1 (1)	p-value	McNemar test	χ^2 (df)	20.9 (1)	p-value
			<0.001				<0.001

La fréquence de douleur initiale est dichotomisée entre les trois niveaux les plus faibles et les trois niveaux les plus élevés, de même pour la sévérité. Test de McNemar (apparié) : $H_0 =$ la distribution marginale des catégories de douleur est identique entre l'enfance et l'adolescence.

Nous avons considéré fréquence et sévérité de la douleur comme deux variables redondantes, car leur corrélation polychorique était élevée (0.928 à l'enfance, 0.957 à l'adolescence). Seule la fréquence de douleur a été conservée dans les analyses. Nous l'avons traitée comme une variable continue.

Le questionnaire SDQ des problèmes psycho-comportementaux était renseigné pour 587/594 des enfants et 588/594 des adolescents (1% de scores SDQ manquants, cf. Tableau 9). Le niveau de problèmes psycho-comportementaux était anormal (score SDQ supérieur au 90^{ème} percentile) chez 22% des enfants et 21% des adolescents, soit une prévalence deux fois supérieure à celle de la population générale.

Le questionnaire PSI-SF de stress parental était renseigné par respectivement 577/594 et 581/594 des parents à l'enfance et à l'adolescence (3% et 2% de valeurs PSI-SF manquantes, cf. Tableau 9). Un tiers des parents avaient un niveau de stress parental considéré à risque (supérieur au 90^{ème} percentile), soit une prévalence trois fois supérieure à celle de la population générale.

Les scores SDQ et PSI-SF étaient stables : pour l'un comme pour l'autre, les tests de Student appariés acceptent l'hypothèse de moyenne égale entre l'enfance et l'adolescence (p valeurs respectivement à 0.68 et 0.87 pour SDQ et PSI-SF).

Tableau 9. Problèmes psycho-comportementaux (score SDQ) et stress parental (score PSI-SF), distribution univariée à l'enfance et à l'adolescence.

	Enfance	Adolescence
SDQ moyenne (+/- écart-type)	12.2 (+/- 5.9)	12.3 (+/- 5.6)
Catégorie de SDQ		
normale, n (%)	350 (60)	357 (61)
limite, n (%)	107 (18)	106 (18)
anormale, n (%)	130 (22)	125 (21)
SDQ manquant, n (%)	7 (1)	6 (1)
PSI-SF total moyenne (+/-écart-type)	81 (+/- 21)	81 (+/- 22)
PSI-SF total score > 90, n (%)	180 (31)	200 (34)
PSI-SF manquant, n (%)	17 (3)	13 (2)

Modifications du modèle

Les procédures d'estimation ont amené à détecter des discordances entre le modèle initial et les données observées. Nous détaillons ci-après les modifications apportées au modèle et leurs justifications.

Modèles de mesurage modifiés

Les modifications décrites ici concernent les modèles de mesurage de la déficience (Figure 2b) et de la participation (Figure 2a).

Suppression de la variable latente de déficience à l'adolescence

Dans le modèle de mesurage initial Figure 2b, deux variables latentes distinctes Déficience₍₁₎ et Déficience₍₂₎ représentaient la déficience à l'enfance et celle à l'adolescence. L'estimation aboutit alors à une solution impropre où la corrélation prédite entre ces deux variables latentes est supérieure à 1.

Ce résultat est dû au fait que chaque déficience observée à l'adolescence était plus fortement corrélée avec son niveau à l'enfance qu'avec les déficiences co-occurentes (cf. Tableau 10). La corrélation polychorique entre déficiences co-occurentes variait ainsi entre 0.408 et 0.876, alors que la corrélation polychorique entre chaque déficience à l'enfance et son niveau à l'adolescence variait entre 0.844 et 0.958. La structure de la matrice de corrélation empirique contredit donc l'hypothèse du modèle factoriel, qui contraint les indicateurs de

déficiences à être indépendants conditionnellement aux variables latentes : une déficience observée à l'enfance, par exemple Locomotion₍₁₎, se voit contrainte à n'être corrélée avec sa valeur à l'adolescence Locomotion₍₂₎ qu'à travers la déficience latente Déficience₍₁₎, avec laquelle elle est pourtant plus faiblement corrélée. Autrement dit, le modèle de mesurage initial force artificiellement les corrélations entre mêmes déficiences aux deux âges à passer par les variables latentes.

Tableau 10. Corrélations polychoriques entre les déficiences à l'enfance (1a-1f) et à l'adolescence (2a-2f).

	1a	1b	1c	1d	1e	1f	2a	2b	2c	2d	2e
1a. Locomotion ₍₁₎											
1b. Bimanuelle ₍₁₎	<i>0.815</i>										
1c. Epilepsie ₍₁₎	<i>0.425</i>	<i>0.519</i>									
1d. Déglutition ₍₁₎	<i>0.805</i>	<i>0.798</i>	<i>0.566</i>								
1e. Commun. (1)	<i>0.744</i>	<i>0.763</i>	<i>0.592</i>	<i>0.856</i>							
1f. Intellectuelle ₍₁₎	<i>0.625</i>	<i>0.655</i>	<i>0.647</i>	<i>0.720</i>	<i>0.826</i>						
2a. Locomotion ₍₂₎	0.958	0.804	0.447	0.768	0.720	0.635					
2b. Bimanuelle ₍₂₎	0.781	0.869	0.527	0.794	0.767	0.655	<i>0.792</i>				
2c. Epilepsie ₍₂₎	0.394	0.497	0.844	0.584	0.601	0.589	<i>0.408</i>	<i>0.506</i>			
2d. Déglutition ₍₂₎	0.839	0.816	0.552	0.919	0.851	0.714	<i>0.835</i>	<i>0.811</i>	<i>0.574</i>		
2e. Commun. (2)	0.745	0.774	0.584	0.851	0.951	0.828	<i>0.732</i>	<i>0.802</i>	<i>0.615</i>	<i>0.874</i>	
2f. Intellectuelle ₍₂₎	0.613	0.652	0.601	0.694	0.780	0.933	<i>0.607</i>	<i>0.671</i>	<i>0.611</i>	<i>0.723</i>	<i>0.807</i>

Les corrélations entre déficiences co-occurentes sont mises en *italique*, celles entre une déficience à l'enfance et son niveau à l'adolescence sont mises en **gras**.

La solution retenue a consisté à conserver uniquement la variable latente de déficience à l'enfance, Déficience₍₁₎, en tant que prédicteur de la participation et des facteurs contextuels aux deux âges. Devant les fortes corrélations entre une même déficience aux deux âges, nous avons considéré que la déficience globale initiale offrait une information résumée suffisamment stable, pour approcher sa valeur actualisée à l'adolescence. Il nous a paru raisonnable d'adopter cette vision simplificatrice de la déficience, car notre attention se porte en priorité sur les déterminants modifiables de participation.

Corrélations entre items de participation

Dans certains domaines de participation, les indices de modification suggéraient de laisser libres les corrélations entre des activités liées à une même variable latente de participation – alors que le modèle factoriel contraint les items à être indépendants entre eux conditionnellement à leur facteur latent commun. Les corrélations polychoriques observées entre ces activités s'avéraient en effet plus élevées que celles prédites par le modèle. La nature même de chaque paire d'activités ainsi repérée explique qu'elles soient plus corrélées entre elles qu'avec les autres activités du domaine (cf. Tableau 11) ; par exemple, pour

s'habiller le haut du corps et s'habiller le bas du corps, on peut supposer qu'un enfant a des facilités qui sont plus proches que pour les autres activités du domaine des soins personnels, car ces deux activités d'habillement mettent en jeu des fonctions motrices et éventuelles influences environnementales proches. Le modèle a ainsi inclus une corrélation résiduelle entre les paires d'activités indiquées.

Tableau 11. Corrélations résiduelles entre paires d'activités pour une participation donnée.

	Enfance	Adolescence
<i>Soins personnels</i>		
Toilettes au domicile – Toilettes hors du domicile	x	x
S'habiller (haut du corps) – S'habiller (bas du corps)	x	x
<i>Vie domestique</i>		
Rentrer et sortir de chez soi – Se déplacer dans la maison	x	x
<i>Ecole</i>		
Se rendre à l'école – Utiliser les installations scolaires	x	x
Utiliser les installations scolaires – Participer à des sorties organisées par l'école	x	
<i>Loisirs</i>		
Se rendre dans des centres de loisirs – Participer à des activités en centres de loisirs	x	

Une croix (x) indique que la corrélation polychorique observée entre les deux activités est supérieure à celle prédite par le modèle initial. Le modèle modifié inclut une corrélation résiduelle entre ces activités.

Modèle structurel modifié

Effet direct de la déficience sur des activités particulières

Dans certains domaines de participation, les indices de modification et les résidus de corrélation suggéraient que la déficience exerçait un effet direct sur des activités particulières, en plus de son effet sur la participation latente globale (cf. Tableau 12). Cet effet direct s'interprète comme le fait que l'activité repérée dépendait davantage de la déficience que les autres activités du même domaine. Les modèles ont pris en compte ces situations en ajoutant une régression de chacune de ces activités sur la déficience.

Tableau 12. Effet direct de la déficience sur des activités particulières.

	Childhood	Adolescence
<i>Soins personnels</i>		
Mettre et enlever ses aides techniques	x	x
<i>Vie domestique</i>		
Utiliser les éléments ménagers (portes, interrupteurs, etc.)	x	x
<i>Loisirs</i>		
Participer à des jeux non sportifs (cartes, jeux vidéos)	x	x

La déficience latente à l'enfance a un effet direct sur ces activités, qui s'ajoute à son effet sur la participation du domaine.

Corrélation entre troubles psycho-comportementaux et stress parental

Le modèle structurel initial de la Figure 3 rend insuffisamment compte de la corrélation observée entre le score SDQ de troubles psycho-comportementaux et celui PSI-SF de stress parental, à l'enfance comme à l'adolescence. Ainsi, la corrélation observée entre troubles psycho-comportementaux et stress parental était de 0.559 à l'enfance (respectivement 0.575 à l'adolescence), alors que le modèle prédit une corrélation de seulement 0.058 (respectivement 0.356), soit un résidu de corrélation observée - prédite de $0.559-0.058=0.474$ (respectivement $0.575-0.356=0.197$). Autrement dit, l'effet de la déficience ne suffisait pas à prédire la corrélation à l'enfance entre troubles psycho-comportementaux et stress parental ; et la déficience associée aux facteurs contextuels de l'enfance ne suffisait pas non plus à prédire la corrélation entre troubles psycho-comportementaux et stress parental à l'adolescence.

