Troubles de l'oralité alimentaire : le cas particulier de la mucoviscidose : enquête auprès des parents et des professionnels de santé

Laura Reynaud

▶ **To cite this version:**

Laura Reynaud. Troubles de l'oralité alimentaire : le cas particulier de la mucoviscidose : enquête auprès des parents et des professionnels de santé. Sciences cognitives. 2019. dumas-02280005

HAL Id: dumas-02280005

https://dumas.ccsd.cnrs.fr/dumas-02280005

Submitted on 5 Sep 2019

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.

Université de Caen Normandie

UFR Santé – Département d'Orthophonie de Caen

MÉMOIRE

En vue de l'obtention du *Certificat de Capacité d'Orthophoniste*

TROUBLES DE L'ORALITÉ ALIMENTAIRE : LE CAS PARTICULIER DE LA MUCOVISCIDOSE

Enquête auprès des parents et des professionnels de santé

Présenté par : **Laura REYNAUD**, née le 06 juin 1994

Sous la direction de : **Murielle KOSMAN** (Orthophoniste, Verson)

Perrine VINCENT (Psychologue, CRCM de Caen)

Année universitaire 2018/2019

REMERCIEMENTS

Tout d'abord, je tiens à remercier chaleureusement mes directrices de mémoire, *Murielle Kosman* et *Perrine Vincent*. Leur soutien, leur disponibilité et leurs précieux conseils m'ont permis d'accomplir ce travail dans des conditions idéales.

J'adresse mes sincères remerciements :

À *l'équipe du docteur Laurans* du CRCM de Caen pour son accueil, son soutien et son aide dans la mise en place et le suivi du projet.

Aux *CRCM* ayant participé à l'étude et à *Mme Santamaria, directrice de l'école maternelle d'Alzonne,* pour avoir accepté de diffuser le questionnaire aux familles. Aux *parents et professionnels* ayant répondu aux questionnaires. Sans eux, cette étude n'existerait pas.

À *Peggy Quinette* et *Stéphane Daumillare* pour leur aide concernant le traitement statistique.

Aux membres du jury, pour avoir accepté d'évaluer mon travail.

À *mes maîtres de stage* pour m'avoir accompagnée et transmis leur passion pour ce métier durant ces cinq années d'études.

À *Corinne Drillet et toute l'équipe pédagogique* pour la qualité de la formation apportée.

Les moments vécus durant ces cinq années d'études, des plus difficiles aux plus heureux, n'auraient pas été aussi précieux s'ils n'avaient pas été partagés avec ma coloc', *Élise*. Merci à elle ainsi qu'à mes amies de promo, *Marion* et *Romane* et à ma partenaire de voyage, *Julia*.

Un grand merci à *mes parents* pour leur soutien infaillible, depuis la préparation du concours jusqu'à ce jour. Merci à *mes sœurs*, *mes grands-parents* et *toute la famille* pour leurs encouragements. Merci à mes amies d'enfance les plus fidèles, *Ophélie et Margot*, pour leur présence depuis toujours, de près comme de loin. Merci à *Baptiste* pour tout ce qu'il apporte à mon quotidien.

À *Papi* et *tata Françoise*, partis pendant mes années d'études.

TABLE DES MATIÈRES

Introduction **1**

1. Partie théorique **2**

1.1 L'ORALITE ALIMENTAIRE 2

1.1.1 Définition 2

1.1.2 Le développement typique 2

1.1.3 L'oralité troublée 3

1.2 LE CAS PARTICULIER DE LA MUCOVISCIDOSE 6

1.2.1 Description, sémiologie et prise en charge 6

1.2.2 Facteurs de risque de troubles de l'oralité alimentaire dans la mucoviscidose 8

1.2.3 Outils existants et études 9

2. Position du problème et hypothèses **11**

3. Méthodologie expérimentale **12**

3.1 POPULATION D'ÉTUDE 12

3.1.1 Critères de recrutement 12

3.1.2 Description de la population 12

3.2 MATÉRIEL ET MÉTHODE 14

3.2.1 Questionnaire à destination des parents 14

3.2.2 Questionnaire à destination des professionnels des CRCM 18

3.3 PROCÉDURE 18

3.4 ANALYSES STATISTIQUES 19

3.4.1 Questionnaire à destination des parents 19

3.4.2 Questionnaire à destination des professionnels des CRCM 21

4. Résultats **22**

4.1 RÉSULTATS DE L'ENQUETE AUPRÈS DES PARENTS 22

4.2 RÉSULTATS DE L'ENQUETE AUPRÈS DES PROFESSIONNELS DES CRCM 27

5. Discussion **30**

5.1 INTERPRÉTATION DES RÉSULTATS 30

5.1.1 Interprétation des résultats de l'enquête auprès des parents 30

5.1.2 Interprétation des résultats de l'enquête auprès des professionnels des CRCM 32

5.2 LIMITES ET PERSPECTIVES 33

6. Conclusion **36**

Bibliographie **37**

Sommaires des tableaux et des figures **41**

Sommaire des annexes **43**

GLOSSAIRE

CRCM	Centre de Ressources et de Compétences de la Mucoviscidose
FR	Facteurs de Risque
PEC	Prise En Charge
RGO	Reflux Gastro-Oesophagien
SC	Signes Cliniques
SU	Stratégies Utilisées
TOA	Troubles de l'Oralité Alimentaire
VP	Vécu parental

INTRODUCTION

Ce mémoire est le fruit d'une réflexion commune partant d'un constat clinique : certains enfants atteints de mucoviscidose sont orientés vers un orthophoniste par les Centres de Ressources et de Compétences de la Mucoviscidose (CRCM) pour des Troubles de l'Oralité Alimentaire (TOA). En quatrième année, lors de mon stage en libéral au cabinet de madame Murielle Kosman, cette observation a suscité mon intérêt. Après avoir effectué des recherches et échangé avec l'équipe du CRCM de Caen, il m'est apparu que l'alimentation était une problématique majeure dans cette maladie. « *En tant que parent [d'enfant atteint de mucoviscidose], l'enjeu de la prise de poids est tellement important que l'on oublie d'apprendre le plaisir de la nourriture* », expliquait un parent ayant participé à notre enquête. En effet, l'alimentation est à la fois un besoin vital et un plaisir sensoriel et convivial. Les TOA ou « dysoralités » correspondent à l'ensemble des difficultés à s'alimenter par voie orale, c'est-à-dire par la bouche (Leblanc, 2014). Ces troubles toucheraient 25 % des enfants de la population générale et jusqu'à 80 % des enfants dont le développement est perturbé (Manikam et Perman, 2000 ; Tessier, 2010). L'hétérogénéité des causes et des tableaux cliniques des TOA rend leur compréhension et leur Prise En Charge (PEC) complexes. Dans tous les cas, sont constatés des retentissements psychologiques et relationnels et leurs conséquences à moyen et long terme ne doivent pas être ignorées (Mouren, Doyen, Le Heuzey et Cook-Darzens, 2011). Une intervention précoce et pluridisciplinaire s'impose, pour tenter de prévenir les difficultés importantes (Abadie 2004a ; Le Heuzey, 2006). C'est tout récemment, en avril 2018, que les TOA sont entrés officiellement dans le champ de compétences des orthophonistes avec l'apparition du bilan et de la PEC de ces troubles dans la NGAP[1] (Ministère des Solidarités et de la Santé, 2017). Le peu d'informations retrouvées dans la littérature concernant les liens entre TOA et mucoviscidose n'a fait que renforcer ma volonté de mener une étude plus approfondie qui s'inscrirait parfaitement dans le cadre du mémoire de fin d'études.

Premièrement, nous détaillerons ce que le terme « TOA » recouvre après avoir abordé le développement typique de l'oralité. Puis nous exposerons l'état des connaissances actuelles sur les liens possibles entre TOA et mucoviscidose, à travers une revue de littérature. Nous présenterons ensuite les hypothèses et les outils supports de notre travail de recherche ainsi que les résultats obtenus et les ouvertures sur de nouvelles réflexions qui en découlent.

[1] Nomenclature Générale des Actes Professionnels

1. PARTIE THEORIQUE

1.1 L'oralité alimentaire

1.1.1 Définition

L'oralité concerne l'ensemble des fonctions orales dévolues à la bouche : alimentation, respiration, langage et communication, relations érogènes, exploration sensorielle, attachement (Abadie, 2004b). Elle met en jeu des organes variés tels que la bouche, les systèmes respiratoire et digestif. On distingue deux oralités : verbale et alimentaire. L'oralité alimentaire désigne les capacités alimentaires orales (Thibault, 2017). Manger est un besoin vital mais aussi un plaisir sensoriel et convivial (Leblanc, 2014).

1.1.2 Le développement typique

Le développement de l'oralité est sous-tendu par 4 « piliers fondamentaux » : organiques, moteurs et gnoso-praxiques, sensoriels, environnementaux, développés ci-dessous. Ils sont soutenus par la boucle émotionnelle régulant la sensation de plaisir (Levavasseur, 2017).

La cavité bucco-pharyngée se situe au carrefour des fonctions vitales d'alimentation et de respiration. Les structures anatomiques de l'oralité ne se limitent pas à la bouche ; elles comprennent également les appareils respiratoire et digestif (Mercier, 2004).

Les aspects moteurs de l'oralité se mettent en place dès la période in-utero. La succion, déclenchée par le réflexe de Hooker, puis la déglutition, apparaissent successivement entre la dixième et la quinzième semaine de gestation. La coordination réflexe succion-déglutition est mature à la naissance et indispensable pour la tétée. Cette oralité primaire est sous-tendue essentiellement par le tronc cérébral. Entre quatre et sept mois, le passage à la cuillère inaugure une nouvelle stratégie alimentaire qui va coexister avec le réflexe de succion nutritive pendant un à deux ans : c'est la période de la double stratégie. Avec l'apparition des dents, le nourrisson va passer progressivement du réflexe de succion à la praxie de mastication. La phase orale devient volontaire ; elle nécessite un apprentissage de praxies complexes. On parle d'« oralité secondaire » (Thibault, 2017).

Les capacités sensorielles nécessaires à la fonction d'alimentation se développent et s'affinent progressivement (Arvedson, cité par Tessier, 2010). L'aliment procure un message sensoriel, composé de sensations olfactives, gustatives, tactiles, visuelles, auditives, proprioceptives. Les schémas sensoriels se construiront au gré des expériences

sensorielles proposées par l'environnement familial. L'association de ces différentes sensations permettra d'accepter un aliment avec plaisir ou au contraire, de l'identifier comme étant nocif pour la santé ou « dégoûtant » (Tessier, 2010).

Nos sociétés occidentales placent l'alimentation au cœur des problématiques socio-culturelles. Les habitudes alimentaires familiales et culturelles, le style éducatif parental, les aspects sociaux et hédoniques des repas sont autant de facteurs déterminants dans le développement de l'oralité (Levavasseur, 2017).

1.1.3 L'oralité troublée

Le TOA ou « dysoralité » recouvre l'ensemble des difficultés d'alimentation par voie orale (Thibault, 2017). Plus de 25 % des enfants en bonne santé présenteraient des TOA. Ils seraient plus fréquents chez les enfants dont le développement est perturbé (Linscheid, cité par Tessier, 2010 ; Manikam et Perman, 2000 ; Mouren *et al.*, 2011 ; Ramsay, 2001).

- ***Étiologie***

Les origines des TOA sont multiples et complexes (Abadie, 2004a ; Cascales, Olives, Bergeron, Chatagner et Raynaud, 2014 ; Lecoufle et Lesecq-Lambre, 2016). Il est difficile de ne pas confondre les causes et les conséquences de ces troubles (Cascales *et al.*, 2014).

Certaines origines sont organiques. Des pathologies digestives (reflux gastro-œsophagien[2], douleurs abdominales, maladie cœliaque) ou extra-digestives (pathologies pulmonaires, cardiopathies, allergies et intolérances alimentaires) peuvent être à l'origine de difficultés alimentaires. Par exemple, le Reflux Gastro-Œsophagien (RGO) peut être source de brûlure et d'irritation. Il peut se manifester par des vomissements, une hypersensibilité buccale, un refus de s'alimenter (Mion et Roman, 2004). Les difficultés alimentaires peuvent également exister chez des patients présentant une fente oro-faciale, une maladie génétique ou une anomalie congénitale ou acquise de la déglutition retrouvée dans certains syndromes ou atteintes neuromusculaires et neurologiques (Thibault, 2017).

Les origines psychogènes désignent certaines pathologies ou situations familiales (mode d'éducation rigide, dépression du nourrisson, hospitalisation de l'enfant) pouvant entraîner une perturbation des relations parents-enfant, impactant à leur tour les prises alimentaires (Lecoufle et Lesecq-Lambre, 2016 ; Thibault, 2017). L'alimentation devient un moyen d'expression des difficultés relationnelles et psychiques (Thibault, 2017).

[2] Remontée du contenu gastrique vers l'œsophage (RGO)

Les origines post-traumatiques font référence aux expériences traumatiques de la sphère oro-digestive : étouffement, vomissement, réflexe nauséeux sévère, épisode d'intubation et d'extubation, nutrition entérale[3], intervention chirurgicale majeure. L'exemple typique est celui des nourrissons nés prématurément (Cascales *et al*., 2014 ; Haddad, 2017). La nutrition entérale, indispensable à la survie du nouveau-né, peut impacter l'oralité de différentes manières en fonction des techniques utilisées : absence de stimulations sensorielles, déséquilibre des sensations de faim et de satiété, haut-le-cœur et vomissements en cas de débit trop élevé, perturbation des relations parents-enfant. L'enfant peut devenir passif dans l'acte alimentaire, et le plaisir oral absent (Mercier, 2004 ; Senez, 2015). Ces situations peuvent ainsi être à l'origine d'une absence d'expérimentation orale et/ou d'un investissement négatif de la sphère orale (Thibault, 2017).

Enfin, les troubles qualifiés d'« aversions sensorielles alimentaires » par Irène Chatoor (citée par Cascales *et al*., 2014) ou de « Syndrome de Dysoralité Sensorielle » par Catherine Senez (2015) ont un point commun : la présence de critères sensoriels dans le TOA (Lecoufle et Lesecq-Lambre, 2016). Ils sont caractérisés par une hypersensorialité ou une hyposensorialité de la sphère orale pouvant s'étendre à tout le corps, comme des difficultés à supporter les soins d'hygiène bucco-dentaire (Prudhon, 2017). Par exemple, les enfants atteints de troubles du spectre autistique présentent de nombreuses particularités sensorielles et alimentaires (Prudhon, 2017).

En conclusion, il est complexe de différencier les facteurs organiques des facteurs psychologiques dans l'étiologie des TOA (Thibault, 2017). En clinique, une étiologie le plus souvent mixte est retrouvée (Cascales *et al*., 2014), avec des origines intriquées et non isolées (Lecoufle et Lesecq-Lambre, 2016). Cependant, indépendamment de l'étiologie, des conséquences psychologiques sont constatées (Cascales *et al*., 2014).

- ***Sémiologie***

Les tableaux cliniques des TOA sont multiples (Lecoufle et Lesecq-Lambre, 2016).

En dehors des repas, une absence d'expérimentation orale chez le tout-petit peut être retrouvée. L'enfant a peu d'intérêt pour sa sphère oro-faciale et ne porte pas les objets en bouche. Une hypersensorialité de la sphère oro-faciale voire du corps peut se traduire par des nausées, des vomissements, des difficultés à marcher pieds nus dans l'herbe ou le sable, à supporter le brossage de dents, un besoin important de s'essuyer les mains ou la bouche,

[3] Techniques de nutrition artificielle par voie digestive : sonde oro ou naso-gastrique, gastrostomie

une aversion pour le toucher de certaines matières, des défenses comportementales comme des pleurs, de l'agitation, de la colère. Des anomalies des praxies bucco-faciales peuvent entraîner des retards de développement du langage oral (Lecoufle et Lesecq-Lambre, 2016).

Pendant les repas, l'enfant peut présenter un manque d'appétit, une sélectivité alimentaire, un refus de la nouveauté, un réflexe nauséeux, des haut-le-cœur, nausées et vomissements. Le plaisir dans l'acte alimentaire est souvent peu présent voire absent (Cascales *et al*., 2014 ; Lecoufle et Lesecq-Lambre, 2016). Des repas longs, durant plus de 30 minutes, peuvent également être le signe de difficultés (Lebecque et Baran, 2002, Senez, 2015). Les anomalies oro-praxiques peuvent se traduire par des difficultés de succion, de mise en bouche des aliments, de mastication, de déglutition. Par exemple, l'enfant a du mal à manger des morceaux, avale « tout rond » les aliments sans mâcher ou les garde longtemps en bouche sans avaler (Cascales *et al*., 2014). Les manifestations comportementales se traduisent par des réactions d'opposition à l'approche de la nourriture : agitation, grimaces, pleurs, détournement de la tête ou de tout le corps à l'approche de la nourriture, l'enfant repousse ou recrache l'aliment (Grevesse et Hermans, 2017). Les troubles peuvent aller jusqu'au refus total de s'alimenter par voie orale.

En conséquence, tout l'entourage est impacté, notamment la mère (Levavasseur, 2017). Des difficultés dans la fonction d'alimentation auront un retentissement psychique dans la construction de la relation mère-enfant. Elles sont ressenties par la mère comme une incompétence à satisfaire son enfant et une remise en cause de la capacité à être mère, générant sentiment de culpabilité et conflits (Abadie, 2004b). Face aux difficultés de l'enfant, les parents, se sentant désarmés, développent des « stratégies d'alimentation compensatoires » pour le nourrir suffisamment (Ramsay, 2001) mais aussi des attitudes délétères comme le forcing ou les punitions (Levavasseur, 2017). Dans ce contexte, les expériences négatives se répètent pour l'enfant et les interactions familiales se retrouvent perturbées. Le moment des repas devient source de conflits et de stress. Les TOA sont rapidement considérés comme un problème familial (Manikam et Perman, 2000).

- ***Diagnostic et prise en charge***

Les TOA, encore mal connus, sont difficilement repérés par le corps médical et paramédical et les PEC sont souvent trop tardives (Levavasseur, 2017).

Le diagnostic repose sur une anamnèse détaillée explorant les piliers fondamentaux de l'oralité ainsi que sur un examen clinique de la sphère oro-faciale (Abadie, 2004a ; Coquet, 2018 ; Levavasseur, 2017).

Un regard transdisciplinaire (médical, psychologique, psychomoteur, diététique, orthophonique) est nécessaire pour une PEC de l'enfant dans sa globalité (Cohou et Gouineau, 2013 ; Leblanc, Bourgeois, Hardy, Lecoufle et Ruffier, 2012 ; Manikam et Perman, 2000). Le rôle de l'orthophoniste est de proposer à l'enfant des expériences positives lui permettant d'explorer sa sphère orale dans le plaisir (Abadie, 2004a ; Levavasseur, 2017). Pour ce faire, les axes sensoriels, gnoso-praxiques et comportementaux sont travaillés. L'accompagnement parental est un autre axe thérapeutique essentiel (Coquet, 2018). L'orthophoniste soutient, rassure les parents et renforce leurs comportements positifs.

Nous avons vu que les enfants de la population générale ainsi que ceux dont le développement est perturbé peuvent développer des TOA. Nous nous intéresserons ici au cas des enfants atteints de mucoviscidose, pathologie organique dans laquelle l'alimentation est une problématique majeure (Lebecque et Baran, 2002).

1.2 Le cas particulier de la mucoviscidose

1.2.1 Description, sémiologie et prise en charge

La mucoviscidose, ou fibrose kystique du pancréas, est la plus fréquente des maladies génétiques graves chez les sujets d'origine européenne (Navarro et Bellon, 2001). Elle touche environ 6700 personnes en France, dont 45 % d'enfants (Bellis, Dehillotte et Lemonnier, 2017). L'espérance de vie était de moins d'un an dans les années 1950 ; elle dépasse aujourd'hui les 40 ans (Durieu et Josserand, 2008). Elle est caractérisée par une atteinte des appareils respiratoire et digestif. C'est une maladie héréditaire à transmission autosomique récessive[4] (Bellis *et al.*, 2017). Le gène responsable de la maladie code pour la protéine CFTR[5], impliquée dans la régulation du transport d'ions chlorures au niveau de la membrane de nombreuses cellules épithéliales (Anthony, Paxton, Catto-Smith et Phelan, 1999 ; Marguet et Durieu, 2017). Elle a un rôle de fluidification du mucus (Bellis *et al.*, 2017 ; Navarro et Bellon, 2001). Son dysfonctionnement entraîne une altération du mucus dans différents organes, notamment les systèmes respiratoire et digestif (Bellis *et al.*, 2017 ; Mouterde, 2007). Épais et visqueux, le mucus s'accumule et stagne dans les organes. Cette anomalie crée un milieu propice à la colonisation chronique de différents germes plus ou moins pathogènes (Durieu et Josserand, 2008).

[4] Les deux parents doivent être porteurs du gène muté ; le risque de transmettre la maladie à un enfant est de un sur 4.
[5] *Cystic Fibrosis Transmembranous Conductance Regulator*

L'expression clinique de la maladie est variable (Bellis *et al*., 2017 ; Navarro et Bellon, 2001). Son évolution peut être marquée par des périodes d'exacerbations[6] (Durieu et Josserand, 2008). La description ci-après, non exhaustive, cite les atteintes principales.

L'atteinte respiratoire est généralement au premier plan. Le mucus adhère aux parois des bronches, obstruant les voies aériennes et favorisant la croissance de bactéries. Toux chronique, expectorations[7], infections respiratoires et ORL chroniques (bronchiolites, bronchites, sinusites), dyspnée, retard de croissance sont les principales manifestations de cette atteinte (Durieu et Josserand, 2008). Les épisodes infectieux provoquent à terme des lésions pulmonaires irréversibles (Lucazeau et Pacelli, 2010). L'insuffisance respiratoire est la première cause de décès (Navarro et Bellon, 2001).

Les signes de l'atteinte digestive sont essentiellement pancréatiques et gastro-intestinaux. Plus de 90 % des malades présentent une insuffisance pancréatique exocrine, causant stéatorrhée[8], douleurs abdominales, nausées, vomissements, retard de croissance staturo-pondérale (Mouterde, 2007). Cette atteinte pancréatique entraîne un syndrome de maldigestion et une malabsorption des graisses et des protéines. La présence d'un RGO est fréquente (Durieu et Josserand, 2008 ; Mouterde, 2007 ; Navarro et Bellon, 2001).

Les CRCM ont pour mission d'organiser les soins des patients grâce à l'intervention d'une équipe pluridisciplinaire en milieu hospitalier : médecins, infirmiers, kinésithérapeutes, psychologues, diététiciens, éducateurs sportifs, assistantes sociales, secrétaires. Le fonctionnement en réseau repose sur une coordination et une permanence des soins. L'éducation thérapeutique du patient et de sa famille est au cœur du rôle des CRCM (Durieu et Josserand, 2008 ; Marguet et Durieu, 2017).

Il n'existe pas de traitement curatif. La PEC de la mucoviscidose repose sur un traitement symptomatique lourd et contraignant (Bellis *et al*., 2017).

La PEC respiratoire consiste en des séances régulières de kinésithérapie respiratoire, afin de lutter contre l'encombrement bronchique, de réduire l'essoufflement, de faciliter les expectorations et d'entretenir la force musculaire. La pratique d'une activité physique fait partie intégrante de la PEC respiratoire. L'antibiothérapie permet de combattre les infections dès leur apparition (Navarro et Bellon, 2001). La transplantation pulmonaire est possible en derniers recours, en cas d'insuffisance respiratoire terminale (Bellis *et al*., 2017).

[6] Survenue d'un épisode aigu de détérioration clinique sur un état stable
[7] Expulsions par la toux des mucosités des voies respiratoires
[8] Selles anormalement graisseuses

La PEC digestive et nutritionnelle consiste en une alimentation hypercalorique et supplémentée en enzymes pancréatiques, en sel et en vitamines (Navarro et Bellon, 2001). Lorsque l'équilibre staturo-pondéral est menacé, le recours à l'assistance nutritionnelle est possible. La nutrition entérale par voie nasogastrique ou par gastrostomie est alors envisagée (Mouterde, 2007 ; Munck, 2014 ; Quick, Byrd-Bredbenner et Neumark-Sztainer, 2013).

L'accompagnement ne peut se limiter à un suivi médical exclusif. Un soutien psychologique de l'enfant et de son entourage familial, ponctuel ou au long cours, semble primordial (Lebecque et Baran, 2002). La vie d'un patient atteint de mucoviscidose et de sa famille est rythmée par différentes étapes engendrant des déséquilibres psychologiques : traumatismes des annonces du diagnostic, des traitements à suivre, des complications. Le psychologue accueille la souffrance du patient et de sa famille et les accompagne dans leur cheminement psychique (Lucazeau et Pacelli, 2010).

En résumé, l'atteinte des sphères oro-digestive et respiratoire ainsi que les contraintes liées à la PEC soulèvent des interrogations quant au risque, chez les enfants atteints de la maladie, de développer des TOA.

1.2.2 Facteurs de risque de TOA dans la mucoviscidose

- ***Atteintes organiques***

Il existe un lien étroit entre les atteintes organiques pulmonaire et digestive et l'installation d'un état de malnutrition (Anthony *et al.*, 1999 ; Lebecque et Baran, 2002 ; Turck, 2003). Les phénomènes inflammatoires et infectieux, les douleurs abdominales, le RGO, l'encombrement bronchique, les vomissements, la toux, la déglutition de mucus sont source de fatigue et de diminution de l'appétit. Cela entraîne un inconfort général et une diminution des prises alimentaires orales, alors que les besoins énergétiques sont accrus. La prise de poids est difficile et doit être constamment surveillée (Anthony *et al.*, 1999 ; Debray, Mas, Munck, Gerardin et Clouzeau, 2016 ; Mouterde, 2007 ; Lebecque et Baran, 2002). La préoccupation du poids est source d'anxiété parentale, alimentée par la pression médicale. Cette anxiété retentit sur les habitudes alimentaires (Quick *et al.*, 2013).

- ***Sollicitations corporelles négatives***

Les agressions corporelles d'un enfant atteint de mucoviscidose durant la petite enfance peuvent être multiples (Debray *et al.*, 2016). Elles sont dues aux atteintes organiques évoquées ci-dessus et à leurs traitements. La sphère orale peut être malmenée en cas d'hospitalisations répétées et/ou prolongées, d'intubation, de nutrition entérale, de soins

douloureux, d'aspirations buccales et pharyngées fréquentes. Les stimulations négatives autour de la sphère orale peuvent favoriser l'apparition d'une dysoralité alimentaire avec hypersensorialité (Debray *et al*., 2016 ; Skuse, 1993). Tapin, citée par Puech (2001) a montré que la pose tardive d'une gastrostomie dans le cadre de la mucoviscidose était un facteur favorisant le refus alimentaire.

- ***Anxiété et pression parentales***

L'état nutritionnel étant fortement corrélé à la fonction respiratoire et à la survie des patients, la surveillance régulière de la croissance est au premier plan dans la PEC de la maladie (Munck, 2014). L'alimentation doit être minutieusement surveillée, tant en quantité qu'en qualité. Lebecque et Baran (2002) parlent d'une « prescription alimentaire à suivre ». Pour les parents, l'alimentation est à la fois une tâche parentale typique et une tâche de prise en charge de la maladie (Mitchell, Powers, Byars, Dickstein et Stark, 2004). Ceci peut aboutir à des situations de pression alimentaire de la part des parents, consciencieux et inquiets. La pression parentale accentue la résistance de l'enfant qui ressent l'anxiété ; réactions d'opposition et refus alimentaire se multiplient (Clouzeau, 2015 ; Debray *et al*., 2016 ; Lebecque et Baran, 2002). « L'accent mis sur l'importance de l'alimentation peut en faire un enjeu conflictuel au sein de la famille » (Lebecque et Baran, 2002). De plus, l'hygiène quotidienne doit être attentivement surveillée afin de limiter les risques d'infection. Cette préoccupation majeure peut favoriser les situations de stress parental et limiter les possibilités d'exploration orale de la part des enfants (Debray *et al*., 2016).