A partir de ces discordances entre le modèle et les observations, il est apparu licite de modéliser un lien statistique direct entre les troubles psycho-comportementaux et le stress parental co-occurent. Les similarités entre les questionnaires SDQ et PSI sont limitées à peu d'items, et n'expliquent qu'en partie le lien observé (cf. Tableau 13). Après prise en compte de l'effet des déficiences, une telle corrélation a été déjà notée entre la santé psychologique des enfants présentant une paralysie cérébrale et celle de leurs parents [68], [69], en particulier chez ceux atteints d'une hémiplégie [70]. Des hypothèses psychopathologiques peuvent être avancées dans les deux sens : une dépression parentale peut gêner l'enfant dans l'acquisition de capacités d'ajustement psychologique, et des troubles psycho-comportementaux chez l'enfant peuvent générer chez le parent un stress significatif le mettant en difficulté. Aucune évidence n'existe à notre connaissance quant au sens de l'effet d'un facteur sur l'autre. Nous proposons donc d'ajouter une corrélation simple entre troubles

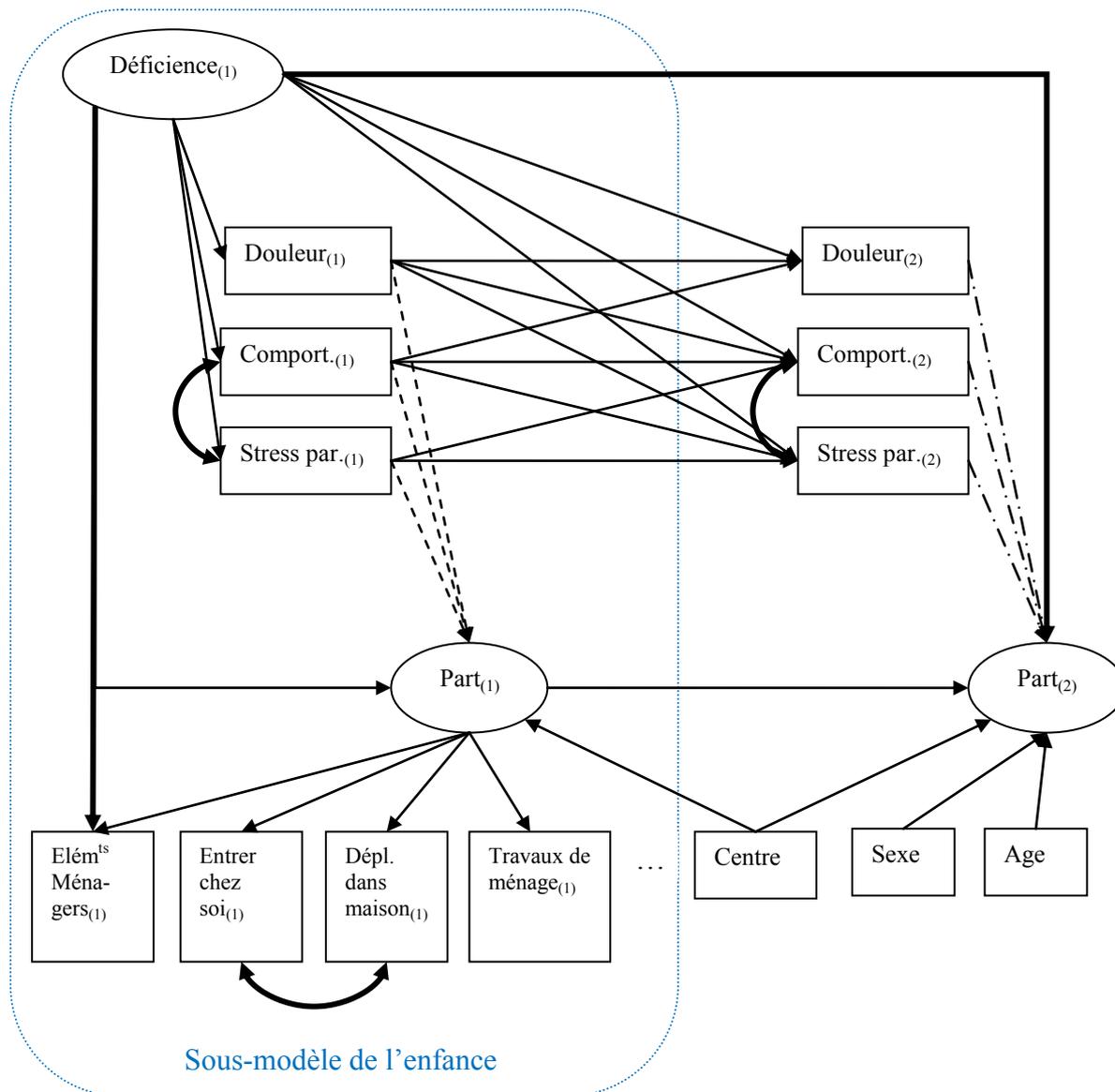
psycho-comportementaux et stress parental, à l'enfance d'une part et à l'adolescence d'autre part.

Tableau 13. Items similaires entre les questionnaires PSI (sous-échelle "Enfant difficile") et SDQ.

PSI	SDQ
Mon enfant semble pleurer ou être grognon davantage que la plupart des enfants	Souvent malheureux(se), abattu(e) ou pleure souvent
Mon enfant est aisément contrarié pour de petites choses Mon enfant réagit très vivement lorsqu'il se passe quelque chose qui ne lui plaît pas	Fait souvent des crises de colère ou s'emporte facilement

L'ensemble du modèle modifié est représenté dans la Figure 7, en prenant pour exemple illustratif le domaine de participation de la vie domestique.

Figure 7. Modèles de mesurage et structurel modifiés. Exemple du domaine de la vie domestique.



Les nouveaux liens sont tracés en traits épais. Les liens entre facteurs contextuels et participation à l'enfance ont fait l'objet de la première régression hiérarchique ascendante (traits brisés), limitée au sous-modèle de l'enfance. Les liens entre facteurs contextuels et participation à l'adolescence ont fait l'objet de la deuxième régression hiérarchique ascendante (traits brisés/pointillés). Par souci de lisibilité, nous avons remplacé par ... les deux activités restantes du domaine de participation de la vie domestique à l'enfance. De même, nous n'avons pas représenté les six activités à l'adolescence, qui ont les mêmes liens supplémentaires qu'à l'enfance : effet direct de Déficience₍₁₎ sur « Eléments ménagers₍₂₎ », et corrélation résiduelle entre « Entrer chez soi₍₂₎ » et « Déplacements dans la maison₍₂₎ ».

Déterminants de la participation à l'enfance

Dans chaque domaine de participation, une régression hiérarchique ascendante a été appliquée au sous-modèle représenté Figure 7, limité aux variables de l'enfance (cf. Tableau 14). On recherchait quels déterminants à l'enfance étaient significativement associés à la participation à l'enfance, après prise en compte de l'effet de la déficience et du centre. L'indice d'ajustement du modèle aux données RMSEA était bon dans tous les domaines avec RMSEA variant entre 0.041 et 0.050, à l'exception du domaine de la communication où RMSEA=0.055. L'indice d'ajustement incrémentiel CFI était bon dans tous les domaines, variant entre 0.965 et 0.986.

Tableau 14. Déterminants de la participation à l'enfance.

	Repas		Hygiène de santé		Soins personnels		Communication		Vie domestique		Déplacements	
	<i>p</i>	β	<i>p</i>	β	<i>p</i>	β	<i>p</i>	β	<i>p</i>	β	<i>p</i>	B
Douleur ₍₁₎	*	-0.05	***	-0.24	***	-0.21	*	0.08	**	-0.11	*	-0.11
SDQ_N ₍₁₎							***	-0.12				
PSI_N ₍₁₎			.	-0.08	**	-0.11					***	-0.12
	Responsabilités		Relations		Ecole		Loisirs		Obligatoires			
	<i>p</i>	β	<i>p</i>	β	<i>p</i>	β	<i>p</i>	β	<i>p</i>	β	<i>p</i>	β
Douleur ₍₁₎			***	-0.36	*	-0.09	*	-0.09			***	-0.12
SDQ_N ₍₁₎	***	-0.22	***	-0.24	**	-0.10	*	-0.07				
PSI_N ₍₁₎			***	-0.19	**	-0.10	.	-0.06			**	-0.07

Résultat par domaine d'activité LIFE-H de la régression hiérarchique ascendante de la participation à l'enfance sur les facteurs contextuels à l'enfance : douleur, problèmes psycho-comportementaux (score SDQ_N), stress parental (score PSI_N) ; les effets sont contrôlés sur la déficience latente à l'enfance et le centre. Entrée d'une variable si le modèle sans elle est rejeté avec $p < 0.05$. β est le coefficient de régression multiple non standardisé ; *p* indique le degré de signification du coefficient β (*** : $p < 0.001$; ** : $0.001 < p < 0.01$; * : $0.01 < p < 0.05$; . : $0.05 < p < 0.10$; NS : $p > 0.1$).

Douleur et stress parental étaient négativement associés avec la participation à l'enfance dans les domaines d'activités quotidiennes des soins personnels, de la vie domestique, et de la mobilité, ainsi que dans le domaine formé par les activités obligatoires. Dans les domaines des repas et de l'hygiène de santé, la douleur seule était retrouvée comme facteur modifiable négativement associé à la participation. Dans le domaine de la communication, les troubles psycho-comportementaux étaient négativement associés à la participation ; l'association

positive entre la douleur et la participation, faiblement significative, était probablement un artéfact de la régression multiple.

Dans les domaines sociaux des relations, de l'école, et des loisirs, la participation à l'enfance était négativement associée avec les trois déterminants : douleur, troubles psycho-comportementaux et stress parental. Dans le domaine des responsabilités, les troubles psycho-comportementaux étaient le seul facteur modifiable associé à la participation.

Déterminants directs de la participation à l'adolescence

Le modèle complet de la Figure 7 a été estimé à l'aide d'une régression hiérarchique ascendante dans chaque domaine de participation. On testait l'effet éventuel des déterminants de l'adolescence sur la participation adolescente, une fois pris en compte les effets de la participation à l'enfance, de la déficience, du sexe, de l'âge et du centre (cf. Tableau 15).

Tableau 15. Déterminants directs de la participation à l'adolescence.

	Repas		Hygiène de santé		Soins personnels		Communication		Vie domestique		Déplacements	
	<i>p</i>	β	<i>p</i>	β	<i>p</i>	β	<i>p</i>	β	<i>p</i>	β	<i>p</i>	β
Douleur ₍₂₎			*	-0.25								
SDQ_N ₍₂₎					***	-0.24	*	-0.18				
PSI_N ₍₂₎			***	-0.39					*	-0.22		
	Responsabilités		Relations		Ecole		Loisirs				Obligatoires	
	<i>p</i>	β	<i>p</i>	β	<i>p</i>	β	<i>p</i>	β			<i>p</i>	β
Douleur ₍₂₎												
SDQ_N ₍₂₎					**	-0.30					***	-0.25
PSI_N ₍₂₎	***	-0.28	***	-0.16			**	-0.27				

Par domaine d'activité LIFE-H, régression hiérarchique ascendante de la participation adolescente sur les facteurs contextuels l'adolescence : douleur, problèmes psycho-comportementaux (score SDQ_N), stress parental (score PSI_N) ; les effets sont contrôlés sur la participation à l'enfance, la déficience latente à l'enfance, le sexe, l'âge et le centre. Entrée d'une variable si le modèle sans elle est rejeté avec $p < 0.05$. β est le coefficient de régression multiple non standardisé ; *p* indique le degré de signification du coefficient β (*** : $p < 0.001$; ** : $0.001 < p < 0.01$; * : $0.01 < p < 0.05$; . : $0.05 < p < 0.10$; NS : $p > 0.1$).