1.2.3 Outils existants et études

Quick *et al*. (2013) ont souligné le peu d'études existantes à ce jour sur les troubles alimentaires chez les enfants atteints de mucoviscidose. Il a cependant été démontré qu'ils étaient plus susceptibles de développer des comportements alimentaires problématiques que les enfants tout-venant (Crist et Napier-Phillips, 2001). Des études américaines ont comparé les comportements alimentaires des enfants atteints de mucoviscidose ainsi que les réactions parentales avec des groupes contrôles. Elles se sont basées sur les méthodes d'observation et d'analyse d'enregistrement vidéo de repas en famille. Stark *et al*. (1997) ont montré que les enfants d'âge scolaire atteints de mucoviscidose mangeaient plus lentement que les enfants tout-venant de même âge. Les problèmes comportementaux lors des repas ainsi que le refus alimentaire de la part des enfants semblaient plus intenses selon les parents d'enfants malades que selon les parents du groupe contrôle apparié. Mitchell *et al*. (2004) ont montré un taux d'interactions positives plus faible chez les familles d'enfants atteints de

mucoviscidose. L'étude de Powers *et al*. (2005) a montré que les parents d'enfants atteints de la maladie avaient une attitude plus directive pour inciter l'enfant à manger que les parents témoins et qu'ils avaient tendance à les faire manger plus souvent. En France, l'enquête de Costanzo *et al*. (2013) menée par l'équipe du CRCM de Bordeaux a évalué la prévalence des TOA dans leur centre. Elle a montré que 40 % des enfants atteints de mucoviscidose avaient des difficultés d'alimentation et que 24 % présentaient une dysoralité sensorielle. Les indicateurs retenus étaient un manque d'appétit, une lenteur lors de l'alimentation, des difficultés de mastication, une sélectivité alimentaire, des comportements d'évitement et une absence de plaisir. L'intervention d'un psychologue, d'un diététicien ainsi que la mise en place d'un programme de rééducation par des orthophonistes ont permis d'améliorer la qualité de vie chez 2/3 des sujets. L'étude a été présentée lors d'un colloque sur la mucoviscidose mais n'a pas été publiée.

Par ailleurs, peu d'échelles d'évaluation des TOA dans la population générale ont été validées et/ou traduites en français (Grevesse et Hermans, 2017 ; Ramsay, Martel, Porporino et Zygmuntowicz, 2011). Parmi les outils existants, nous pouvons citer le Behavioral Pediatrics Feeding Assessment Scale (BPFAS), le Child Eating Behavior Inventory (CEBI), ou encore l'échelle d'alimentation de l'hôpital de Montréal (Lewinsohn *et al*., 2005 ; Ramsay *et al*., 2011). La revue systématique de Heckathorn, Speyer, Taylor et Cordier (2016) a identifié les outils d'évaluation de la déglutition et de l'alimentation existants. A la suite de cette revue, celle de Speyer, Cordier, Parsons, Denman et Kim (2018) a mis en avant le peu d'informations sur la fiabilité et la validité de la plupart de ces outils. Ceci a été corroboré par l'étude de Quick *et al*. (2013) qui a souligné le manque d'outils d'évaluation des difficultés alimentaires chez les enfants atteints de maladies chroniques, notamment dans la mucoviscidose.

En France, à l'hôpital Necker (*75*), le projet « Oral Quest » mené par le groupe oralité a pour objectif d'élaborer un outil explorant l'oralité sous ses différents axes. Ce projet est en cours de réalisation et n'a pas encore fait l'objet d'une publication.

En définitive, plusieurs études ont mis en avant les difficultés alimentaires de ces enfants mais celles-ci sont anciennes et ne sont pas françaises. Une seule étude française a enquêté sur les TOA dans la mucoviscidose (Costanzo *et al*., 2013). La plupart des outils d'évaluation existants ne sont pas traduits en français et/ou ne sont pas validés. Ces outils semblent donc difficilement utilisables dans la population générale française et il n'en existe aucun dans le domaine de la mucoviscidose.

2. POSITION DU PROBLÈME ET HYPOTHÈSES

Plusieurs auteures ont mis en évidence des facteurs de risque ainsi que des signes cliniques des TOA (Levavasseur, 2017 ; Senez, 2015 ; Thibault, 2017). La mucoviscidose, de par ses manifestations cliniques et sa PEC, regroupe de multiples facteurs de risque de TOA : atteintes organiques digestives et respiratoires, nutrition entérale, RGO, anxiété parentale, défaut d'exploration orale (Debray *et al*., 2016). Une enquête sur les liens entre les TOA et la mucoviscidose a été réalisée et a montré qu'un suivi orthophonique pouvait améliorer la qualité de vie de ces patients (Costanzo *et al*., 2013). Cependant, c'est la seule étude française et elle n'a pas été publiée.

Depuis avril 2018, le diagnostic et la PEC des TOA font partie du champ de compétences des orthophonistes (Ministère des Solidarités et de la Santé, 2017), mais le repérage de ces troubles par les professionnels médicaux reste délicat. De ce fait, nombreux sont les enfants orientés tardivement vers un orthophoniste (Levavasseur, 2017). De plus, le manque d'outils objectifs et normés dans ce domaine a été souligné par plusieurs auteurs (Grevesse et Hermans, 2017 ; Quick *et al*., 2013). Aucun orthophoniste n'apparaît dans l'annuaire des CRCM (communication personnelle, 17 octobre 2018).

L'objet de cette étude est double : 1) démontrer que les enfants atteints de mucoviscidose sont réellement plus à risque de développer des TOA que les enfants de la population générale, et 2) mettre en évidence que l'orientation, la formation et la prévention concernant les TOA sont de réelles préoccupations actuelles au sein des CRCM pédiatriques et mixtes de France. Ainsi, cette recherche nous permettra de déterminer si une formation autour des TOA auprès des professionnels de santé et/ou une prévention auprès des familles seraient nécessaires, dans le but d'améliorer le dispositif d'accompagnement de ces enfants. Pour répondre à ces objectifs, nous avons proposé deux enquêtes par questionnaire auprès de parents et de professionnels de santé des CRCM.

Nous supposons alors que :

1- Les enfants atteints de mucoviscidose présentent plus de signes cliniques laissant suspecter des TOA que les enfants de la population générale.

2- La PEC spécifique des TOA est une problématique actuelle au sein des équipes pluridisciplinaires des CRCM.

Ces hypothèses seront reprises et détaillées dans la partie Méthodologie.

3. MÉTHODOLOGIE EXPÉRIMENTALE

3.1 Population d'étude

Les sujets retenus sont des parents d'enfants âgés de 3 ans à 6 ans 11 mois. Nous avons choisi d'étudier une classe d'âge restreinte pour ne pas favoriser un biais de remémoration. De plus, les expériences des enfants concernant l'alimentation s'enrichiraient à partir de 3 ans, quand l'enfant s'inscrit dans une vie sociale plus intense. Avant cet âge, les expériences, positives ou négatives, ne seraient pas encore réellement ancrées et leurs répercussions seraient encore relativement contenues (Levavasseur, 2017).

Notre population d'étude comprend des parents d'enfants atteints de mucoviscidose suivis dans les CRCM pédiatriques et mixtes de France. Pour constituer notre groupe contrôle, nous avons recruté des parents d'enfants sains, par l'intermédiaire d'une école maternelle, de nos connaissances et des réseaux sociaux. Dans la suite du document, le groupe constitué de parents d'enfants atteints de mucoviscidose sera nommé « groupe expérimental ». Nous avons également recruté des professionnels exerçant dans les CRCM pédiatriques et mixtes de France.

3.1.1 Critères de recrutement

Pour le groupe expérimental, les sujets devaient être des parents d'enfants atteints de mucoviscidose et âgés de 3 ans à 6 ans 11 mois. Les critères d'exclusion correspondaient aux conditions susceptibles de favoriser des TOA et ainsi représenter un biais pour notre étude : prématurité, fente oro-faciale, trouble du spectre autistique, atteinte neurologique et/ou atteinte génétique autre que la mucoviscidose. Le groupe contrôle était constitué de parents d'enfants âgés de 3 ans à 6 ans 11 mois, non atteints de mucoviscidose. Les critères d'exclusion étaient les mêmes que ceux du groupe expérimental.

Pour le groupe Professionnels, nous avons sélectionné tous les professionnels de santé exerçant dans un CRCM pédiatrique ou mixte (enfants et adultes), quelle que soit la profession.

3.1.2 Description de la population

Concernant le groupe expérimental, nous avons obtenu 101 réponses. Après avoir appliqué les critères d'exclusion, nous retenons 94 réponses. De même, concernant le groupe contrôle, nous avions 469 réponses et nous en retenons 407. Les caractéristiques générales des sujets des deux groupes sont regroupées dans le Tableau 1. A propos de la personne répondant au questionnaire, les mères sont surreprésentées par rapport aux pères (groupe

expérimental : 80,85 % ; groupe contrôle : 93,86 %). Concernant le sexe, les filles sont majoritaires dans le groupe expérimental (59,57 %) mais pas dans le groupe contrôle (48,40 %). Dans les deux groupes, la tranche d'âge [3 ans – 3 ans 11 mois] est la plus représentée (groupe expérimental : 36,17 % ; groupe contrôle : 32,68 %).

Tableau 1 : Caractéristiques générales des sujets du groupe expérimental (N = 94) et du groupe contrôle (N = 407)

		Groupe expérimental (n = 94)	**Groupe contrôle (n = 407)**
		Effectif (%)	Effectif (%)
Parent répondant	*Mère*	76 (80,85 %)	382 (93,86 %)
	Père	13 (13,83 %)	16 (3,93 %)
	Ensemble	5 (5,32 %)	9 (2,21 %)
Sexe de l'enfant	*Féminin*	56 (59,57 %)	197 (48,40 %)
	Masculin	38 (40,43 %)	210 (51,60 %)
Classe d'âge de l'enfant	*3 ans – 3 ans 11 mois*	34 (36,17 %)	133 (32,68 %)
	4 ans – 4 ans 11 mois	27 (28,72 %)	125 (30,71 %)
	5 ans – 5 ans 11 mois	14 (14,89 %)	86 (21,13 %)
	6 ans – 6 ans 11 mois	19 (20,21 %)	63 (15,48 %)

Pour le groupe Professionnels des CRCM, nous avons obtenu 84 réponses. Sur les 33 CRCM pédiatriques ou mixtes de France, 21 ont participé à notre enquête. Les réponses viennent principalement des CRCM de Nantes, Angers et Caen (Annexe I). Les répondants sont notamment des médecins, des infirmiers et des diététiciens avec respectivement 27 % (n = 23), 19 % (n = 16) et 15 % (n = 13) de participation (Figure 1).

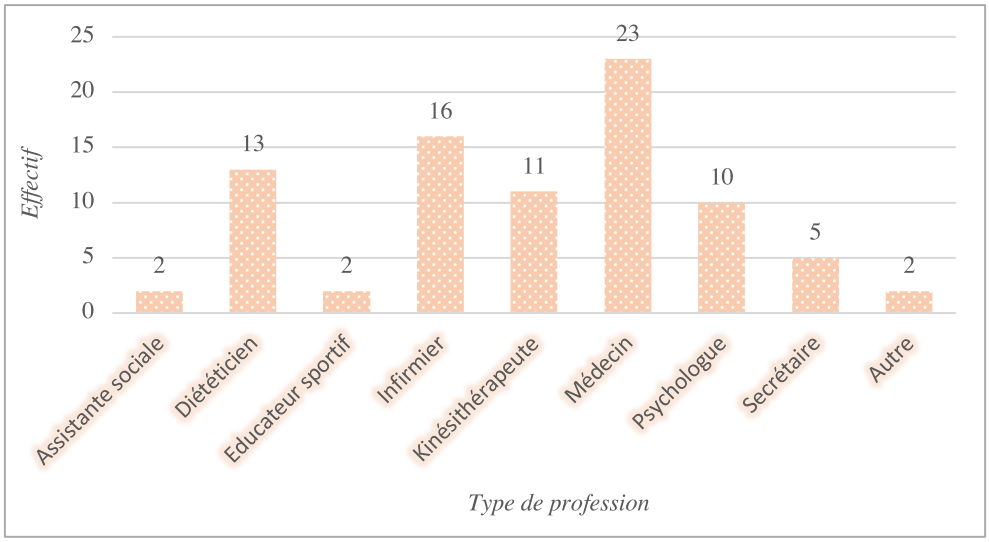


Figure 1 : Répartition des sujets (en nombre) en fonction du type de profession, dans le groupe Professionnels des CRCM (N = 84)

3.2 Matériel et méthode

L'enquête par questionnaire en ligne nous a semblé être un moyen adapté pour répondre à nos hypothèses. Facile, rapide et abordable par tous, il augmente la possibilité d'obtenir de nombreuses réponses. L'utilisation des mails, sms, réseaux sociaux étant de nos jours très répandue, cette modalité nous a effectivement permis d'obtenir des grands échantillons.

Suite aux réflexions menées avec l'équipe du CRCM de Caen lors de nos différentes rencontres, nous avons défini la problématique de l'étude et élaboré deux questionnaires : l'un à destination des parents, l'autre à destination des professionnels des CRCM. Ceux-ci ont été réalisés sur la plateforme universitaire LimeSurvey.

3.2.1 Questionnaire à destination des parents

- ***Définition des hypothèses***

Partant du constat qu'aucun outil valide et fiable n'existait dans le domaine des TOA, nous avons élaboré notre propre questionnaire. Pour ce faire, nous nous sommes inspirées d'un questionnaire conçu en 2014 par la diététicienne et la psychologue du CRCM de Caen pour une enquête sur l'alimentation auprès des parents de leurs patients. Nous nous sommes également appuyées sur des échelles déjà existantes : la BPFAS, la CEBI et l'échelle d'alimentation de l'hôpital de Montréal. Ces dernières utilisent le rapport parental pour évaluer les comportements alimentaires.

Ainsi, le questionnaire a été élaboré selon 5 domaines en lien avec nos hypothèses. Sa structure générale est détaillée dans l'Annexe II. Afin de répondre à notre hypothèse principale selon laquelle les enfants du groupe expérimental présenteraient plus de signes cliniques laissant suspecter des TOA que les enfants du groupe contrôle, nous avons regroupé 9 signes cliniques de TOA à travers 23 items : lenteur lors des repas, absence de plaisir, manque d'appétit, refus de la nouveauté, sélectivité alimentaire, défenses comportementales, hypersensorialité, nausées/vomissements, anomalies praxiques (Annexe III).

Nos hypothèses secondaires sont les suivantes :

- Les enfants du groupe expérimental présenteraient plus de facteurs de risque de TOA que les enfants du groupe contrôle. Une question composée de 9 items interroge la présence de facteurs de risque de TOA : hospitalisation prolongée, réanimation, intubation, nutrition artificielle, RGO, infections ORL fréquentes, allergies/intolérances alimentaires, défaut d'expérimentation orale, douleurs de la sphère oro-digestive.

- Le vécu parental serait davantage négatif dans le groupe expérimental. Ceci est étudié à travers 3 questions regroupant 11 items : bon ou mauvais souvenir de la période d'allaitement, ressentis concernant le moment des repas, préoccupations concernant la prise de poids et l'hygiène des mains. Par ailleurs, la plupart des parents du groupe expérimental répondraient à l'affirmative à l'item : « *Vous considérez l'alimentation de votre enfant comme un soin* ».
- Les parents du groupe expérimental utiliseraient davantage de stratégies pour faciliter les repas. Une question regroupant 9 items s'intéresse à ces stratégies, telles que la modification du visuel de l'assiette, l'utilisation d'un divertissement ou encore la proposition d'une récompense en fin de repas.
- Les enfants atteints de mucoviscidose seraient davantage pris en charge en orthophonie que les enfants du groupe contrôle. Une question interroge les parents sur l'éventualité d'une PEC orthophonique pour des TOA, actuelle ou passée.

- ***Élaboration du questionnaire***

Le choix des termes

Nous avons souhaité que notre questionnaire soit le plus accessible possible pour les parents, avec des questions claires, concises et compréhensibles. Certains termes médicaux, comme « intubation » ou « reflux gastro-œsophagien » ont été employés dans la partie sur les antécédents de santé de l'enfant. Nous avons inséré leurs définitions en bas de page. De plus, nous avons vulgarisé les termes « orthophoniques ». Par exemple, la question sur la sélectivité alimentaire était : « *Votre enfant ne mange que les aliments d'un certain goût ou d'une certaine couleur, texture, température, marque…* ».

Le type d'items

Nous avons privilégié des items fermés car cette modalité entraîne une facilité de réponse pour le questionné et une facilité de traitement pour l'enquêteur. Ces items provoquent des réponses d'approbation ou d'opinion.

Concernant les informations personnelles et les antécédents de santé de l'enfant, nous avons opté pour des réponses à choix multiples et de type oui/non.

Nous avons proposé une échelle de jugement nommée échelle de Likert pour les parties sur les signes cliniques, le vécu parental et les stratégies utilisées. Cette dernière est intéressante pour les questions impliquant des réponses plus nuancées comme les ressentis par rapport à l'alimentation. Concernant les signes cliniques et le vécu parental, les sujets avaient le choix entre cinq propositions : *pas d'accord du tout, plutôt pas d'accord,*

indifférent, plutôt d'accord, tout à fait d'accord. La proposition « *indifférent* » permet de ne pas forcer le sujet à se positionner s'il ne sait pas répondre à la question ou s'il n'a pas d'avis. Concernant la partie sur les stratégies utilisées, les sujets avaient le choix entre quatre propositions : *jamais, parfois, souvent, toujours*.

A la fin du questionnaire, un item ouvert « *remarques/commentaires* » , non obligatoire, permettait à ceux qui le souhaitaient de s'exprimer. Cette modalité implique davantage les sujets et peut faire apparaître des informations inattendues donnant matière à discussion.

Afin d'éviter un biais d'acquiescement désignant la propension du sujet à répondre systématiquement à l'affirmative aux différentes questions, nous avons varié l'orientation des items. Par exemple, les items « *votre enfant réclame à manger quand il a faim* » et « *votre enfant mange des morceaux (viande, légumes…)* » pourraient être qualifiés de positifs alors que les items « *votre enfant garde longtemps les aliments en bouche sans les avaler* » et « *votre enfant recrache ce qu'il a en bouche* » seraient plutôt négatifs. Ces deux types d'items font appel à des réponses opposées.

L'ordre des questions

Nous avons favorisé une organisation en « entonnoir » avec des questions générales en début de questionnaire et des questions plus personnelles et engageantes par la suite, évitant ainsi d'aborder le répondant de manière trop directe et intrusive. Les items positifs et négatifs ont été mélangés, dans le but d'éviter un biais d'acquiescement.

Pré-test

Afin d'estimer le temps de passation et d'ajuster certaines questions, nous avons fait passer le questionnaire à plusieurs personnes de notre entourage.

- ***Passation***

La réalisation du questionnaire sur la plateforme internet LimeSurvey a abouti à la création d'un lien . Nous avons transmis ce lien par mail aux CRCM et à l'école maternelle d'Alzonne (*11*), chargés de le diffuser aux parents. Nous l'avons également communiqué aux parents volontaires recrutés via nos connaissances et les réseaux sociaux. Nous avons eu recours au format papier pour les quelques CRCM en ayant fait la demande. Les réponses papier ont ensuite été reportées dans le questionnaire en ligne par nos soins.

En début de questionnaire, les parents étaient informés par un court texte du thème de l'étude, des critères à remplir pour pouvoir y répondre, du caractère anonyme des réponses et du temps approximatif de passation. Nous avons également mis à disposition une note explicative précisant l'objet de l'étude (Annexe IV).

- ***Cotation***

Les réponses concernant les signes cliniques des TOA, les facteurs de risque, le vécu parental et les stratégies utilisées ont été transformées en scores. Nous obtenons 4 scores :

- **Score SC (Signes Cliniques)** sur 92 : correspond à la somme des points obtenus aux 23 items analysant les signes cliniques. Plus le score est élevé, plus le nombre de signes cliniques de TOA est élevé. Les scores attribués à l'échelle de Likert allaient de 1 à 4. Si le sujet répondait « *tout à fait d'accord* » à un item positif, le score de 1 lui était attribué. A l'inverse, si le sujet répondait « *tout à fait d'accord* » à un item négatif, il obtenait un score de 4 (Tableau 2).

Tableau 2 : Exemples de cotation du score SC

Intitulé de l'item	**Type d'item**	**Cotation**			
		Pas d'accord du tout	*Plutôt pas d'accord*	*Plutôt d'accord*	*Tout à fait d'accord*
« *Votre enfant réclame à manger quand il a faim* »	Positif	4	3	2	1
« *Votre enfant garde longtemps les aliments en bouche sans les avaler* »	Négatif	1	2	3	4

Nous avons décidé de ne pas comptabiliser les réponses « *indifférent* ». Le nombre d'items répondus variait donc entre les sujets, en fonction des réponses « *indifférent* » de chacun. Ce score est ainsi exprimé en termes de moyennes et non de scores bruts.

Le score SC se décline également en 9 sous-scores SC : chaque sous-score correspond à un signe clinique (Annexe III). Par exemple, le score SC1 fait référence à la lenteur lors des repas.

- **Score FR (Facteurs de Risque)** sur 9 : correspond à la somme des points obtenus aux 9 items explorant les facteurs de risque. Plus le score est élevé, plus le nombre de facteurs de risque de TOA est élevé. Par exemple, un score de 9 signifie que l'enfant présente ou a présenté tous les facteurs de risque.
- **Score VP (Vécu Parental)** sur 44 : correspond à la somme des points obtenus aux 11 items interrogeant le vécu parental (souvenir de la période d'allaitement, ressentis concernant le moment des repas, préoccupations concernant la prise de poids et l'hygiène des mains). Plus le score est élevé, plus le vécu parental est négatif. Nous avons appliqué la même cotation que celle du score SC. Ce score faisant également appel à des réponses

« *indifférent* » dans l'échelle de Likert, il est exprimé en termes de moyennes et non de scores bruts.

- **Score SU (Stratégies Utilisées)** sur 36 : correspond à la somme des points obtenus aux 9 items étudiant les stratégies utilisées par les parents pour faciliter le moment des repas. Plus le score est élevé, plus le nombre de stratégies utilisées est élevé. La cotation allait de 1 à 4, la réponse « *jamais* » correspondant au score 1, « *toujours* » au score 4.

3.2.2 Questionnaire à destination des professionnels des CRCM

L'objectif était d'élaborer un court questionnaire, complémentaire à celui destiné aux parents. Il s'agit d'un questionnaire sur les ressentis des différents professionnels concernant les TOA. Comme pour questionnaire parental, nous avons privilégié les questions fermées, à choix multiples et l'échelle de Likert, tout en laissant au questionné la possibilité de s'exprimer à la fin. Nous avons testé le questionnaire au sein du CRCM de Caen avant de le diffuser aux autres centres. La réalisation de ce questionnaire sur la plateforme LimeSurvey a abouti à la création d'un lien que nous avons transmis par mail aux CRCM.

L'Annexe V reprend en détail la structure du questionnaire. Les variables étudiées sont les suivantes :

- Connaissance de la notion de « TOA »
- Sentiment que le diagnostic et la PEC des TOA sont une problématique actuelle au sein des CRCM
- Orientation des patients ayant un TOA
- Nécessité d'une formation des professionnels des CRCM
- Nécessité d'une prévention auprès des familles

3.3 Procédure

Afin de définir la problématique de l'étude, nous avons rencontré à plusieurs reprises l'équipe du CRCM de Caen. Les réflexions communes nous ont permis d'élaborer nos deux questionnaires, de février à octobre 2018. Nous avons dans le même temps sollicité tous les CRCM pédiatriques et mixtes de France pour la diffusion des questionnaires auprès des parents de leurs patients. Pour notre échantillon contrôle, nous avons contacté plusieurs écoles maternelles ainsi que nos connaissances via les réseaux sociaux. Dans un premier temps, le questionnaire à destination des parents a été activé, pour une durée de trois mois et demi.

Le questionnaire à destination des professionnels a été diffusé à la rentrée 2019, pour une durée d'un mois et demi. Nous avons effectué plusieurs relances par mail pour chaque questionnaire. Le recueil et l'analyse des données ont commencé en mars 2019.

Le déroulement de notre étude est résumé dans la Figure 2.

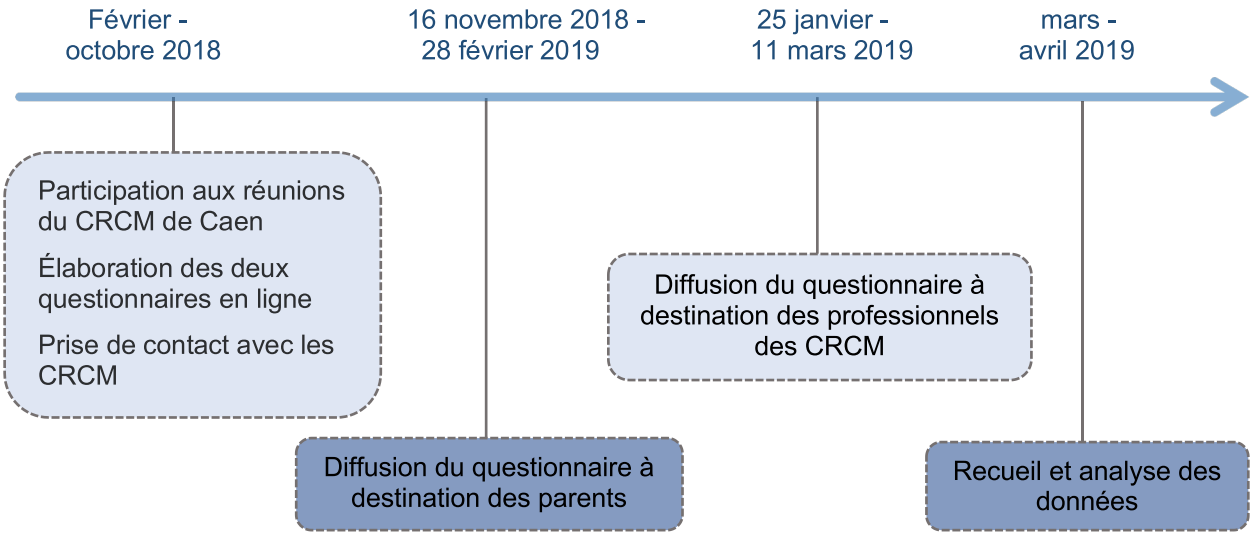


Figure 2 : Déroulement du protocole

3.4 Analyses statistiques

Ce mémoire se donne pour objectifs de démontrer que les enfants atteints de mucoviscidose sont plus à risque de développer des TOA que les enfants de la population générale, et de mettre en évidence que l'orientation spécifique des TOA, la formation des professionnels et la prévention auprès des familles sont de réelles préoccupations actuelles au sein des CRCM pédiatriques et mixtes de France. Nos hypothèses opérationnelles ainsi que les traitements statistiques des données prévus sont détaillés ci-dessous.

3.4.1 Questionnaire à destination des parents

Hypothèses 1 : Signes Cliniques (SC)

Hypothèse 1.a : Nous nous attendons à ce que la moyenne des moyennes du score SC soit significativement plus élevée dans le groupe expérimental que dans le groupe contrôle. Pour tester cette hypothèse, nous utiliserons le test de comparaison de moyennes de Student.

Hypothèse 1.b : De plus, une interaction significative entre les variables « Groupe » et « Type de SC » serait observée. Nous utiliserons un test d'interaction de variables pour vérifier cette hypothèse (Anova à 2 facteurs) puis nous réaliserons des comparaisons intergroupes et intragroupes.

Hypothèses 2 : Facteurs de Risque (FR)

Hypothèse 2.a : La médiane du score FR serait significativement plus élevée dans le groupe expérimental que dans le groupe contrôle. Pour tester cette hypothèse, nous utiliserons le test de comparaison de distributions de Mann-Whitney, cette variable ayant une distribution clairement asymétrique dans le groupe contrôle (Annexe VI).