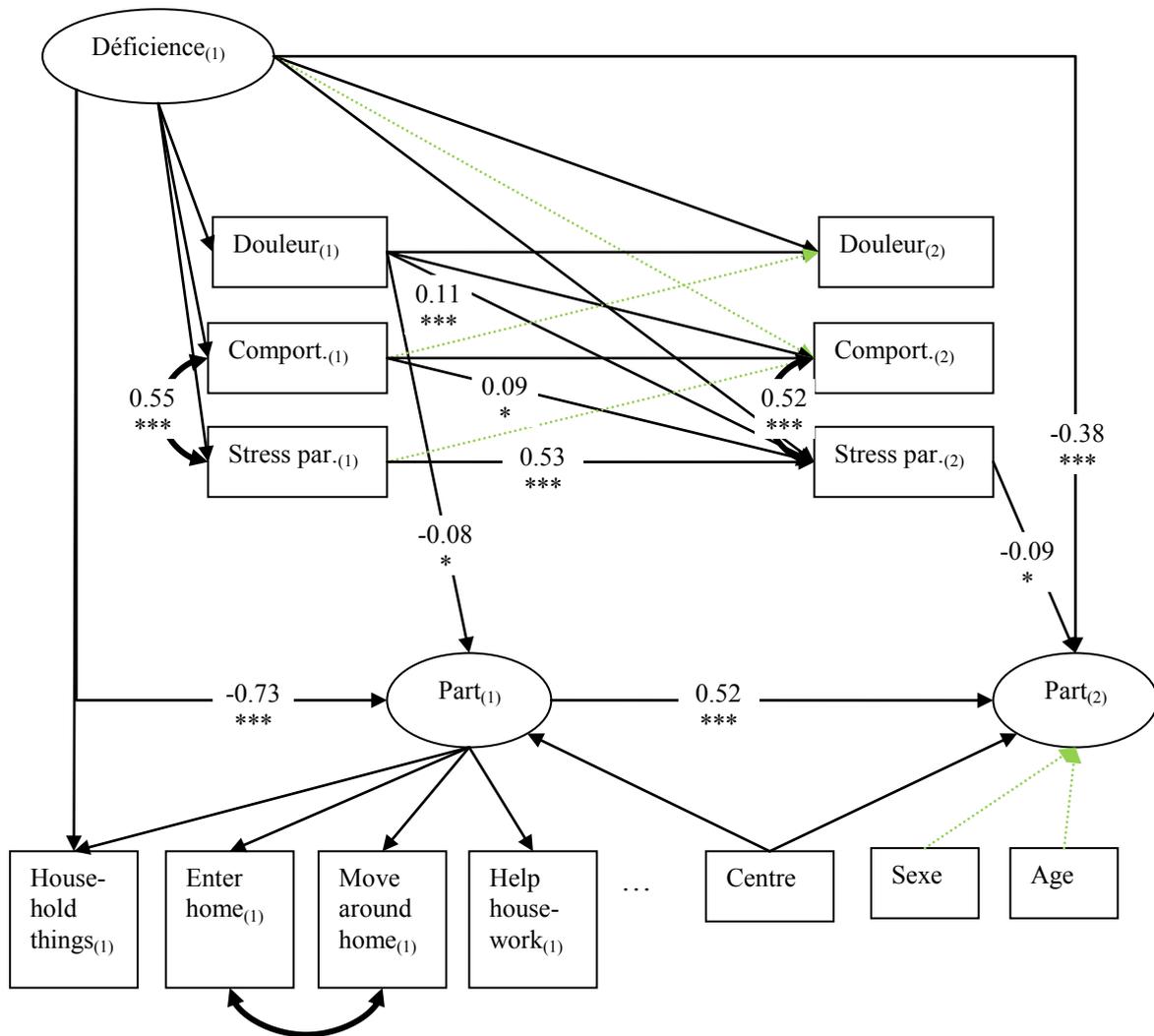
Le stress parental à l'adolescence était négativement associé avec la participation adolescente dans les domaines d'activités quotidiennes de l'hygiène de santé et de la vie domestique, et dans les rôles sociaux des responsabilités, des relations et des loisirs. La douleur à

l'adolescence n'est associée, négativement, qu'avec l'hygiène de santé. Les troubles psycho-comportementaux à l'adolescence étaient négativement associés avec les domaines des soins personnels, de la communication et de l'école. Aucun déterminant adolescent n'était significativement associé avec la participation adolescente dans les domaines d'activités quotidiennes des repas et de la mobilité.

Nous avons de plus testé l'existence éventuelle d'un effet direct des déterminants de l'enfance sur la participation adolescente, et d'un effet réciproque de la participation à l'enfance sur les déterminants de l'adolescence. Cependant, quand on intègre ces liens supplémentaires dans des modèles emboîtés, les tests de différence du χ^2 retiennent systématiquement le modèle le plus simple. Nous n'avons donc pas retenu la possibilité de ces effets directs supplémentaires.

A titre d'illustration, la Figure 8 représente le modèle final obtenu dans le domaine de participation de la vie domestique.

Figure 8. Modèle final estimé dans le domaine de la vie domestique.



Les nombres sont les coefficients de régression standardisés, associés au symbole représentant leur significativité statistique. Les liens non significatifs sont tracés en ligne claire pointillée. Par souci de lisibilité, on a seulement écrit les coefficients qui seront utilisés pour calculer les effets directs et indirects du Tableau 16.

Effet indirect des déterminants de l'enfance

Le Tableau 16 et le Tableau 17 montrent les effets indirects partiels et totaux des déterminants de l'enfance sur la participation adolescente, respectivement dans les domaines des activités quotidiennes et les domaines des rôles sociaux. Les effets sont standardisés ; par

exemple, une augmentation d'un écart-type de la douleur à l'enfance est associée à une diminution de 0.16 écart-type de la participation à l'adolescence dans le domaine de l'hygiène de santé. L'ajustement du modèle aux données était bon dans tous les domaines, le RMSEA variant entre 0.038 et 0.050. Le modèle explique entre 61% et 90% de la variance de la participation adolescente, à l'exception du domaine des relations, où seule 41% de la variance de la participation adolescente est expliquée par le modèle.

Dans tous les domaines d'activités quotidiennes sauf la communication, douleur et stress parental à l'enfance avaient un effet indirect négatif sur la participation adolescente (cf. Tableau 16) ; leurs effets totaux standardisés variaient entre -0.05 ($0.01 < p < 0.05$) et -0.16 ($p < 0.001$). L'effet de la douleur à l'enfance apparaissait particulièrement marqué sur la participation dans le domaine de l'hygiène de santé. Les troubles psycho-comportementaux de l'enfance avaient un effet délétère additionnel sur la participation adolescente dans le domaine des soins personnels (effet standardisé -0.08, $p < 0.001$). La participation adolescente dans le domaine de la communication était principalement associée aux troubles psycho-comportementaux de l'enfance.

Tableau 16. Participation adolescente dans les domaines des activités quotidiennes : effets indirects standardisés des déterminants de l'enfance.

	Repas	Hygiène de santé	Soins personnels	Communication	Vie domestique	Déplacements
R ²	0.90	0.82	0.67	0.88	0.82	0.77
RMSEA	0.039	0.047	0.039	0.050	0.038	0.042
Particip. enfance effet direct	0.62 (**)	0.63 (***)	0.29 (***)	0.65 (***)	0.52 (***)	0.62 (***)
Déficience effet direct	-0.36 (*)	-0.21 (.)	-0.50 (***)	-0.31 (***)	-0.38 (***)	-0.41 (***)
Douleur₍₁₎ total	-	-0.16 (***)	-0.06 (***)	0.01 (.)	-0.05 (**)	-0.05 (*)
- via Particip. enfance		-0.14 (**)	-0.04 (***)		-0.04 (*)	-0.05 (*)
- via Douleur ₍₂₎		-0.02 (*)				
- via Probl. Comport. ₍₂₎			-0.01 (*)	-0.01 (.)		
- via Stress parent ₍₂₎		-0.02 (*)			-0.01 (*)	
Comport.₍₁₎ total	-	-	-0.08 (***)	-0.11 (***)	-0.01 (.)	-
- via Particip. enfance				-0.08 (***)		
- via Douleur ₍₂₎						
- via Probl. Comport. ₍₂₎			-0.08 (***)	-0.03 (*)		
- via Stress parent ₍₂₎					-0.01 (.)	
Stress parent₍₁₎ total	-	-0.09 (***)	-0.05 (**)	-	0.07 (**)	-0.08 (**)
- via Particip. enfance			-0.04 (*)		-0.02 (NS)	-0.08 (**)
- via Douleur ₍₂₎						
- via Probl. Comport. ₍₂₎			-0.01 (NS)			
- via Stress parent ₍₂₎		-0.09 (***)			-0.05 (**)	

R² : proportion de variance de la participation adolescente latente expliquée par le modèle. Indice RMSEA du modèle complet pour le domaine. Effet direct de la participation et de la déficience à l'enfance, ajusté sur l'effet des déterminants de l'adolescence. Pour chaque déterminant de l'enfance : son effet indirect total sur la participation adolescente, et ses effets indirects partiels via la participation à l'enfance et les déterminants de l'adolescence. Les effets indirects sur la participation adolescente sont contrôlés sur la déficience, le centre, le sexe and l'âge. Les effets sont les coefficients de régression standardisés : par exemple, une augmentation d'un écart-type de la douleur à l'enfance est associée à une diminution de 0.16 écart-type de la participation à l'adolescence dans le domaine de l'hygiène de santé. Significativité statistique des effets : (***) p<0.001, (**) 0.001<p<0.01, (*) 0.01<p<0.05, (.) 0.05<p<0.10, (NS) p>0.1. Taille des effets : [-.06 ; -.10], [-.11 ; -.15], [-.16 ; -.20].

Dans les quatre domaines des rôles sociaux, les troubles psycho-comportementaux de l'enfance étaient négativement associés à la participation adolescente, plus particulièrement dans les responsabilités et l'école où leur effet standardisé était de -0.14, $p < 0.001$ (cf. Tableau 17). Douleur et stress parental à l'enfance avaient un effet négatif additionnel sur la participation dans les relations et les loisirs ; le stress parental à l'enfance semblait avoir un effet plus marqué sur les relations à l'adolescence (effet standardisé -0.18, $p < 0.001$).

Tableau 17. Participation adolescente dans les domaines des rôles sociaux et les activités obligatoires : effets indirects standardisés des déterminants de l'enfance.

	Responsa- bilités	Relations	Ecole	Loisirs	Obligatoires
R ²	0.88	0.41	0.61	0.76	0.68
RMSEA	0.043	0.044	0.046	0.037	0.038
Particip. enfance effet direct	0.62 (***)	0.56 (***)	0.33 (***)	0.60 (***)	0.29 (***)
Déficiences effet direct	-0.31 (***)	NS	-0.42 (***)	-0.27 (***)	-0.52 (***)
Douleur ₍₁₎ effet total	0.01 (*)	-0.14 (***)	-0.04 (**)	-0.06 (**)	-0.05 (***)
- via Particip. enfance		-0.12 (***)	-0.02 (.)	-0.04 (*)	-0.03 (**)
- via Douleur ₍₂₎			-0.02 (*)		-0.01 (.)
- via Probl. Comport. ₍₂₎					
- via Stress parent ₍₂₎	0.01 (*)	-0.02 (.)		-0.02 (*)	
Comport. ₍₁₎ total	-0.14 (***)	-0.12 (**)	-0.14 (***)	-0.07 (**)	-0.07 (***)
- via Particip. enfance	-0.13 (***)	-0.11 (**)	-0.04 (*)	-0.06 (*)	
- via Douleur ₍₂₎					
- via Probl. Comport. ₍₂₎			-0.10 (***)		-0.07 (***)
- via Stress parent ₍₂₎	-0.01 (NS)	-0.01 (NS)		-0.01 (.)	
Stress parent ₍₁₎ total	-0.05 (**)	-0.18 (***)	-0.05 (*)	-0.10 (**)	-0.05 (**)
- via Particip. enfance		-0.12 (**)	-0.04 (*)	-0.03 (NS)	-0.03 (*)
- via Douleur ₍₂₎					
- via Probl. Comport. ₍₂₎			-0.01 (NS)		-0.02 (.)
- via Stress parent ₍₂₎	-0.05 (**)	-0.07 (*)		-0.07 (**)	

Description des lignes idem Tableau 16.

Les déterminants de l'enfance paraissaient influencer la participation adolescente principalement via la participation à l'enfance. L'effet médié par les déterminants de l'adolescence était en effet le plus souvent de faible taille : les effets partiels standardisés variaient le plus souvent entre -0.01 et -0.03. Une première exception concernait les troubles

psycho-comportementaux dans les domaines des soins personnels et de l'école : leur effet sur la participation adolescente s'exerçait de façon substantielle via leur niveau à l'adolescence (effets partiels respectivement de -0.08 et -0.10, $p < 0.001$). Une deuxième exception était constituée par le stress parental dans les domaines de l'hygiène de santé, des relations, et des loisirs, où l'effet partiel via le stress parental à l'adolescence était respectivement estimé à -0.09 ($p < 0.001$), -0.07 ($0.001 < p < 0.01$) et -0.07 ($0.01 < p < 0.05$).

La taille des effets indirects des déterminants de l'enfance sur la participation adolescente restait globalement modérée. Elle est à rapporter à l'effet direct standardisé de la déficience sur la participation adolescente qui variait entre -0.27 et -0.50 dans les huit domaines où cet effet était significatif. L'effet direct de la participation à l'enfance était également beaucoup plus important que l'effet indirect des déterminants de l'enfance, variant entre 0.29 et 0.65.

DISCUSSION

Résumé des résultats

Les déterminants de l'enfance expliquaient une partie des variations de la participation à l'adolescence. Douleur et stress parental à l'enfance étaient associés à une participation altérée à l'adolescence dans tous les domaines d'activités quotidiennes sauf la communication, ainsi que dans les domaines des relations et des loisirs. Les troubles psycho-comportementaux à l'enfance étaient associés à une participation altérée dans tous les domaines de rôles sociaux, et dans les domaines des soins personnels et de la communication. L'effet des déterminants de l'enfance s'exerçait sur la participation adolescente principalement par le biais de la participation à l'enfance. Contrairement à la période de l'enfance, la douleur ne jouait plus qu'un rôle direct minime dans la participation à l'adolescence.

Forces et limites de l'étude

L'échantillon a été constitué à partir de registres de différentes régions européennes, et sa taille est grande en comparaison des autres études portant sur la participation dans la paralysie cérébrale. Les résultats peuvent donc être considérés représentatifs de la population des enfants et adolescents avec paralysie cérébrale en Europe hors biais d'attrition. Le schéma longitudinal permet d'étudier spécifiquement la part de variation de la participation adolescente non expliquée par la participation à l'enfance. La modélisation par équations structurelles prend en compte la nature ordinale des items de participation et de déficience et simplifie l'analyse des chemins de médiations.

Les résultats doivent être interprétés en tenant compte de l'attrition de la cohorte initiale, puisque 224/818 (27%) des enfants recrutés au départ n'ont pas pu être réinterrogés à l'adolescence. Dans la moitié des cas (120/224), l'adolescent ou sa famille ont refusé de participer au second temps de l'enquête. Or, en analyse multivariée, le refus est associé à un

stress parental élevé à l'enfance [67]. Comme l'attrition est différentielle sur cette variable, les résultats sont susceptibles d'avoir sous-estimé ou surestimé l'effet du stress parental sur la participation.

Le questionnaire de participation était administré par l'attaché de recherche à l'adolescent si celui-ci était capable de le renseigner, sinon au parent. Les essais pilotes avaient en effet montré que les adolescents capables souhaitaient répondre au questionnaire de participation. La longueur du questionnaire rendait par ailleurs impraticable son administration à la fois au parent et à l'adolescent. Il est possible que la différence de répondant induise des biais. Il semble cependant raisonnable de supposer que ces biais restent limités par la nature relativement objective de l'accomplissement des activités.

On peut questionner le choix de traiter comme donnée manquante une activité renseignée comme « non applicable ». Par exemple, l'activité « gérer son argent de poche » est non applicable lorsque l'enfant ou l'adolescent n'est pas intéressé ou ne reçoit pas d'argent de poche. Il est légitime de considérer cette activité comme non informative dans le cas d'une absence d'intérêt *a priori* ou d'une habitude *a priori* du parent de ne pas donner d'argent de poche. Dans certaines situations, il est cependant possible que gérer son argent de poche soit si difficile pour l'enfant qu'il en a perdu intérêt, ou que le parent a renoncé de ce fait à lui donner de l'argent de poche, donc *a posteriori* ; il serait alors plus légitime de considérer cette activité comme non accomplie car trop difficile. Les enquêteurs avaient pour consigne de chercher à détecter de telles situations afin de minimiser le biais de non-réponse.

Dans notre modèle, les niveaux de participation à l'enfance comme à l'adolescence sont ajustés sur le niveau latent de déficience globale à l'enfance. On aurait pu chercher à représenter plus finement l'association entre chaque type de déficience et la participation dans les différents domaines. Par exemple, dans les études antérieures, la participation aux relations sociales semblait plus fortement associée à la déficience intellectuelle qu'à la déficience locomotrice [8], [71]. La simplification opérée nous paraît cependant justifiée par les fortes corrélations observées entre les différentes déficiences et notre objectif d'identifier en priorité les facteurs accessibles à une prévention. De plus, la modélisation de la déficience par une variable latente permet de prendre en compte une erreur de mesure associée à chaque déficience observée ; l'évaluation de la déficience peut en effet varier selon l'observateur, en particulier lors du codage de la fonction locomotrice par la GMFCS [42], [72].

Le modèle ne prend pas explicitement en compte l'environnement sociétal et architectural de l'adolescent et de sa famille. Par exemple, la participation pourrait être influencée par le mode de scolarisation, la vie associative locale, l'accessibilité de l'urbanisme et des transports publics, les structures médico-sociales ou encore la législation et les aides financières pour la compensation du handicap [73]. Toutefois, en ajustant les effets sur la région, on a indirectement tenu compte des influences environnementales liées aux politiques régionales spécifiques.

Comparaison avec les études existantes

Distribution des déterminants

Une douleur était présente au cours de la semaine passée chez 73% des adolescents et 70% des 594 enfants de notre échantillon. Cette prévalence de douleur est comparable à celle rapportée dans d'autres travaux. Ainsi, dans une étude comparant différentes modalités d'évaluation de la douleur chez 43 enfants et adolescents avec paralysie cérébrale âgés de 1 à 19 ans, 67% d'entre eux avaient eu une douleur jugée non nulle dans le mois passé [74]. Dans une autre étude, parmi 20 enfants et adolescents âgés de 6 à 17 ans, 70% avaient eu une douleur chronique gênante dans les trois derniers mois [21]. Chez 230 adolescents avec PC âgés de 14.7 +/- 1.7 ans, 64% des filles et 50% des garçons rapportaient une douleur dans le mois passé [22]. A l'inverse, parmi 408 enfants avec PC âgés de 5 à 10 ans suivis en rééducation, seuls 13% avaient une douleur rapportée par leurs parents [75] ; toutefois, cette étude excluait les enfants qui avaient alors récemment reçu un traitement susceptible d'altérer leurs capacités ambulatrices, dont des thérapeutiques ciblant la spasticité comme la toxine botulique injectée, le baclofène par voie intra-thécale ou une rhizotomie dorsale, ce qui pourrait en partie expliquer la faible prévalence de douleur observée.

Dans notre échantillon, le score SDQ évaluant les problèmes psycho-comportementaux était limite ou anormal chez 39% des adolescents et 40% des enfants. De même, parmi 76 enfants âgés de 9.3 +/- 2.1 ans suivis pour leur paralysie cérébrale par un pédiatre neurologue, 39% avaient un score SDQ limite ou anormal [69]. Chez 428 enfants et adolescents hémiplésiques âgés de 2 à 16 ans, 54% étaient affectés de troubles psychiatriques [70].

Le score de stress parental était à risque chez 31% des parents à l'enfance et 34% à l'adolescence chez les 594 sujets de notre échantillon. Dans l'étude transversale SPARCLE 1 à l'enfance, 34% des 818 parents avaient un score PSI à risque [30]; la différence est probablement due à l'attrition différentielle concernant les parents ayant le stress le plus élevé. Ces proportions sont comparables à celles d'autres études, où 30% des mères d'enfants avec PC avaient des symptômes indiquant un risque dépressif accru [76], [77].

Association entre déterminants et participation

D'autres études ont montré une association entre douleur et participation chez les enfants et adolescents avec paralysie cérébrale. Chez 198 enfants et adolescents avec PC âgés de 10.6 +/- 3.9 ans (5-18 ans), la fréquence de la douleur était associée à l'absentéisme scolaire ($p=0.03$) et à un alitement prolongé ($p=0.01$) [24]. La douleur expliquait une participation scolaire altérée à la fois par un effet direct propre et par un effet indirect à travers la fatigue, dans un échantillon de 189 enfants et adolescents avec PC âgés de 5 à 18 ans [78]. Dans un échantillon de 230 adolescents avec PC, la douleur était associée à une gêne pour accomplir les activités de la vie quotidienne [22]. Notre étude suggère que l'effet de la douleur à l'adolescence sur la participation adolescente serait expliqué par la présence antérieure de cet effet depuis l'enfance, sans y ajouter de contribution supplémentaire significative.

De façon similaire à notre étude, le stress parental, dans sa dimension de détresse du parent, était associé à une moindre diversité de participation dans le domaine des loisirs chez 67 enfants avec PC âgés de 9.6 +/- 2.1 ans [36]. Paradoxalement, les troubles psycho-comportementaux dans la dimension des conduites hyperactives prédisaient une plus grande diversité de participation dans les loisirs. Dans les autres domaines de participation, l'étude ne retrouvait pas les associations que nous avons observées, mais son échantillon avait une taille modeste et une variabilité réduite, puisque 28 enfants en avaient été exclus en raison de leur atteinte neurologique trop sévère pour pouvoir remplir le questionnaire Children's Assessment of Participation and Enjoyment (CAPE). Chez 205 adolescents avec PC âgés de 13 à 21 ans, la fréquence de participation aux loisirs était prédite par le plaisir à accomplir les activités, la capacité physique, le sexe féminin, l'âge jeune, et la propension de la famille à s'engager dans des activités, mais pas par le comportement d'adaptation de l'enfant ni par la cohésion familiale [79]. Ces résultats pourraient être rapprochés des nôtres si on considère

que les troubles psycho-comportementaux se manifestent indirectement à travers un plaisir moindre à accomplir les activités, et le stress parental à travers une moindre propension de la famille à s'engager dans des activités de loisir.