Hypothèse 2.b : Nous postulons également que chaque facteur de risque est significativement plus fréquent dans le groupe expérimental que dans le groupe contrôle. Pour répondre à cette hypothèse, nous utiliserons le test de comparaison de répartitions de Khi-deux.

Hypothèses 3 : Vécu Parental (VP)

Hypothèse 3.a : La moyenne des moyennes du score VP serait significativement plus élevée dans le groupe expérimental que dans le groupe contrôle. Pour tester cette hypothèse, nous utiliserons le test de comparaison de moyennes de Student.

Hypothèse 3.b : De plus, dans le groupe expérimental, plus la moyenne du score SC est élevée, plus la moyenne du score VP augmenterait. Pour tester cette hypothèse, nous utiliserons le test de corrélation de Pearson.

Hypothèse 3.c : Au sein du groupe expérimental, plus de 50 % des parents répondraient « *plutôt d'accord* » ou « *tout à fait d'accord* » à la question « *vous considérez l'alimentation de votre enfant comme un soin* ». Des statistiques descriptives nous permettront de répondre à cette hypothèse.

Hypothèse 4 : Stratégie Utilisées (SU)

Hypothèse 4.a : La moyenne du score SU serait significativement plus élevée dans le groupe expérimental que dans le groupe contrôle. Pour tester cette hypothèse, nous utiliserons le test de comparaison de moyennes de Student.

Hypothèse 4.b : De plus, dans le groupe expérimental, plus la moyenne du score SC est élevée, plus le score SU augmenterait. Pour tester cette hypothèse, nous utiliserons le test de corrélation de Pearson.

Hypothèse 5 : PEC orthophonique

Enfin, les parents ayant répondu « oui » à la question sur la PEC orthophonique pour des TOA serait significativement plus nombreux dans le groupe expérimental que dans le groupe contrôle. Nous utiliserons le test exact de Fisher pour comparer ces répartitions.

3.4.2 Questionnaire à destination des professionnels des CRCM

Des statistiques descriptives nous permettront de répondre aux hypothèses suivantes :

Hypothèse 6 : Notion de « TOA »

A la question sur la connaissance du terme « TOA », plus de 50 % des professionnels répondraient « *oui, mais je ne sais pas vraiment à quoi cela fait référence* ».

Hypothèse 7 : Les TOA, un enjeu actuel ?

A la question « *Dans votre CRCM, vous considérez que le diagnostic et la PEC des TOA sont une problématique actuelle* », plus de 50 % des professionnels répondraient « *oui* ».

Hypothèse 8 : Vers quel(s) professionnel(s) orienter ?

A la question « *Dans votre CRCM, quel(s) professionnel(s) prend (prennent) en charge les TOA ?* », plus de 50 % des professionnels répondraient « *Un orthophoniste extérieur au CRCM* ».

Hypothèses 9 : Nécessité d'une formation pour les professionnels

Hypothèse 9.a : A la question sur la nécessité d'une formation autour des TOA pour eux-mêmes, plus de 50 % des professionnels répondraient « *nécessaire* ».

Hypothèse 9.b : De même, à la question sur la nécessité d'une formation autour des TOA pour les membres de leur équipe, plus de 50 % des professionnels répondraient « *nécessaire* ».

Hypothèse 10 : Nécessité d'une prévention auprès des familles

A la question « *Pensez-vous qu'une prévention des TOA auprès des familles dans les CRCM serait nécessaire ?* », plus de 50 % des professionnels répondraient « *oui* ».

4. RÉSULTATS

Deux enquêtes ont été menées : l'une auprès de parents d'enfants âgés de 3 ans à 6 ans 11 mois atteints et non atteints de mucoviscidose (groupes expérimental et contrôle), l'autre auprès des professionnels des CRCM. Les résultats de chaque questionnaire ont été importés dans un fichier Excel, à partir duquel nous avons calculé les scores SC, FR, VP et SU et réalisé les statistiques descriptives. Ces dernières sont présentées dans le document sous la forme *Effectif (pourcentage)* pour les variables qualitatives, *Moyenne (écart-type)* pour les variables quantitatives dont la distribution est symétrique et *Médiane [quartile 1 ; quartile 3]* pour la variable quantitative dont la distribution est asymétrique (Annexe VI). En ce qui concerne les statistiques inférentielles, le nombre élevé de répondants dans nos groupes expérimental et contrôle ($n > 30$) a permis l'utilisation du test paramétrique de Student pour les comparaisons. La linéarité des liaisons ainsi que la normalité des variables (Annexe VII) ont par ailleurs justifié le recours au test paramétrique de Pearson pour les corrélations.

Les tests statistiques ont été réalisés par nos soins dans les logiciels Epi Info, Statistica et Gretl. Nous avons considéré les résultats comme significatifs lorsque $p < 0,05$.

4.1 Résultats de l'enquête auprès des parents

Hypothèses 1 : Signes Cliniques (SC)

Hypothèse 1.a : La moyenne des moyennes du score SC est de 1,76 (± 0,37 SD) dans le groupe expérimental et de 1,65 (± 0,35 SD) dans le groupe contrôle. Le test de Student montre une différence significative entre les deux groupes ($p = 0,0058$*) : la moyenne des moyennes du score SC est significativement plus élevée dans le groupe expérimental que dans le groupe contrôle.

Hypothèse 1.b : Le Tableau 3 expose les sigles utilisés pour les signes cliniques et la Figure 3 ci-après montre les résultats au test de l'ANOVA à 2 facteurs. Une interaction significative entre les variables « Groupe » et « Type de SC » est observée ($F = 4,97$, $p < 0,001$*).

Tableau 3 : Sigles utilisés pour les signes cliniques

SC1	Lenteur	SC2	Absence de plaisir	SC3	Manque d'appétit
SC4	Refus de la nouveauté	SC5	Sélectivité alimentaire	SC6	Défenses comportementales
SC7	Hypersensorialité	SC8	Nausées, vomissements	SC9	Anomalies praxiques

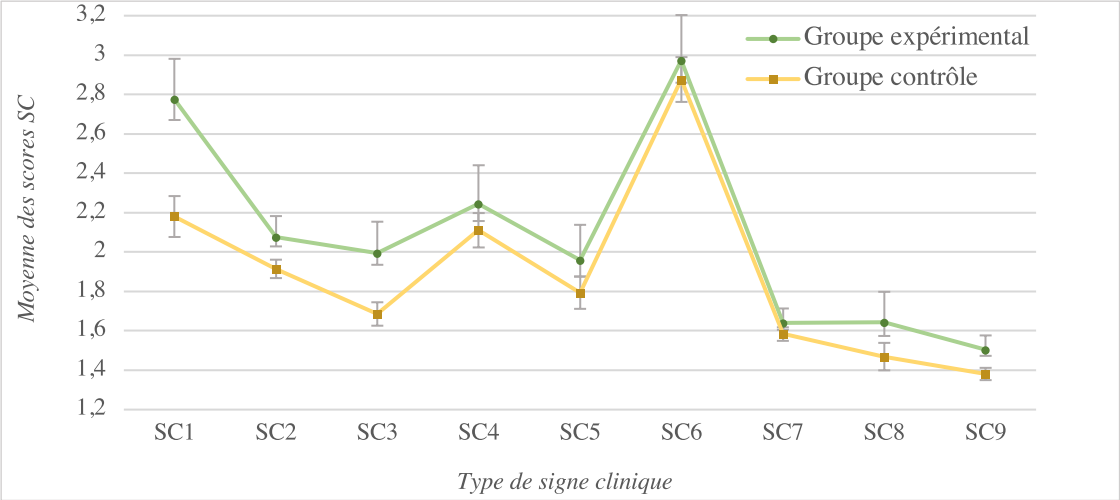


Figure 3 : Comparaisons des moyennes des scores SC en fonction du type de signe clinique, entre les groupes expérimental (N = 94) et contrôle (N = 407) (avec intervalle de confiance à 95 %)

Les analyses postérieures des comparaisons intergroupes sont présentées dans le Tableau 4 et celles des comparaisons intragroupes figurent dans le Tableau 5.

Tableau 4 : Valeurs du *p* concernant les comparaisons des moyennes des scores SC, entre les groupes expérimental (N = 94) et contrôle (N = 407)

SC1	SC2	SC3	SC4	SC5	SC6	SC7	SC8	SC9
< 0,001*	0,99	0,34	0,99	0,99	0,99	1	0,99	0,99

La moyenne des moyennes du score SC1 (lenteur) est de 2,77 (± 1,02 SD) dans le groupe expérimental et de 2,18 (± 1,07 SD) dans le groupe contrôle. Une différence significative entre les deux groupes est observée uniquement pour cette moyenne : elle est significativement plus élevée dans le groupe expérimental que dans le groupe contrôle (Figure 3 et Tableau 4).

Tableau 5 : Valeurs du *p* concernant les comparaisons des moyennes des scores SC, au sein du groupe expérimental (N = 94)

	SC1	SC2	SC3	SC4	SC5	SC6	SC7	SC8	SC9
SC1		< 0,001*	< 0,001*	< 0,001*	< 0,001*	0,83	< 0,001*	< 0,001*	< 0,001*
SC2	< 0,001*		0,99	0,96	0,99	< 0,001*	< 0,001*	< 0,001*	< 0,001*
SC3	< 0,001*	0,99		0,51	1	< 0,001*	0,01*	0,01*	< 0,001*
SC4	< 0,001*	0,96	0,51		0,18	< 0,001*	< 0,001*	< 0,001*	< 0,001*
SC5	< 0,001*	0,99	1	0,18		< 0,001*	0,08	0,08	< 0,001*
SC6	0,83	< 0,001*	< 0,001*	< 0,001*	< 0,001*		< 0,001*	< 0,001*	< 0,001*
SC7	< 0,001*	< 0,001*	0,01*	< 0,001*	0,08	< 0,001*		1	0,99
SC8	< 0,001*	< 0,001*	0,01*	< 0,001*	0,08	< 0,001*	1		0,99
SC9	< 0,001*	< 0,001*	< 0,001*	< 0,001*	< 0,001*	< 0,001*	0,99	0,99	

Dans le groupe expérimental, la moyenne des moyennes du score SC1 est de 2,77 (± 1,02 SD) et celle du score SC6 est de 2,97 (± 1,14 SD). La différence entre ces deux moyennes n'est pas significative mais ces dernières sont significativement plus élevées que celles des autres moyennes (Figure 3 et Tableau 5). Autrement dit, dans le groupe d'enfants atteints de mucoviscidose, la lenteur et les défenses comportementales sont les signes cliniques pour lesquels les scores obtenus sont en moyenne plus élevés.

Hypothèses 2 : Facteurs de Risque (FR)

Hypothèse 2.a : La médiane du score FR est de 2 [1 ; 3] dans le groupe expérimental et de 1 [0 ; 1] dans le groupe contrôle. Le test de Mann-Whitney montre une différence significative entre les deux groupes (p < 0,001*) : la médiane du score FR est significativement plus élevée dans le groupe expérimental que dans le groupe contrôle.

Hypothèse 2.b : Le Tableau 6 expose les sigles utilisés pour les facteurs de risque et la Figure 4 ci-dessous montre les résultats au test de Khi-deux et au test exact de Fisher. Ce dernier a été utilisé lorsque les effectifs étaient trop faibles (n < 5).

Tableau 6 : Sigles utilisés pour les facteurs de risque

FR1	Hospitalisation prolongée	FR2	Réanimation	FR3	Intubation
FR4	Nutrition artificielle	FR5	RGO	FR6	Infections ORL fréquentes
FR7	Allergies / intolérances alimentaires	FR8	Défaut d'expérimentation orale	FR9	Douleurs (bouche, gorge, ventre)

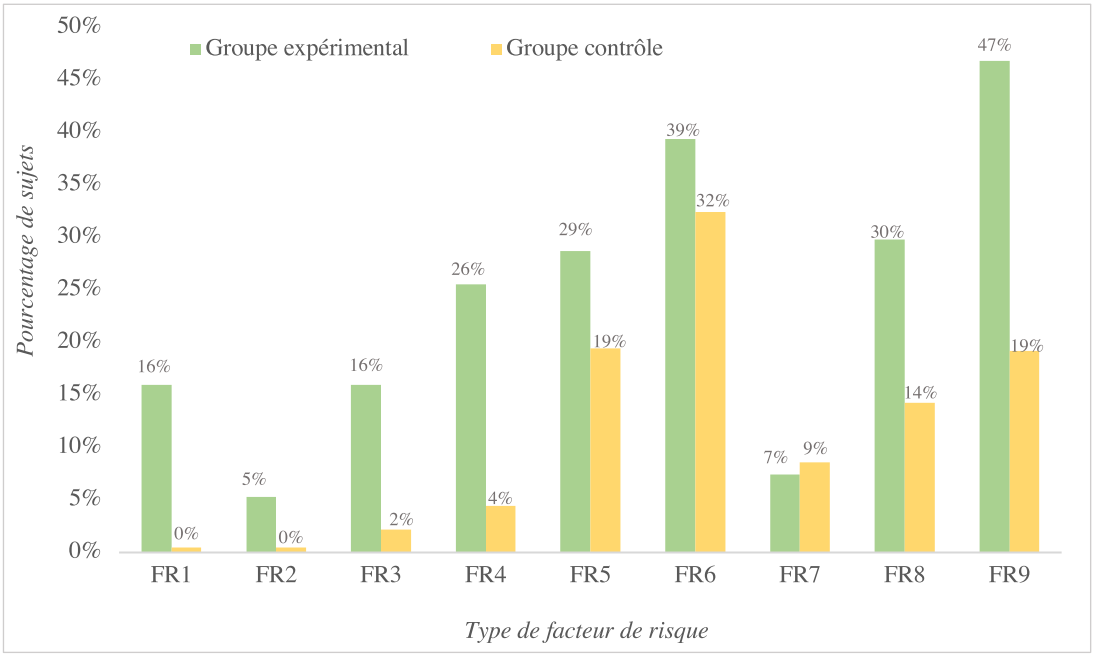


Figure 4 : Répartition des sujets (en %) en fonction du type de facteur de risque, dans les groupes expérimental (N = 94) et contrôle (N = 407)

Les facteurs de risque significativement plus fréquents dans le groupe expérimental que dans le groupe contrôle sont FR1 ($p < 0{,}001$*), FR2 ($p = 0{,}006$*), FR3 ($p < 0{,}001$*), FR4 ($p < 0{,}001$*), FR5 ($p = 0{,}046$*), FR8 ($p < 0{,}001$*), FR9 ($p < 0{,}001$*) mais pas FR6 ($p = 0{,}20$) et FR7 ($p = 0{,}72$). Au sein du groupe expérimental, le facteur de risque le plus représenté est FR9, à 47 % (Figure 4).