Dans une étude portant sur un sous-échantillon de SPARCLE 1 de 102 enfants avec PC en Irlande du Nord, la douleur prédisait une participation altérée dans les domaines des loisirs, de l'hygiène de santé et des soins personnels, alors que le stress parental ne prédisait d'altération que dans la participation à la vie sociale – domaine exclu de notre analyse en raison du nombre élevé de réponses d'activité non applicable [37]. La taille d'échantillon plus modeste peut expliquer que cette étude ait détecté moins d'associations que les résultats présentés ici.

Chez les enfants souffrant de troubles du développement neurologique, la qualité du sommeil est souvent perturbée en raison par exemple de douleurs chroniques, de reflux gastro-oesophagiens ou d'un syndrome obstructif d'apnée du sommeil [80]. En outre, les perturbations du sommeil de l'enfant peuvent être aggravées en cas de difficultés de l'aidant, telles qu'un niveau élevé de stress parental ou une dépression maternelle ; à l'inverse, l'aidant lui-même voit souvent son sommeil perturbé, en particulier afin d'aller vérifier que l'enfant ne n'est pas retourné dans une position à risque de douleur ou d'inhalation. Dans notre modèle, nous retrouvons cette association à travers l'influence de la douleur et du stress parental sur l'hygiène de santé, qui inclut le sommeil.

D'après nos résultats, le stress parental à l'enfance est prédictif de la participation à l'adolescence dans les domaines de la vie quotidienne, les relations, et les loisirs. Contrairement à la douleur, le stress parental à l'enfance semble exercer un effet sur la participation adolescente indépendamment de son effet sur la participation enfantine, donc via le niveau de stress parental à l'adolescence, dans plusieurs domaines : l'hygiène de santé, la vie domestique, les loisirs, et les relations. Ces domaines, par rapport aux autres, contiennent des activités facultatives dont l'accomplissement par l'adolescent pourrait être davantage impacté par un mode d'interaction parents-enfants qui serait plus coercitif en cas de stress parental [81]: exercice physique et activités de détente (hygiène de santé), aide aux travaux de ménage ou jardinage (vie domestique), et l'ensemble des domaines des relations et des loisirs.

Autres études longitudinales : déficience, qualité de vie, santé psychologique

Les études longitudinales restent rares chez les enfants avec paralysie cérébrale. Aucune, à notre connaissance, n'a examiné l'évolution des liens entre la participation et les facteurs modifiables étudiés ici.

L'évolution de la déficience locomotrice a fait l'objet d'une étude portant sur 657 enfants avec PC initialement âgés de 1 à 13 ans, évalués chaque année pendant 4 ans à l'aide de la Mesure de la Fonction Motrice Principale (*Gross Motor Function Measure*) [82]. Les données ont permis de tracer pour chacune des cinq classes de déficience locomotrice GMFCS une courbe de fonction motrice principale prédite ; cette courbe peut servir à éclairer le pronostic fonctionnel d'un enfant une fois qu'on a déterminé sa classe de déficience.

La qualité de vie (*Quality of Life*), mesure « subjective », et la qualité de vie relative à la santé (*Health Related Quality of Life*), mesure « objective », ont été évaluées chez 185 adolescents avec PC âgés de 13 à 20 ans, à leur inclusion et un an plus tard, avec respectivement l'échelle QOL adaptée aux personnes avec troubles du développement et l'index des utilités de santé [83]. La qualité de vie relative à la santé a montré une stabilité excellente sur le score global et la locomotion, mais nettement plus faible sur la douleur et l'émotion. La qualité de vie a eu des variations intermédiaires, plus importantes dans le champ du Devenir, et n'était que faiblement corrélée avec la qualité de vie relative à la santé. La variabilité dans le temps apparaît ainsi plus importante pour les aspects comportant une part subjective.

Dans une autre étude, la qualité de vie relative à la santé a été évaluée à l'inclusion puis un an plus tard chez 177 enfants et adolescents avec PC âgés de 3 à 18 ans à l'aide du questionnaire Child Health Questionnaire [84]. Une détérioration a été observée concernant la limitation des rôles sociaux par un problème physique, alors que les autres domaines sont restés stables. L'auteur avance l'hypothèse qu'entre les deux enquêtes, l'enfant a pu souhaiter étendre ses activités scolaires et communautaires, et se heurter aux limites imposées par ses déficiences, d'où la dégradation de l'évaluation sur ces activités.

Les troubles psychiatriques ont été évalués sur une cohorte de 328 enfants hémiplésiques âgés de 3 à 12 ans à leur inclusion puis quatre ans plus tard [85] ; on constate une stabilité des troubles notés initialement. En observant que les facteurs familiaux péjoratifs ont peu d'impact sur la rémission ou l'émergence de troubles psychiatriques, l'auteur suggère que les difficultés psychologiques maternelles devraient davantage être considérées comme un effet

qu'une cause des troubles psycho-comportementaux de l'enfant. Dans une autre étude, on a suivi les problèmes comportementaux et les facteurs de stress et de soutien familial chez 110 enfants avec PC âgés de 8 à 13 ans chaque année pendant 3 ans [86]. Le niveau global des problèmes comportementaux a diminué au cours du temps, et est associé à l'excès de stress vécu par les parents par rapport aux soutiens qu'ils ont reçus.

D'autres directions de causalité ?

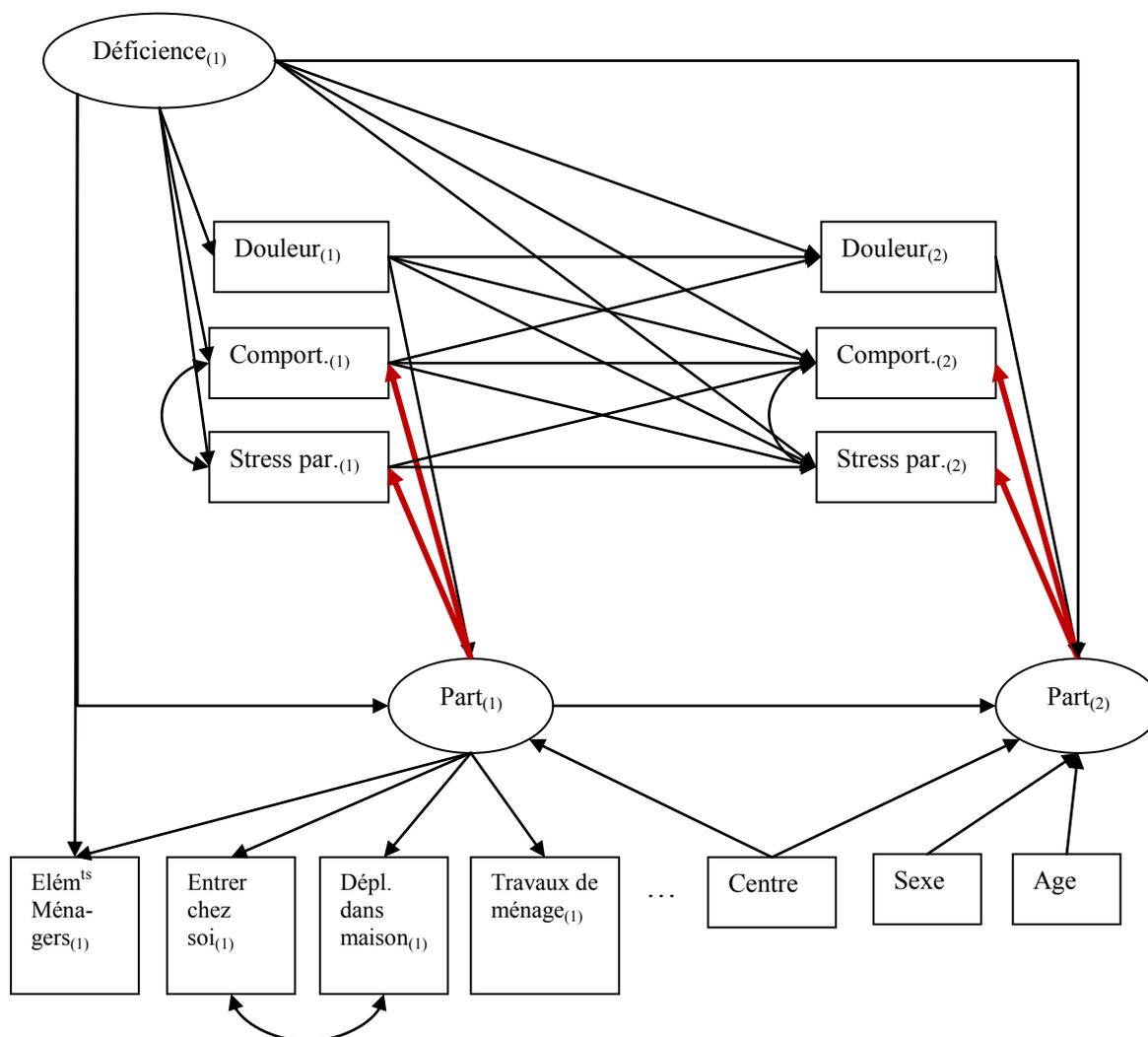
Le modèle d'équations structurelles de la Figure 7 résulte des hypothèses de causalité que nous avons postulées au départ à partir de théories psychopathologiques proposées par ailleurs. Ainsi, en nous inspirant du cadre conceptuel proposé par [35], nous avons supposé que les facteurs contextuels de douleur, problèmes psycho-comportementaux et stress parental influencent la participation. Les auteurs remarquent que certains des liens proposés sont très probablement bidirectionnels, mais qu'ils les ont rendus non réciproques afin que le modèle obtenu puisse être testé et éventuellement amélioré. Nous verrons maintenant qu'en inversant certains des effets, on obtiendrait des modèles parfaitement équivalents en termes d'ajustement aux données [66]. Quels modèles alternatifs plausibles aurait-on pu envisager ?

Une meilleure participation pourrait contribuer à améliorer la santé psychologique de l'enfant [87] : l'effet irait alors de la participation vers les problèmes psycho-comportementaux co-occurents. En effet, quand ils prennent part à des activités de loisirs, les enfants atteints de déficiences peuvent vivre un sentiment de réalisation et de réussite qui ne leur serait pas accessible autrement [88]. Certaines activités sont en outre susceptibles de procurer des bénéfices spécifiques ; par exemple, les jeux sédentaires favoriseraient le tissage de liens d'amitié [89].

De même, la participation pourrait exercer un effet réciproque sur le stress parental. Par exemple, à partir des comportements d'ajustement observés chez 97 adolescents et jeunes adultes présentant des troubles du développement, il a été proposé le stress parental serait influencé par le niveau de compétence interpersonnelle manifesté par la jeune personne [90]. A notre connaissance, peu de travaux semblent toutefois étayer l'hypothèse d'un effet direct de la participation sur le stress parental.

Le modèle alternatif équivalent obtenu est représenté en Figure 9.

Figure 9. Modèle alternatif équivalent en inversant le sens des effets entre la participation et les problèmes psycho-comportementaux ou le stress parental.



Implications pour la pratique clinique

Les résultats de notre étude suggèrent que la douleur à l'enfance restreint la participation à l'adolescence exclusivement via son impact sur la participation à l'enfance, ceci dans tous les domaines de la vie quotidienne à l'exception de la communication, ainsi que dans les relations et les loisirs. Autrement dit, à l'adolescence, le nouveau profil de la douleur ne semble pas modifier pas l'effet rémanent de la douleur de l'enfance sur la participation à l'enfance. Ceci plaide pour une intervention sur la douleur la plus précoce possible, avant que ses conséquences sur la participation ne soient fixées.

La prévention de la douleur chez les enfants avec paralysie cérébrale repose en premier lieu sur un dépistage attentif : la douleur est fréquemment sous-évaluée, en partie parce que celle-ci est devenue habituelle pour les enfants et leurs parents, et à cause des difficultés de communication souvent associées aux déficiences motrices. Parler de la douleur peut constituer une première étape pour mieux la soigner [91]. Les options plus spécifiques font appel aux différents traitements de la spasticité [92] :

- Médicamenteux : les médicaments per os présentent l'inconvénient d'effets secondaires généraux sédatifs (lioresal, benzodiazépines) ; les blocs neuronaux par anesthésiques locaux ont une efficacité rapide mais transitoire ; les blocs neuronaux par phénoles ont une efficacité prolongée de 2 à 12 mois, mais peuvent induire des lésions nerveuses irréversibles et des dysesthésies ; les injections intra-musculaires de toxine botulinique ont aussi une efficacité prolongée, mais sont plus adaptées aux spasticités localisées ; les injections intrathécales de baclofène requièrent l'emploi d'un pompe.
- Chirurgicaux : la rhizotomie dorsale sélective consiste à sectionner au niveau de la moelle épinière les nerfs véhiculant la sensibilité en des points localisés ; des aponévrotomies chirurgicales permettent de libérer les amplitudes articulaires.
- Fonctionnels : les séances de kinésithérapie comportent des exercices d'étirements, en complément du port d'orthèses visant à éviter les rétractions.

Or, il a été également mis en évidence que la grande majorité des enfants avec PC (93%) éprouvent selon leurs parents une douleur lors des étirements actifs en kinésithérapie, et que 43% trouvaient très douloureuses les injections de toxine botulinique [74]. Dans l'étude SPARCLE 2, la moitié des adolescents rapporte une douleur lors des exercices d'étirement actif, et les trois quarts lors de l'injection de toxine botulinique [93]. Il convient donc d'évaluer avec attention le rapport bénéfice / risque d'une thérapie contre la spasticité avant de la proposer à l'enfant.

Nos résultats suggèrent par ailleurs que le stress parental à l'enfance restreint la participation adolescente dans les mêmes domaines que la douleur, et qu'il existe en outre un effet indirect significatif via le stress parental à l'adolescence pour les domaines de l'hygiène de santé, la vie domestique, les relations et les loisirs. On pourrait donc favoriser la participation

adolescente dans ces domaines en intervenant sur le stress parental aussi bien précocement que de façon continue pendant l'adolescence.

Pour prévenir ou diminuer le stress des parents, on peut veiller à différents aspects :

- évaluer la qualité de leur réseau de soutien informel, familial et amical [33]
- les orienter vers des services formels de soutien social [34]
- leur proposer une psycho-éducation basée par exemple sur les stratégies d'adaptation (« coping ») [32].

Enfin, d'après nos résultats, les problèmes psycho-comportementaux à l'enfance altèrent la participation à l'adolescence dans tous les rôles sociaux, ainsi que les soins personnels et la communication. Leur effet s'exerce via :

- la participation à l'enfance dans les domaines de la communication, des responsabilités, des relations et des loisirs,
- les problèmes psycho-comportementaux à l'adolescence dans les domaines des soins personnels et de l'école.

Une intervention précoce sur les problèmes psycho-comportementaux pourrait donc améliorer la participation à l'enfance et à l'adolescence dans les quatre premiers domaines, et une intervention continue favoriserait la participation adolescente dans les deux derniers domaines. On peut mobiliser des options thérapeutiques centrées sur l'enfant : les activités de relaxation ou les thérapies cognitivo-comportementales ont montré leur efficacité en alternative aux traitements médicamenteux, même s'il s'agit pour le moment d'études de petite taille et non spécifiques de la paralysie cérébrale [94]. Etant donné les interrelations étroites entre le fonctionnement familial et le comportement de l'enfant, il a également été proposé de considérer la famille comme la cible plus globale des interventions destinées à améliorer les symptômes psycho-comportementaux des enfants souffrant de maladies chroniques [95] : les enfants et leurs mères apprennent de façon conjointe des stratégies de « coping » à appliquer devant les différentes difficultés auxquelles la pathologie chronique les confrontera. Les résultats de notre étude confortent l'intérêt potentiel d'une telle approche thérapeutique considérant la famille : nous retrouvons l'existence d'une corrélation positive significative entre problèmes psycho-comportementaux et stress parental, indépendante de la

déficience, sans qu'une direction de causalité évidente émerge d'un facteur sur l'autre. Ceci suggère la pertinence d'une prise en charge psychologique combinée de l'enfant et du parent.

Perspectives

Dans la philosophie du projet SPARCLE et en accord avec la CIF, on a choisi de coder les réponses au questionnaire LIFE-H en faisant abstraction de l'assistance technique ou humaine. Si on souhaite exploiter en pratique courante ce nouveau codage des activités, il conviendrait de disposer d'une façon simple de calculer un score de participation par domaine. A cette fin, une première étape consisterait à étudier les propriétés psychométriques du questionnaire quand on adopte ce nouveau mode de codage. Dans le cas où la cohérence interne des domaines paraîtrait insuffisante, une analyse exploratoire factorielle des 62 items d'activités du questionnaire permettrait de proposer de nouveaux regroupements des items ; les regroupements proposés pourraient ensuite être testés par des analyses factorielles confirmatoires ; une phase de tests pilotes devrait alors être envisagée afin de valider les éventuels nouveaux domaines.

Comme on l'a vu dans les paragraphes précédents, les résultats de notre analyse convergent globalement avec les études existantes. Il s'agit toutefois de la première étude longitudinale portant sur les liens entre participation et déterminants modifiables chez des enfants présentant des troubles du développement neurologique. Il serait donc souhaitable de reproduire ces résultats afin de confirmer leur validité, par exemple dans une autre région du monde ou pour un autre type de maladie chronique.

La façon la plus rigoureuse de valider les hypothèses émises consisterait à tester des interventions sur les déterminants identifiés, à partir d'un nouvel échantillon d'enfants avec paralysie cérébrale. Différents bras expérimentaux devraient être définis : traitement précoce de la douleur, intervention précoce et continue sur les troubles psycho-comportementaux et le stress parental, et groupe contrôle avec prise en charge usuelle. En évaluant la participation et les déterminants initialement puis à l'adolescence, on serait en mesure d'évaluer l'efficacité des différentes interventions sur la participation.

En conclusion :

Longtemps considérée sous l'angle des déficiences et leurs conséquences, la paralysie cérébrale a tout à gagner à être étudiée à travers la participation, selon le paradigme proposé par la CIF. Il est ainsi possible d'identifier des facteurs individuels de l'enfant, ou liés à la famille, qui peuvent améliorer les conséquences de cette maladie et reconsidérer la prise en charge selon une vision plus globale et plus prospective : la prise en compte précoce de la douleur, la mise en place de mesures pour diminuer le stress parental ou les troubles du comportement de l'enfant font partie intégrante du traitement de la PC, qui ne doit pas se limiter à la compensation des déficiences.

Ce travail met donc l'accent sur l'importance d'une prise en charge multidisciplinaire et intégrée de l'enfant avec PC, afin de favoriser un développement le plus harmonieux possible de la personne dans son environnement physique et social de l'enfance jusqu'à l'âge adulte.

BIBLIOGRAPHIE

- [1] C. Cans, H. Dolk, M. Platt, A. Colver, A. Prasauskiene, and I. K. Rägelo-Mann, "Recommendations from the SCPE collaborative group for defining and classifying cerebral palsy," *Developmental Medicine & Child Neurology*, vol. 49, pp. 35–38, 2007.
- [2] P. Rosenbaum, N. Paneth, A. Leviton, M. Goldstein, and M. Bax, "A report: the definition and classification of cerebral palsy April 2006," *Developmental Medicine & Child Neurology*, vol. 49, pp. 8–14, 2007.
- [3] C. Cans, J. De-la-Cruz, and M.-A. Mermet, "Epidemiology of cerebral palsy," *Paediatrics and Child Health*, vol. 18, no. 9, pp. 393–398, Sep. 2008.
- [4] D. Strauss, J. Brooks, L. Rosenbloom, and R. Shavelle, "Life expectancy in cerebral palsy: an update," *Developmental Medicine & Child Neurology*, vol. 50, no. 7, pp. 487–493, 2008.
- [5] F. P. Grad, "The Preamble of the Constitution of the World Health Organization.," *Bull World Health Organ*, vol. 80, no. 12, pp. 981–984, 2002.
- [6] World Health Organization, "International Classification of Functioning, Disability and Health (ICF)." World Health Organization, Geneva, 2001.
- [7] World Health Organization, *International Classification of Functioning, Disability and Health – Children and Youth Version. ICF-CY*. Geneva, Switzerland: World Health Organization,, 2007.
- [8] E. Beckung and G. Hagberg, "Neuroimpairments, activity limitations, and participation restrictions in children with cerebral palsy," *Developmental Medicine & Child Neurology*, vol. 44, no. 5, pp. 309–316, 2002.
- [9] J. Fauconnier, H. O. Dickinson, E. Beckung, M. Marcelli, V. McManus, S. I. Michelsen, J. Parkes, K. N. Parkinson, U. Thyen, C. Arnaud, and A. Colver, "Participation in life situations of 8-12 year old children with cerebral palsy: cross sectional European study," *BMJ*, vol. 338, 2009.
- [10] S. I. Michelsen, P. Uldall, M. Madsen, and T. Hansen, "Social integration of adults with cerebral palsy," *Developmental Medicine & Child Neurology*, vol. 48, no. 8, pp. 643–649, 2006.
- [11] G. A. King, E. G. Brown, and L. K. Smith, *Resilience: Learning from People with Disabilities and the Turning Points in Their Lives*. Greenwood Publishing Group, 2003.
- [12] J. Dacey and D. Margolis, "Psychosocial development: Adolescence and sexuality," in *Handbook of human development for health care professionals*, Jones and Bartlett Publishers Inc., London, UK: K. M. Thies & J. F. Travers, 2006, pp. 191–218.
- [13] J. Suris, P. Michaud, and R. Viner, "The adolescent with a chronic condition. Part I: developmental issues," *Arch Dis Child*, vol. 89, no. 10, pp. 938–942, Oct. 2004.
- [14] C. E. Rapp Jr and M. M. Torres, "The adult with cerebral palsy," *Arch Fam Med*, vol. 9, no. 5, pp. 466–472, May 2000.
- [15] G. Worley, C. M. Houlihan, M. E. Herman-Giddens, M. E. O'Donnell, M. Conaway, V. A. Stallings, W. C. Chumlea, R. C. Henderson, E. B. Fung, P. L. Rosenbaum, L. Samson-Fang, G. S. Liptak, R. E. Calvert, and R. D. Stevenson, "Secondary Sexual Characteristics in Children With Cerebral Palsy and Moderate to Severe Motor Impairment: A Cross-Sectional Survey," *Pediatrics*, vol. 110, no. 5, pp. 897–902, Nov. 2002.