Hypothèses 3 : Vécu Parental (VP)

Hypothèse 3.a : La moyenne des moyennes du score VP est de 2,22 (± 0,53 SD) dans le groupe expérimental et de 1,83 (± 0,46 SD) dans le groupe contrôle. Le test de Student montre une différence significative entre les deux groupes ($p < 0{,}001$*) : la moyenne des moyennes du score VP est significativement plus élevée dans le groupe expérimental que dans le groupe contrôle.

Hypothèse 3.b : Au sein du groupe expérimental, le test de Pearson révèle une corrélation linéaire entre les moyennes des scores SC et VP ($r = 0{,}57$; $p < 0{,}001$*). Il existe une liaison positive entre les deux variables : plus la moyenne du score SC est élevée, plus la moyenne du score VP augmente (Figure 5).

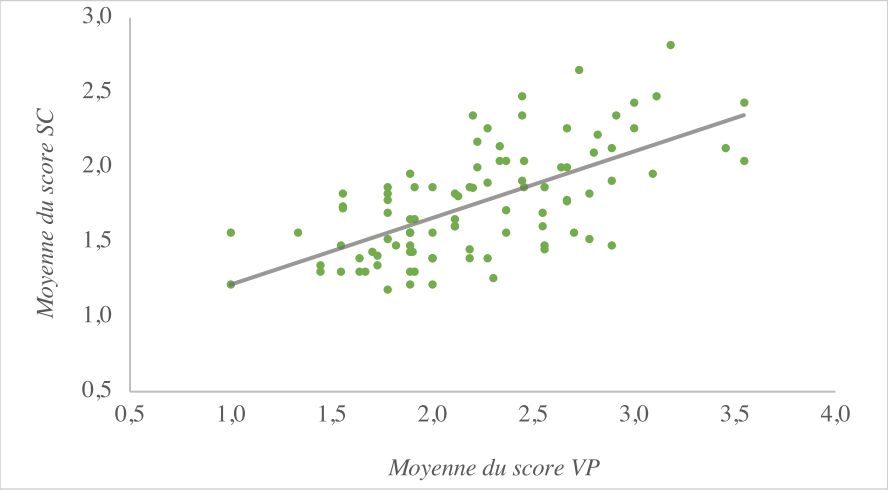


Figure 5 : Corrélation entre la moyenne du score SC et la moyenne du score VP, au sein du groupe expérimental (N = 94)

Hypothèse 3.c : Au sein du groupe expérimental, 56 parents (60 %) considèrent l'alimentation de leur enfant comme un soin (Figure 6).

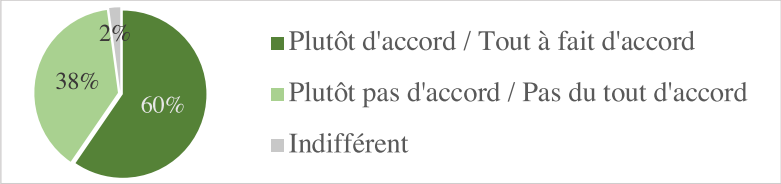


Figure 6 : Répartition des réponses (en %) à la question « *Vous considérez l'alimentation de votre enfant comme un soin* », au sein du groupe expérimental (N = 94)

Hypothèse 4 : Stratégie Utilisées (SU)

Hypothèse 4.a : La moyenne du score SU est de 17,98 (± 3,22 SD) dans le groupe expérimental et de 16,74 (± 2,90 SD) dans le groupe contrôle. Le test de Student montre une différence significative entre les deux groupes ($p < 0{,}001$*) : la moyenne du score SU est significativement plus élevée dans le groupe expérimental que dans le groupe contrôle.

Hypothèse 4.b : Au sein du groupe expérimental, le test de Pearson révèle une corrélation linéaire entre la moyenne du score SC et le score SU ($r = 0{,}39$; $p < 0{,}001$*). Il existe une liaison positive entre les deux variables : plus la moyenne du score SC est élevée, plus le score SU augmente (Figure 7).

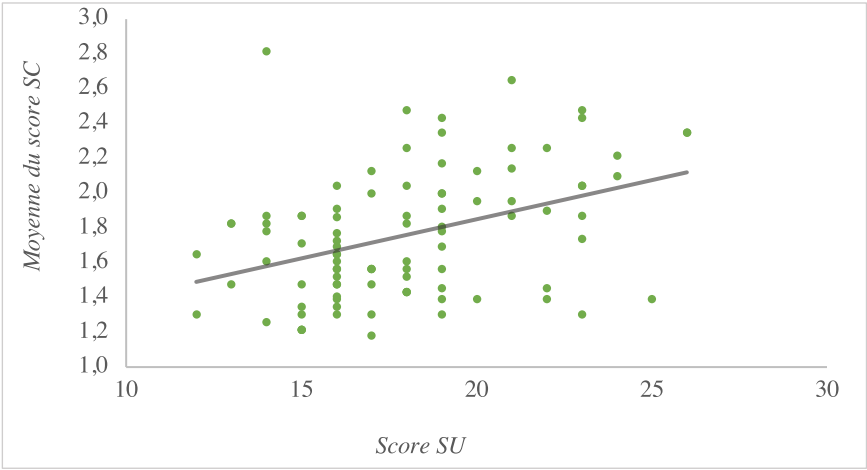


Figure 7 : Corrélation entre la moyenne du score SC et le score SU, au sein du groupe expérimental (N = 94)

Hypothèse 5 : PEC orthophonique

La Figure 8 ci-après révèle que 12 parents du groupe expérimental (13 %) indiquent que leur enfant a été ou est suivi en orthophonie pour des TOA. C'est également le cas pour 8 parents du groupe contrôle (2 %). Le test exact de Fisher montre une différence significative entre les deux groupes ($p < 0{,}001$*) : le taux de parents ayant répondu « oui » à la question sur la PEC orthophonique pour des TOA est significativement plus élevé dans le groupe expérimental que dans le groupe contrôle.

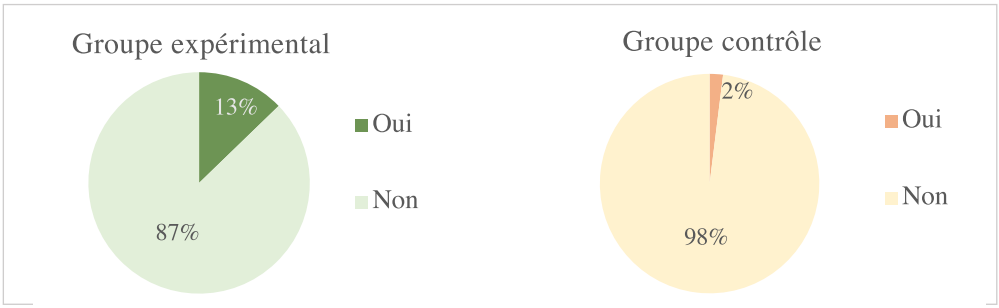


Figure 8 : Répartition des réponses (en %) à la question « *Votre enfant est-il ou a-t-il déjà été suivi en orthophonie pour des TOA ?* », dans les groupes expérimental (N = 94) et contrôle (N = 407)

4.2 Résultats de l'enquête auprès des professionnels des CRCM

Hypothèse 6 : Notion de « TOA »

67 professionnels (80 %) affirment bien connaître les TOA (Figure 9).

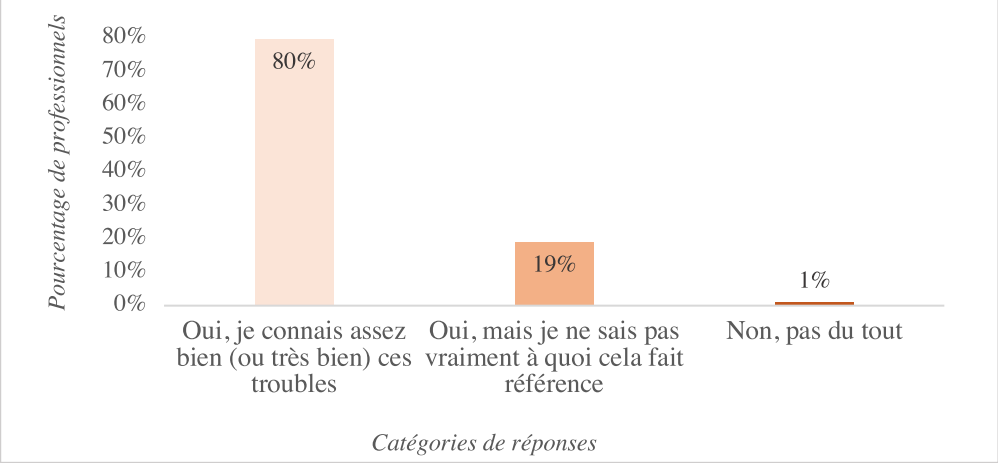


Figure 9 : Répartition des réponses (en %) à la question « *Avez-vous déjà entendu parler de la notion de TOA ?* », dans le groupe Professionnels des CRCM (N = 84)

Hypothèse 7 : Les TOA, un enjeu actuel ?

56 professionnels (67 %) estiment que dans leur CRCM, le diagnostic et la PEC des TOA sont une problématique actuelle (Figure 10).

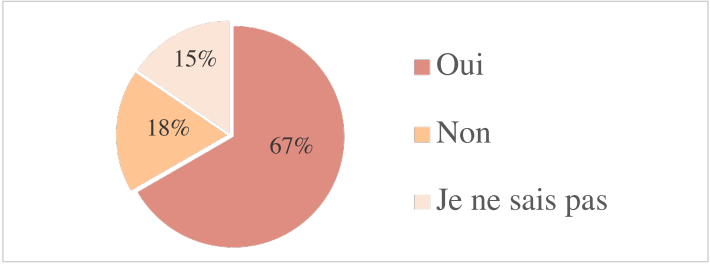


Figure 10 : Répartition des réponses (en %) à la question « *Dans votre CRCM, vous considérez que le diagnostic et la prise en charge des TOA sont une problématique actuelle* », dans le groupe Professionnels des CRCM (N = 84)

Hypothèse 8 : Vers quel(s) professionnel(s) orienter ?

59 professionnels (70 %) répondent que dans leur CRCM, les TOA sont pris en charge par un orthophoniste extérieur au CRCM. D'autres professionnels prennent en charge ces troubles (Tableau 7).

Tableau 7 : Répartition des réponses (en %) à la question « *Dans votre CRCM, quel(s) professionnel(s) prend (prennent) en charge les TOA ?* », dans le groupe Professionnels des CRCM (N = 84)

Professionnel	Effectif (%)		
Un orthophoniste extérieur au CRCM	59 (70 %)	**Autre :**	
Le médecin	34 (40 %)	Un ORL	1 (1 %)
Le psychologue	52 (62 %)	Un psychomotricien	4 (5 %)
Le diététicien	59 (70 %)	Une puéricultrice	1 (1 %)
L'infirmier	14 (17 %)	Une sophrologue	1 (1 %)
Le kinésithérapeute	6 (7 %)		
L'éducateur sportif	0 (0 %)		

Hypothèses 9 : Nécessité d'une formation pour les professionnels

Hypothèses 9.a et 9.b : 40 professionnels (48 %) considèrent qu'une formation autour des TOA pour eux-mêmes serait nécessaire et 50 (60 %) jugent cette formation nécessaire pour les membres de leur équipe (Figure 11).

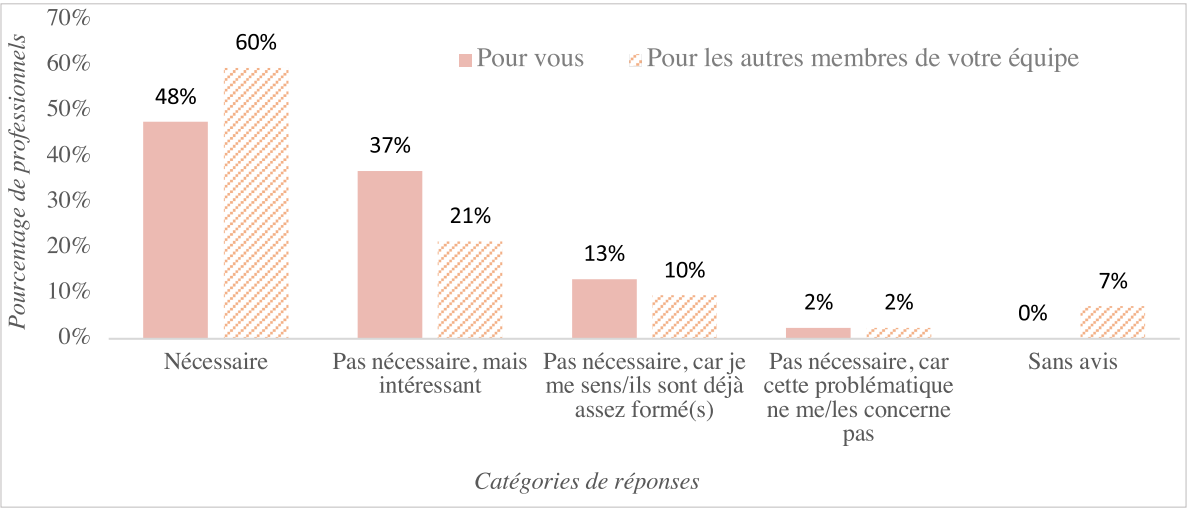


Figure 11 : Répartition des réponses (en %) à la question « *Recevoir une formation autour des TOA serait…* », dans le groupe Professionnels des CRCM (N = 84)

Hypothèses 10 : Nécessité d'une prévention auprès des familles

58 professionnels (69 %) estiment qu'une prévention des TOA auprès des familles dans les CRCM serait nécessaire (Figure 12).

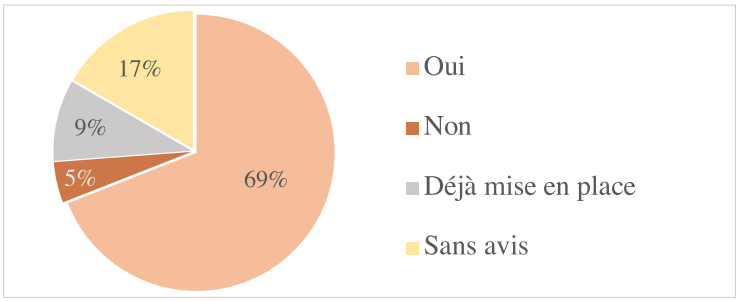


Figure 12 : Répartition des réponses (en %) à la question « *Pensez-vous qu'une prévention des TOA auprès des familles dans les CRCM serait nécessaire ?* », dans le groupe Professionnels des CRCM (N = 84)

40 professionnels (48 %) optent pour la « Création d'une brochure/plaquette d'informations sur ces troubles » (Figure 13).

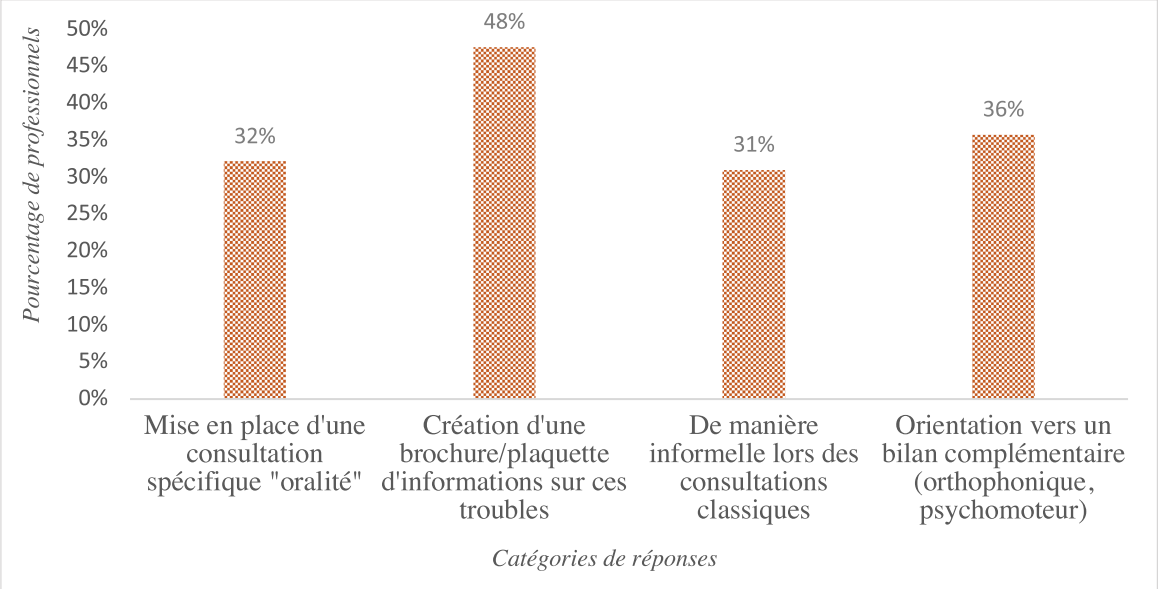


Figure 13 : Répartition des réponses (en %) à la question « *Sous quelle(s) forme(s) cette prévention pourrait être mise en place ?* », dans le groupe Professionnels des CRCM (N = 84)

5. DISCUSSION

5.1 Interprétation des résultats

Par cette étude, nous souhaitions à la fois mettre en évidence un risque supérieur pour les enfants atteints de mucoviscidose de développer des TOA par rapport aux enfants de la population générale, mais aussi démontrer que l'orientation spécifique concernant les TOA, la formation des professionnels et la prévention auprès des familles sont de réelles préoccupations actuelles au sein des CRCM pédiatriques et mixtes de France. Afin de répondre à nos hypothèses, nous avons élaboré deux enquêtes par questionnaire.

5.1.1 Interprétation des résultats de l'enquête auprès des parents

Nous postulions principalement que les enfants du groupe expérimental présenteraient plus de **signes cliniques** retrouvés dans les TOA que les enfants du groupe contrôle (lenteur, absence de plaisir, manque d'appétit, refus de la nouveauté, sélectivité alimentaire, défenses comportementales, hypersensorialité, nausées et vomissements, anomalies praxiques). Les hypothèses 1.a et 1.b ont été validées : le score SC est significativement plus élevé dans le groupe expérimental (p = 0,0058*) et les profils en termes de signes cliniques sont significativement différents entre les deux groupes ($p < 0,001$*). Plus précisément, l'analyse intergroupe des signes cliniques nous a montré que les enfants du groupe expérimental sont significativement plus lents lors des repas que ceux du groupe contrôle ($p < 0,001$*). Ces résultats viennent corroborer ceux de l'étude menée par Stark *et al*. en 1997, qui mettent en évidence une lenteur lors des repas chez les enfants atteints de mucoviscidose. L'analyse intragroupe approfondie des signes cliniques au sein du groupe expérimental suggère par ailleurs que la lenteur et les défenses comportementales sont les deux signes cliniques les plus discriminants. Dans les commentaires en fin de questionnaire, certains parents qualifient le repas de « moment interminable », entraînant « fatigue, épuisement et énervement ».

Concernant les **facteurs de risque** (hospitalisation prolongée, réanimation, intubation, nutrition artificielle, RGO, infections ORL fréquentes, allergies et/ou intolérances alimentaires, défaut d'expérimentation orale, douleurs de la sphère oro-digestive), l'hypothèse 2.a selon laquelle le score FR serait significativement plus élevé dans le groupe expérimental que dans le groupe contrôle a été validée ($p < 0,001$*). Les enfants du groupe expérimental présentent ainsi davantage de facteurs de risque de TOA que les enfants du groupe contrôle. L'analyse approfondie des facteurs de risque n'a pas révélé de différence

significative entre les deux groupes pour les infections ORL fréquentes (p = 0,20) et les allergies et intolérances alimentaires (p = 0,72). L'hypothèse 2.b est donc partiellement validée. Au sein du groupe d'enfants atteints de mucoviscidose, les douleurs de la sphère oro-digestive sont le facteur de risque le plus retrouvé (47 %).

A propos du **vécu parental** (souvenir de la période d'allaitement, ressentis concernant le moment des repas, préoccupations relatives à l'hygiène des mains et à la prise de poids), une différence significative a été révélée entre les deux groupes (p < 0,001*) : les parents du groupe expérimental ont un vécu davantage négatif que les parents du groupe contrôle. Aussi, dans le groupe expérimental, plus le nombre de signes cliniques retrouvés dans les TOA est élevé, plus le vécu parental est négatif (p < 0,001*). Les hypothèses 3.a et 3.b sont donc vérifiées. Les mères étant surreprésentées par rapport aux pères dans les deux groupes (groupe expérimental : 80,85 % ; groupe contrôle : 93,86 %), il s'agit surtout dans notre étude d'un vécu maternel. Sans préjuger d'une relation de cause à effet, nous constatons donc qu'il existe un lien entre ce vécu et le nombre de signes cliniques. Nous pouvons supposer que des difficultés d'alimentation orale génèrent anxiété et souffrance parentale (Puech, 2004), et réciproquement, que des expériences parentales négatives (anxiété, déplaisir) influencent les comportements de l'enfant (Levavasseur, 2017). Ces situations entraîneraient « parents et enfant dans un cycle d'interactions inadaptées » (Cohou et Gouineau, 2013).

L'hypothèse 3.c est également validée : 60 % des parents d'enfants atteints de mucoviscidose considèrent l'alimentation de leur enfant comme un soin dans notre étude. Celle-ci semble donc être abordée par les parents sous un angle en partie médical. Mitchell *et al*. (2004) décrivent en effet l'alimentation des enfants atteints de la maladie comme étant à la fois une tâche parentale typique et une tâche de PEC de la maladie.

Les **stratégies utilisées** par les parents pour faciliter le moment des repas sont plus nombreuses dans le groupe expérimental que dans le groupe contrôle : l'hypothèse 4.a est vérifiée (p < 0,001*). Les résultats ont aussi permis de valider l'hypothèse 4.b : au sein du groupe expérimental, plus le nombre de signes cliniques est élevé, plus le nombre de stratégies utilisées augmente (p < 0,001*). Émergerait alors l'hypothèse que les parents mettent en place des stratégies afin de faciliter les prises alimentaires. Certaines se révèleraient pourtant inefficaces (Ramsay, 2001) voire délétères, comme le forcing ou les punitions (Levavasseur, 2017). La prise en compte des stratégies utilisées par les parents

pourrait ainsi faire partie des axes thérapeutiques de la PEC, dans le but de distinguer avec eux les stratégies facilitatrices de celles qui, au contraire, seraient nocives.

Enfin, l'hypothèse 5 postulait que les enfants du groupe expérimental seraient davantage **pris en charge en orthophonie** pour des TOA que ceux du groupe contrôle, ce qui a été vérifié ($p < 0{,}001$*). Ces résultats suggèrent qu'au moins une partie des TOA seraient repérés et pris en charge, mais ne nous permettent pas de conclure que les professionnels des CRCM sont à l'origine du repérage de ces troubles et de l'orientation des patients vers un orthophoniste. Le médecin traitant, un professionnel libéral autre ou la famille elle-même peuvent également en être à l'origine.

Ainsi à l'issue de l'étude, la taille importante des deux échantillons obtenus (groupe expérimental : N = 94 ; groupe contrôle : N = 407) ainsi que les statistiques inférentielles réalisées nous permettent de généraliser les résultats obtenus et de conclure à un risque plus important de développer des TOA chez les enfants atteints de mucoviscidose.

5.1.2 Interprétation des résultats de l'enquête auprès des professionnels des CRCM

Premièrement, 80 % des professionnels interrogés déclarent bien connaître les TOA. L'hypothèse 6 selon laquelle la plupart des professionnels estiment avoir une connaissance partielle des TOA a donc été rejetée. Ces résultats semblent néanmoins cohérents avec ceux retrouvés pour la PEC orthophonique : les professionnels connaissant bien ces troubles, ils orienteraient plus facilement les patients vers un orthophoniste. Pourtant, 67 % des professionnels considèrent que le diagnostic et la PEC des TOA sont une problématique actuelle dans leur CRCM : l'hypothèse 7 est vérifiée. Même si la plupart déclarent bien connaître les TOA, ces troubles semblent être un enjeu actuel au sein des équipes pluridisciplinaires des CRCM interrogées. Plusieurs commentaires en fin de questionnaire illustrent bien ces constats (Annexe X).

L'hypothèse 8 est aussi vérifiée puisque 70 % des professionnels interrogés déclarent que leurs patients avec TOA sont pris en charge par un orthophoniste extérieur à leur CRCM. Le diététicien et le psychologue du CRCM interviennent également majoritairement dans le suivi des TOA. D'autres professionnels impliqués dans ce suivi ont été évoqués : le médecin, l'infirmier, le kinésithérapeute, le psychomotricien. Ces résultats confirment qu'en pratique, une approche globale et transdisciplinaire de ces troubles est nécessaire (Abadie, 2004b ; Debray *et al.*, 2016 ; Dubedout *et al.*, 2016 ; Leblanc, 2014 ; Manikam et Perman, 2000 ; Thibault, 2017).

Une formation autour des TOA est jugée nécessaire pour 48 % des professionnels interrogés (hypothèse 9.a non vérifiée) et pour 60 % des professionnels de leur équipe (hypothèse 9.b vérifiée). Les professionnels interrogés se sentent donc plus formés que leurs collègues.

Enfin, 69% des professionnels pensent qu'une prévention des TOA auprès des familles dans les CRCM serait nécessaire : l'hypothèse 10 est validée. La création d'une brochure ou d'une plaquette d'informations est le dispositif le plus choisi (48 %), suivi de l'orientation vers un bilan complémentaire chez l'orthophoniste ou le psychomotricien (36 %), de la mise en place d'une consultation spécifique « oralité » (32 %) et d'une approche informelle lors des consultations classiques (31 %).

5.2 Limites et Perspectives

Pour répondre aux objectifs de cette étude, nous avons fait le choix d'utiliser des questionnaires d'auto-évaluation. Cette modalité induit néanmoins un biais reposant sur la subjectivité des répondants.

Nous avons vu par ailleurs que la plupart des professionnels interrogés estiment bien connaître les TOA. Cela nous amène à la réflexion suivante : les CRCM ayant accepté de participer à l'enquête sont-ils les plus sensibilisés à la question des TOA ? N'oublions pas que sur les 33 CRCM pédiatriques et mixtes de France, un peu plus d'un tiers n'ont pas répondu. Des données sont donc manquantes dans notre étude et il serait intéressant de savoir si les TOA sont également une problématique actuelle dans les autres CRCM. Par ailleurs, au sein des CRCM ayant participé à notre enquête, tous les professionnels n'ont pas répondu. Ces biais de sélection inter et intra-CRCM nous empêchent de généraliser les résultats à l'ensemble des CRCM. Le nombre élevé de réponses (N = 84) nous permet néanmoins de faire un état des lieux de leurs ressentis concernant la question des TOA dans la mucoviscidose.

Nos hypothèses ont été émises dans le but de déterminer si une prévention auprès des familles et/ou une formation autour des TOA auprès des professionnels de santé seraient nécessaires, dans le but de préciser le dispositif d'accompagnement de ces enfants. Au vu des résultats de nos deux enquêtes, la mise en place de moyens dans le domaine des TOA auprès des jeunes patients atteints de mucoviscidose et des professionnels s'avère nécessaire.