- [16] R. W. Blum, M. D. Resnick, R. Nelson, and A. S. Germaine, "Family and Peer Issues Among Adolescents With Spina Bifida and Cerebral Palsy," *Pediatrics*, vol. 88, no. 2, pp. 280–285, Aug. 1991.
- [17] P.-A. Michaud, J.-C. Suris, and R. Viner, "The adolescent with a chronic condition. Part II: healthcare provision," *Arch Dis Child*, vol. 89, no. 10, pp. 943–949, Oct. 2004.
- [18] T. Weisner, C. Matheson, J. Coots, L. Bernheimer, A. Maynard, and M. Martini, "Sustainability of Daily Routines as a Family Outcome," in *Learning in Cultural Context*, A. Marsella, Ed. Springer US, 2005, pp. 41–73.
- [19] M. H. Livingston, D. Stewart, P. L. Rosenbaum, and D. J. Russell, "Exploring issues of participation among adolescents with cerebral palsy: what's important to them?," *Phys Occup Ther Pediatr*, vol. 31, no. 3, pp. 275–287, Aug. 2011.
- [20] M. Donkervoort, M. Roebroek, D. Wiegerink, H. van der Heijden-Maessen, H. Stam, and The Transition Research Group South, "Determinants of functioning of adolescents and young adults with cerebral palsy," *Disability & Rehabilitation*, vol. 29, no. 6, pp. 453–463, Jan. 2007.
- [21] J. M. Engel, T. J. Petrina, B. J. Dudgeon, and K. A. McKearnan, "Cerebral palsy and chronic pain: a descriptive study of children and adolescents," *Phys Occup Ther Pediatr*, vol. 25, no. 4, pp. 73–84, 2005.
- [22] S. Doralp and D. J. Bartlett, "The prevalence, distribution, and effect of pain among adolescents with cerebral palsy," *Pediatr Phys Ther*, vol. 22, no. 1, pp. 26–33, 2010.
- [23] K. Parkinson, L. Gibson, H. Dickinson, and A. Colver, "Pain in children with cerebral palsy: a cross-sectional multicentre European study," *Acta Paediatrica*, vol. 99, no. 3, pp. 446–451, 2010.
- [24] C. M. Houlihan, M. O'Donnell, M. Conaway, and R. D. Stevenson, "Bodily pain and health-related quality of life in children with cerebral palsy," *Developmental Medicine & Child Neurology*, vol. 46, no. 5, pp. 305–310, 2004.
- [25] M. Wake, L. S. Ba, and D. Reddihough, "Health status of Australian children with mild to severe cerebral palsy: cross-sectional survey using the Child Health Questionnaire," *Developmental Medicine & Child Neurology*, vol. 45, no. 3, pp. 194–199, 2003.
- [26] C. I. Roscigno, "Addressing spasticity-related pain in children with spastic cerebral palsy," *J Neurosci Nurs*, vol. 34, no. 3, pp. 123–133, Jun. 2002.
- [27] D. M. Ehde, M. P. Jensen, J. M. Engel, J. A. Turner, A. J. Hoffman, and D. D. Cardenas, "Chronic pain secondary to disability: a review," *Clin J Pain*, vol. 19, no. 1, pp. 3–17, Feb. 2003.
- [28] J. Parkes, M. White-Koning, H. O. Dickinson, U. Thyen, C. Arnaud, E. Beckung, J. Fauconnier, M. Marcelli, V. McManus, S. I. Michelsen, K. Parkinson, and A. Colver, "Psychological problems in children with cerebral palsy: a cross-sectional European study," *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, vol. 49, no. 4, pp. 405–413, 2008.
- [29] J. C. Brehaut, D. E. Kohen, P. Raina, S. D. Walter, D. J. Russell, M. Swinton, M. O'Donnell, and P. Rosenbaum, "The Health of Primary Caregivers of Children With Cerebral Palsy: How Does It Compare With That of Other Canadian Caregivers?," *Pediatrics*, vol. 114, no. 2, pp. e182–e191, Aug. 2004.
- [30] J. Parkes, B. Caravale, M. Marcelli, F. Franco, and A. Colver, "Parenting stress and children with cerebral palsy: a European cross-sectional survey," *Developmental Medicine & Child Neurology*, vol. 53, no. 9, pp. 815–821, 2011.
- [31] J. Parkes and C. McCusker, "Common psychological problems in cerebral palsy," *Paediatrics and Child Health*, vol. 18, no. 9, pp. 427–431, Sep. 2008.

- [32] K. S. Frey, M. T. Greenberg, and R. R. Fewell, "Stress and coping among parents of handicapped children: a multidimensional approach," *Am J Ment Retard*, vol. 94, no. 3, pp. 240–249, Nov. 1989.
- [33] L. P. Barakat and J. A. Linney, "Children with physical handicaps and their mothers: the interrelation of social support, maternal adjustment, and child adjustment," *J Pediatr Psychol*, vol. 17, no. 6, pp. 725–739, Dec. 1992.
- [34] J. Hinojosa and J. Anderson, "Mothers' perceptions of home treatment programs for their preschool children with cerebral palsy," *Am J Occup Ther*, vol. 45, no. 3, pp. 273–279, Mar. 1991.
- [35] G. King, M. Law, S. King, P. Rosenbaum, M. K. Kertoy, and N. L. Young, "A conceptual model of the factors affecting the recreation and leisure participation of children with disabilities," *Phys Occup Ther Pediatr*, vol. 23, no. 1, pp. 63–90, 2003.
- [36] A. Majnemer, M. Shevell, M. Law, R. Birnbaum, G. Chilingaryan, P. Rosenbaum, and C. Poulin, "Participation and enjoyment of leisure activities in school-aged children with cerebral palsy," *Developmental Medicine & Child Neurology*, vol. 50, no. 10, pp. 751–758, Sep. 2008.
- [37] J. Parkes, N. McCullough, and A. Madden, "To what extent do children with cerebral palsy participate in everyday life situations?," *Health & Social Care in the Community*, vol. 18, no. 3, pp. 304–315, 2010.
- [38] G. N. Holmbeck, E. F. Bruno, and B. Jandasek, "Longitudinal Research in Pediatric Psychology: An Introduction to the Special Issue," *J. Pediatr. Psychol.*, vol. 31, no. 10, pp. 995–1001, Nov. 2006.
- [39] A. Colver and the S. Group, "Study protocol: SPARCLE – a multi-centre European study of the relationship of environment to participation and quality of life in children with cerebral palsy," *BMC Public Health*, vol. 6, no. 1, p. 105, Apr. 2006.
- [40] A. F. Colver and H. O. Dickinson, "Study protocol: Determinants of participation and quality of life of adolescents with cerebral palsy: a longitudinal study (SPARCLE2)," *BMC Public Health*, vol. 10, p. 280, May 2010.
- [41] L. Noreau, C. Lepage, L. Boissiere, R. Picard, P. Fougereyrollas, J. Mathieu, G. Desmarais, and L. Nadeau, "Measuring participation in children with disabilities using the Assessment of Life Habits," *Developmental Medicine & Child Neurology*, vol. 49, no. 9, pp. 666–671, 2007.
- [42] R. Palisano, P. Rosenbaum, S. Walter, D. Russell, E. Wood, and B. Galuppi, "Development and reliability of a system to classify gross motor function in children with cerebral palsy," *Developmental Medicine & Child Neurology*, vol. 39, no. 4, pp. 214–223, 1997.
- [43] R. Goodman, "The Strengths and Difficulties Questionnaire: A Research Note," *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, vol. 38, no. 5, pp. 581–586, 1997.
- [44] R. Goodman, "Psychometric Properties of the Strengths and Difficulties Questionnaire," *Journal of the American Academy of Child & Adolescent Psychiatry*, vol. 40, no. 11, pp. 1337–1345, Nov. 2001.
- [45] R. R. Abidin, *Parenting Stress Index: Professional Manual*, 3rd ed. Odessa, FL: Psychological Assessment Resources, Inc., 1995.
- [46] R. B. Kline, *Principles and Practice of Structural Equation Modeling*, 3rd ed. New York: The Guilford Press, 2011.
- [47] T. Raykov and G. A. Marcoulides, *Introduction to Psychometric Theory*. New York: Taylor and Francis, 2011.

- [48] B. Muthén, “Latent variable structural equation modeling with categorical data,” *Journal of Econometrics*, vol. 22, no. 1–2, pp. 43–65, mai 1983.
- [49] B. O. Muthén and L. K. Muthén, *Mplus User’s Guide*, 6th ed. Los Angeles, CA: Muthén & Muthén, 2008.
- [50] A. T. Pakula, K. Van Naarden Braun, and M. Yeargin-Allsopp, “Cerebral palsy: classification and epidemiology,” *Phys Med Rehabil Clin N Am*, vol. 20, no. 3, pp. 425–452, Aug. 2009.
- [51] B. Muthén, “A general structural equation model with dichotomous, ordered categorical, and continuous latent variable indicators,” *Psychometrika*, vol. 49, no. 1, pp. 115–132, 1984.
- [52] U. Olsson, “Maximum likelihood estimation of the polychoric correlation coefficient,” *Psychometrika*, vol. 44, no. 4, pp. 443–460, 1979.
- [53] J. S. Uebersax, “The tetrachoric and polychoric correlation coefficients. Statistical Methods for Rater Agreement web site.” 2006.
- [54] U. Olsson, F. Drasgow, and N. Dorans, “The polyserial correlation coefficient,” *Psychometrika*, vol. 47, no. 3, pp. 337–347, 1982.
- [55] J. J. McArdle, “Latent Variable Modeling of Differences and Changes with Longitudinal Data,” *Annual Review of Psychology*, vol. 60, no. 1, pp. 577–605, 2009.
- [56] D. P. MacKinnon, C. M. Lockwood, J. M. Hoffman, S. G. West, and V. Sheets, “A Comparison of Methods to Test Mediation and Other Intervening Variable Effects,” *Psychol Methods*, vol. 7, no. 1, p. 83, Mar. 2002.
- [57] K. Preacher and A. Hayes, “Asymptotic and resampling strategies for assessing and comparing indirect effects in multiple mediator models,” *Behavior Research Methods*, vol. 40, no. 3, pp. 879–891, 2008.
- [58] B. O. Muthén, S. H. C. Du Toit, and D. Spisic, “Robust inference using weighted least squares and quadratic estimating equations in latent variable modeling with categorical and continuous outcomes,” Technical Report, 1997.
- [59] P.-W. Lei, “Evaluating estimation methods for ordinal data in structural equation modeling,” *Quality & Quantity*, vol. 43, no. 3, pp. 495–507, 2009.
- [60] T. Asparouhov and B. O. Muthén, “Weighted Least Squares Estimation with Missing Data.” Aug-2010.
- [61] R. C. MacCallum, M. W. Browne, and H. M. Sugawara, “Power analysis and determination of sample size for covariance structure modeling,” *Psychological Methods*, vol. 1, no. 2, pp. 130–149, 1996.
- [62] L. Hu and P. M. Bentler, “Cutoff criteria for fit indexes in covariance structure analysis: Conventional criteria versus new alternatives,” *Structural Equation Modeling: A Multidisciplinary Journal*, vol. 6, no. 1, pp. 1–55, 1999.
- [63] A. Satorra and P. Bentler, “A scaled difference chi-square test statistic for moment structure analysis,” *Psychometrika*, vol. 66, no. 4, pp. 507–514, 2001.
- [64] B. O. Muthén, *Mplus Technical Appendices*. Los Angeles, CA: Muthén & Muthén, 1998.
- [65] R. C. MacCallum, M. Roznowski, and L. B. Necowitz, “Model modifications in covariance structure analysis: The problem of capitalization on chance,” *Psychological Bulletin*, vol. 111, no. 3, pp. 490–504, 1992.
- [66] R. C. MacCallum, D. T. Wegener, B. N. Uchino, and L. R. Fabrigar, “The problem of equivalent models in applications of covariance structure analysis,” *Psychol Bull*, vol. 114, no. 1, pp. 185–199, Jul. 1993.

- [67] H. O. Dickinson, M. Rapp, C. Arnaud, M. Carlsson, A. F. Colver, J. Fauconnier, A. Lyons, M. Marcelli, S. I. Michelsen, J. Parkes, and K. Parkinson, "Predictors of drop-out in a multi-centre longitudinal study of participation and quality of life of children with cerebral palsy," *BMC Research Notes*, vol. 5, no. 1, p. 300, Jun. 2012.
- [68] P. Raina, M. O'Donnell, P. Rosenbaum, J. Brehaut, S. D. Walter, D. Russell, M. Swinton, B. Zhu, and E. Wood, "The Health and Well-Being of Caregivers of Children With Cerebral Palsy," *Pediatrics*, vol. 115, no. 6, pp. e626–e636, Jun. 2005.
- [69] M. Brossard-Racine, N. Hall, A. Majnemer, M. I. Shevell, M. Law, C. Poulin, and P. Rosenbaum, "Behavioural problems in school age children with cerebral palsy," *European Journal of Paediatric Neurology*, vol. 16, no. 1, pp. 35–41, Jan. 2012.
- [70] R. Goodman and P. Graham, "Psychiatric problems in children with hemiplegia: cross sectional epidemiological survey," *BMJ*, vol. 312, no. 7038, pp. 1065–1069, Apr. 1996.
- [71] J. M. Voorman, A. J. Dallmeijer, C. Schuengel, D. L. Knol, G. J. Lankhorst, and J. G. Becher, "Activities and participation of 9- to 13-year-old children with cerebral palsy," *Clin Rehabil*, vol. 20, no. 11, pp. 937–948, Nov. 2006.
- [72] E. Sellier, V. Horber, I. Krägeloh-Mann, J. De La Cruz, C. Cans, and O. behalf of the S. Collaboration, "Interrater reliability study of cerebral palsy diagnosis, neurological subtype, and gross motor function," *Developmental Medicine & Child Neurology*, vol. 54, no. 9, pp. 815–821, 2012.
- [73] S. I. Mihaylov, S. N. Jarvis, A. F. Colver, and B. Beresford, "Identification and description of environmental factors that influence participation of children with cerebral palsy," *Developmental Medicine & Child Neurology*, vol. 46, no. 5, pp. 299–304, 2004.
- [74] K. L. Hadden and C. L. von Baeyer, "Pain in children with cerebral palsy: common triggers and expressive behaviors," *Pain*, vol. 99, no. 1–2, pp. 281–288, Sep. 2002.
- [75] J. Kennes, P. Rosenbaum, S. E. Hanna, S. Walter, D. Russell, P. Raina, D. Bartlett, and B. Galuppi, "Health status of school-aged children with cerebral palsy: information from a population-based sample," *Developmental Medicine & Child Neurology*, vol. 44, no. 4, pp. 240–247, 2002.
- [76] J. Manuel, M. J. Naughton, R. Balkrishnan, B. P. Smith, and L. A. Koman, "Stress and Adaptation in Mothers of Children With Cerebral Palsy," *J. Pediatr. Psychol.*, vol. 28, no. 3, pp. 197–201, Apr. 2003.
- [77] M. G. Sawyer, M. Bittman, A. M. La Greca, A. D. Crettenden, N. Borojevic, P. Raghavendra, and R. Russo, "Time demands of caring for children with cerebral palsy: what are the implications for maternal mental health?," *Developmental Medicine & Child Neurology*, vol. 53, no. 4, pp. 338–343, 2011.
- [78] S. J. Berrin, V. L. Malcarne, J. W. Varni, T. M. Burwinkle, S. A. Sherman, K. Artavia, and H. G. Chambers, "Pain, Fatigue, and School Functioning in Children with Cerebral Palsy: A Path-Analytic Model," *J. Pediatr. Psychol.*, vol. 32, no. 3, pp. 330–337, Apr. 2007.
- [79] R. J. Palisano, M. Orlin, L. A. Chiarello, D. Oeffinger, M. Polansky, J. Maggs, G. Gorton, A. Bagley, C. Tylkowski, L. Vogel, M. Abel, and R. Stevenson, "Determinants of Intensity of Participation in Leisure and Recreational Activities by Youth With Cerebral Palsy," *Archives of Physical Medicine and Rehabilitation*, vol. 92, no. 9, pp. 1468–1476, Sep. 2011.
- [80] J. E. Jan, J. A. Owens, M. D. Weiss, K. P. Johnson, M. B. Wasdell, R. D. Freeman, and O. S. Ipsiroglu, "Sleep Hygiene for Children With Neurodevelopmental Disabilities," *Pediatrics*, vol. 122, no. 6, pp. 1343–1350, Dec. 2008.

- [81] K. M. Plant and M. R. Sanders, "Predictors of care-giver stress in families of preschool-aged children with developmental disabilities," *Journal of Intellectual Disability Research*, vol. 51, no. 2, pp. 109–124, 2007.
- [82] W. S. Rosenbaum PL, "Prognosis for gross motor function in cerebral palsy: Creation of motor development curves," *JAMA: The Journal of the American Medical Association*, vol. 288, no. 11, pp. 1357–1363, Sep. 2002.
- [83] M. H. Livingston and P. L. Rosenbaum, "Adolescents with cerebral palsy: stability in measurement of quality of life and health-related quality of life over 1 year," *Developmental Medicine & Child Neurology*, vol. 50, no. 9, pp. 696–701, 2008.
- [84] J. Vargus-Adams, "Longitudinal use of the Child Health Questionnaire in childhood cerebral palsy," *Developmental Medicine & Child Neurology*, vol. 48, no. 5, pp. 343–347, 2006.
- [85] R. Goodman, "The longitudinal stability of psychiatric problems in children with hemiplegia," *J Child Psychol Psychiatry*, vol. 39, no. 3, pp. 347–354, Mar. 1998.
- [86] R. F. Sipal, C. Schuengel, J. M. Voorman, M. Van Eck, and J. G. Becher, "Course of behaviour problems of children with cerebral palsy: the role of parental stress and support," *Child: Care, Health and Development*, vol. 36, no. 1, pp. 74–84, 2010.
- [87] N. Dahan-Oliel, K. Shikako-Thomas, and A. Majnemer, "Quality of life and leisure participation in children with neurodevelopmental disabilities: a thematic analysis of the literature," *Quality of Life Research*, vol. 21, no. 3, pp. 427–439, 2012.
- [88] A. D. Mandich, H. J. Polatajko, and S. Rodger, "Rites of passage: understanding participation of children with developmental coordination disorder," *Hum Mov Sci*, vol. 22, no. 4–5, pp. 583–595, Nov. 2003.
- [89] B. Young, H. Rice, M. Dixon-Woods, A. F. Colver, and K. N. Parkinson, "A qualitative study of the health-related quality of life of disabled children," *Developmental Medicine & Child Neurology*, vol. 49, no. 9, pp. 660–665, 2007.
- [90] J. A. Weiss, A. Sullivan, and T. Diamond, "Parent stress and adaptive functioning of individuals with developmental disabilities," *JOURNAL ON DEVELOPMENTAL DISABILITIES*, vol. 10, no. 1, pp. 129–136, 2003.
- [91] K. Castle, C. Imms, and L. Howie, "Being in pain: a phenomenological study of young people with cerebral palsy," *Dev Med Child Neurol*, vol. 49, no. 6, pp. 445–449, Jun. 2007.
- [92] H. E. VIEHWEGER, "Optimisation de l'Évaluation Globale de l'Enfant atteint de Paralysie Cérébrale à Potentiel de Marche. Intégration de la Qualité de Vie liée à la Santé et des Capacités et Performances dans le Domaine de la Vie Quotidienne.," Doctorat en sciences économiques et gestion, UNIVERSITE DE LA MEDITERRANEE, Faculté de Médecine de Marseille, Marseille, 2007.
- [93] A. F. Colver, "Self-report of Painful Situations by Adolescents with Cerebral Palsy." Oct-2011.
- [94] I. L. Beale, "Scholarly Literature Review: Efficacy of Psychological Interventions for Pediatric Chronic Illnesses," *J. Pediatr. Psychol.*, vol. 31, no. 5, pp. 437–451, Jun. 2006.
- [95] J. H. Barlow, L. A. Cullen-Powell, and A. Cheshire, "Psychological well-being among mothers of children with cerebral palsy," *Early Child Development and Care*, vol. 176, no. 3–4, pp. 421–428, 2006.

UNIVERSITE JOSEPH FOURIER

Résumé

DETERMINANTS DE LA PARTICIPATION CHEZ LES ADOLESCENTS AVEC
PARALYSIE CEREBRALE : UNE ETUDE LONGITUDINALE EUROPEENNE

par M. Van Mô DANG

La présente thèse étudie la participation des adolescents avec paralysie cérébrale dans les situations de vie habituelles, à travers ses associations avec trois déterminants de l'enfance accessibles à une prévention : douleurs, problèmes psycho-comportementaux et stress parental.

L'étude épidémiologique longitudinale prospective a porté sur une cohorte multicentrique représentative d'enfants avec paralysie cérébrale dans neuf régions de sept pays Européens, vus à l'enfance puis à l'adolescence. Dans chaque domaine de participation, on ajuste un modèle d'équations structurelles ; les déterminants de la participation sont intégrés à l'aide d'une régression hiérarchique ascendante ajustée sur la déficience, la participation à l'enfance, le centre, l'âge et le sexe.

Sur les 818 enfants initialement inclus, 594 ont été revus à l'adolescence. Douleur et stress parental à l'enfance sont associés à une participation altérée à l'adolescence dans tous les domaines d'activités quotidiennes sauf la communication, ainsi que dans les domaines des relations et des loisirs. Les troubles psycho-comportementaux à l'enfance sont associés à une participation altérée dans tous les domaines de rôles sociaux, et dans les domaines des soins personnels et de la communication. L'effet des déterminants de l'enfance s'exerce sur la participation adolescente principalement par le biais de la participation à l'enfance.

Les résultats suggèrent que la participation des adolescents avec paralysie cérébrale pourrait être améliorée par des interventions précoces et continues sur la douleur, les problèmes psycho-comportementaux et le stress parental.