L'enjeu concernant les TOA dans la mucoviscidose est double :

D'une part, le repérage précoce des enfants à risque et des enfants présentant déjà des difficultés d'alimentation serait nécessaire afin de limiter le risque d'installation des troubles. Abadie (2004b) prône une attitude préventive de la part des professionnels vis-à-vis de ces troubles, afin de protéger la sphère oro-faciale et de limiter les expériences négatives. Dans les pathologies organiques plus lourdes, l'auteure insiste sur la nécessité d'une vigilance renforcée par les équipes soignantes. Un repérage précoce et une attitude préventive impliquent toutefois la connaissance des signes cliniques et des facteurs de risque des TOA par les professionnels. Dans notre étude, la lenteur et les défenses comportementales sont les signes cliniques les plus probants. De plus, tous les facteurs de risque étudiés, à l'exception des infections ORL fréquentes et des allergies et intolérances alimentaires, sont davantage retrouvés chez les enfants du groupe expérimental. Les douleurs de la sphère oro-digestive semblent être le facteur de risque le plus alertant : elles ne doivent donc pas être négligées. Cependant, étant donné que notre étude se basait en grande partie sur des comparaisons entre un groupe expérimental et un groupe contrôle, nous n'avons pas analysé certains facteurs inhérents à la maladie. Il serait donc intéressant, dans une étude plus approfondie, d'analyser chez les enfants atteints de mucoviscidose et pris en charge pour des TOA, les facteurs inhérents à la maladie comme la présence ou non d'une insuffisance pancréatique exocrine, l'âge de la pose d'une gastrostomie, l'état nutritionnel, l'impact des médicaments sur les prises alimentaires ou encore les précautions en matière d'hygiène en lien avec le risque d'infection respiratoire. Cette analyse permettrait de préciser quels facteurs de risque doivent alerter en priorité les professionnels. Il serait également pertinent d'étudier l'influence de la fratrie sur les prises alimentaires de l'enfant malade : rang de l'enfant malade (aîné, benjamin, enfant unique) et nombre de frères et sœurs. Ces données sont effectivement évoquées par quelques parents à la fin du questionnaire.

D'autre part, la mise en place d'un dispositif de prévention auprès des familles permettrait de soulager les parents en mettant des mots sur les difficultés de leur enfant et/ou en proposant un suivi adapté si nécessaire. Cependant, la mucoviscidose étant une maladie grave dont les atteintes sont multiples, les traitements contraignants et les conséquences psychologiques lourdes au quotidien (Lucazeau et Pacelli, 2010), la mise en place d'une prévention pourrait engendrer un stress supplémentaire chez les parents, inondés d'informations. Afin de pallier cette difficulté, la mise en place d'un dispositif de prévention ciblé, c'est-à-dire auprès des parents d'enfants à risque ou ayant déjà développé des TOA,

serait nécessaire. Cela permettrait de ne pas inquiéter les parents dont les enfants ne sont pas réellement à risque de développer des TOA. Ainsi, la création d'une plaquette d'informations sur les TOA dans la mucoviscidose pourrait par exemple être envisagée dans la mesure où sa diffusion et son utilisation seraient attentivement étudiées en amont. De plus, quelques « consultations oralité », chacune ayant des approches et des outils qui leur sont propres, existent déjà en France dans certains services hospitaliers (Leblanc, 2014). La mise en place de « consultations oralité » au sein des CRCM pourrait donc être une possibilité si celles-ci sont proposées aux parents de patients repérés en amont comme étant à risque de TOA.

Le repérage précoce du risque de développer des TOA et la mise en place d'une prévention adaptée nécessitent avant tout l'intervention de professionnels formés aux TOA (Dubedout *et al.*, 2016). Or, les résultats de notre étude nous montrent que de nombreux professionnels ressentent le besoin d'être davantage formés ou que leur équipe le soit. De plus, nous avons vu que les enfants atteints de mucoviscidose bénéficiaient davantage d'un suivi orthophonique que les enfants de la population générale. Cela ne signifie pas pour autant que ces troubles sont suffisamment repérés et pris en charge dans cette population, mais renforce plutôt le fait que les TOA sont un enjeu majeur dans la maladie et que les CRCM interrogés sont sensibles à cette problématique. La formation des professionnels des CRCM apparaît donc dans notre étude comme une priorité.

Sous quelle(s) forme(s) cette formation pourrait être envisagée ? Nous pouvons imaginer des interventions et réflexions ciblées sur les TOA lors des temps de synthèse dans les CRCM, des colloques ou des congrès sur la mucoviscidose. Celles-ci pourraient être menées par des professionnels des CRCM déjà formés et/ou par des orthophonistes formés aux TOA. Émerge alors au cœur du débat la question de la place de l'orthophoniste au sein des équipes pluridisciplinaire des CRCM. Par exemple, une intervention sur les TOA par une orthophoniste a eu lieu lors des « Rencontres normandes » rassemblant les CRCM de Normandie le 30 mars 2018, journée à laquelle j'ai eu la chance de participer.

Enfin, le stage optionnel effectué au sein du CRCM de Caen d'octobre à décembre 2018 m'a permis d'échanger avec les professionnels des CRCM et de rencontrer des patients et leur famille, nourrissant ainsi mes réflexions dans le cadre de cette étude.

6. CONCLUSION

Cette première étude à grande échelle sur les liens entre mucoviscidose et TOA a permis d'une part, d'éclaircir la question du risque de développer des TOA chez les enfants atteints, et d'autre part, de faire un état des lieux des ressentis des professionnels des CRCM concernant ces troubles. Elle s'inscrit dans la lignée de l'enquête réalisée par le CRCM de Bordeaux (Costanzo *et al*., 2013).

Nous avons mis en évidence que les enfants atteints de mucoviscidose présentaient plus de signes cliniques laissant suspecter des TOA que les enfants de la population générale. Nous avons également montré que ces enfants présentaient plus de facteurs de risque de TOA, que leurs parents avaient un vécu davantage négatif et que ces derniers utilisaient plus de stratégies pour faciliter les repas que dans la population générale. Les enfants atteints sont davantage pris en charge en orthophonie pour des TOA, ce qui vient corroborer l'hypothèse principale de l'étude. Les professionnels des CRCM, quant à eux, estiment que le diagnostic et la PEC des TOA sont une problématique actuelle et qu'une formation des professionnels ainsi qu'une prévention auprès des familles seraient nécessaires.

Le repérage précoce, par les professionnels des CRCM, des difficultés d'alimentation orale chez les enfants atteints de mucoviscidose semble donc essentiel. De plus, une prévention réfléchie et organisée auprès des familles s'avèrerait pertinente dans le cas où elle ciblerait uniquement les enfants à risque de développer des TOA ou ceux présentant déjà des difficultés. En effet, il ne s'agit pas d'engendrer un stress parental supplémentaire en informant toutes les familles, mais de réfléchir à la mise en place d'un dispositif de prévention adapté. Ces propositions d'action impliquent la présence de professionnels formés aux TOA dans les CRCM, voire l'intervention d'un orthophoniste au sein de ces centres. La formation des professionnels des CRCM doit être envisagée comme une priorité.

En définitive, les réflexions autour des TOA dans la mucoviscidose n'en sont qu'à leurs prémices et doivent se poursuivre, dans un souci d'amélioration du dispositif d'accompagnement des enfants atteints de cette maladie. Des recherches ultérieures pourraient analyser de manière plus approfondie les facteurs de risque des TOA, en vue de guider les professionnels des CRCM dans le repérage précoce de ces troubles.

BIBLIOGRAPHIE

Abadie, V. (2004a). L'approche diagnostique face à un trouble de l'oralité du jeune enfant. *Archives de pédiatrie*, *11*(6), 603-605.

Abadie, V. (2004b). Troubles de l'oralité du jeune enfant. *Rééducation orthophonique, 220,* 55-68.

Anthony, H., Paxton, S., Catto-Smith, A., et Phelan, P. (1999). Physiological and psychosocial contributors to malnutrition in children with cystic fibrosis. *Clinical Nutrition, 18*(6), 327-335.

Bellis, G., Dehillotte, C., et Lemonnier, L. (2017). Registre français de la mucoviscidose - Bilan des données 2016. *Ined, Paris, France : Vaincre la mucoviscidose*.

Cascales, T., Olives, J. P., Bergeron, M., Chatagner, A., et Raynaud, J. P. (2014, November). Les troubles du comportement alimentaire du nourrisson : classification, sémiologie et diagnostic. *Annales Médico-Psychologiques, revue psychiatrique, (*Vol. 172, No. 9, pp. 700-707). Elsevier Masson.

Clouzeau, H. (2015, Mars). Les difficultés alimentaires de l'enfant atteint de mucoviscidose. Communication présentée aux *11èmes journées scientifiques de la Société Française de Mucoviscidose, Paris, France*.

Cohou, S., et Gouineau, M. (2013). *Évaluation d'une plainte relative à l'oralité alimentaire chez des enfants de 12 à 36 mois : État des lieux et réflexion sur la création d'un outil interdisciplinaire* (Mémoire pour l'obtention du Certificat de Capacité en Orthophonie). Université Claude Bernard Lyon1, France.

Coquet, F. (2018, Janvier-Février). Et si on goûtait pour mieux parler ? *Ortho magazine, 24* (134), 17-20. Elsevier Masson.

Costanzo, A., Badet, N., Clouzeau, H., Senez, C., Fayon, M., et Bui, S. (2013). 285 Comprehensive management of senso-motor disorders of orality in paediatric CF patients. *Journal of Cystic Fibrosis*, *12*, S121.

Crist, W., et Napier-Phillips, A. (2001). Mealtime behaviors of young children : a comparison of normative and clinical data. *Journal of Developmental & Behavioral Pediatrics, 22*(5), 279-286.

Debray, D., Mas, E., Munck, A., Gerardin, M., et Clouzeau, H. (2016). Atteinte hépatique, digestive, prise en charge nutritionnelle et troubles de l'oralité chez l'enfant atteint de mucoviscidose. *Archives de Pédiatrie*, *23*(12), 12S15-12S20.

Dubedout, S., Cascales, T., Mas, E., Bion, A., Vignes, M., Raynaud, J.P., et Olives, J.P. (2016). Troubles du comportement alimentaire restrictifs du nourrisson et du jeune enfant : situations à risque et facteurs favorisants. *Archives de Pédiatrie*, *23*(6), 570-576.

Durieu, I., et Josserand, R. (2008). La mucoviscidose en 2008. *La Revue de médecine interne*, *29*(11), 901-907.

Grevesse, P., et Hermans, D. (2017). Évaluation de la sensorialité orale et des conduites alimentaires du jeune enfant. *Rééducation orthophonique, 271,* 125-149.

Haddad, M. (2017). Oralité et prématurité. *Rééducation orthophonique, 271,* 107-124.

Heckathorn, D. E., Speyer, R., Taylor, J., et Cordier, R. (2016). Systematic review : non-instrumental swallowing and feeding assessments in pediatrics. *Dysphagia 31*(1), 1-23.

Le Heuzey, M. F. (2006). La prévention des troubles du comportement alimentaire du jeune enfant est-elle possible ? *Journal de Pédiatrie et de Puériculture*, *19*(7), 261-264.

Lebecque, P., et Baran, D. (2002). *La mucoviscidose : la maladie, le traitement, les perspectives*.

Leblanc, V. (2014). Évaluation des troubles de l'oralité alimentaire de l'enfant. *Archives de pédiatrie, 21*(5), 32.

Leblanc, V., Bourgeois, C., Hardy, E., Lecoufle, A., et Ruffier, M. (2012). Boîte à idées pour oralité malmenée du jeune enfant. Saint-Ouen, France: Nutricia.

Lecoufle, A., et Lesecq-Lambre, E. (2016). Les troubles de l'oralité alimentaire et l'orthophonie. *L'Orthophoniste, 364*, 19-26.

Levavasseur, E. (2017, septembre). Prise en charge précoce des difficultés alimentaires chez l'enfant dit "tout-venant" ou "vulnérable". *Rééducation orthophonique, 271,* 151-170.

Lewinsohn, P. M., Holm-Denoma, J. M., Gau, J. M., Joiner Jr, T. E., Striegel-Moore, R., Bear, P., et Lamoureux, B. (2005). Problematic eating and feeding behaviors of 36-month-old children. *International Journal of Eating Disorders, 38*(3), 208-219.

Lucazeau, E., et Pacelli, F. (2010). Mucoviscidose : les enjeux psychiques de la maladie durant l'enfance. *Enfances & Psy,* (1), 165-175.

Manikam, R., et Perman, J. A. (2000). Pediatric feeding disorders. *Journal of clinical gastroenterology, 30*(1), 34-46.

Marguet, C., et Durieu, I. (2017, Juillet). *Protocole National de Diagnostic et de Soins - Mucoviscidose*. Repéré à : https://www.has-sante.fr/portail/upload/docs/application/pdf/2017-09/pnds_2017_vf1.pdf

Mercier, A. (2004). La nutrition entérale ou l'oralité troublée. *Rééducation orthophonique, 220,* 31-44.

Ministère des Solidarités et de la Santé. (2017, Octobre). Avis relatif à l'avenant n°16 à la convention nationale organisant les rapports entre les orthophonistes et l'assurance maladie, signée le 31 octobre 1996 (Art. 7 et 8). *Journal Officiel de la République Française,* Texte 127 sur 150.

Mion, F., et Roman, S. (2004). *Le reflux gastro-oesophagien en questions*. Springer Science & Business Media.

Mitchell, M. J., Powers, S. W., Byars, K. C., Dickstein, S., et Stark, L. J. (2004). Family functioning in young children with cystic fibrosis: Observations of Interactions at Mealtime. *Journal of Developmental and Behavioral Pediatrics*, *25*(5), 335-346.

Mouren, M. C., Doyen, C., Le Heuzey, M. F., et Cook-Darzens, S. (2011). *Troubles du comportement alimentaire de l'enfant : du nourrisson au pré-adolescent*. Elsevier Masson.

Mouterde, O. (2007). Manifestations digestives et nutritionnelles de la mucoviscidose. *Revue Francophone des Laboratoires*, *37*(397), 43-47.

Munck, A. (2014). Nutrition et mucoviscidose : de la prise en charge préventive au support nutritionnel. *Nutrition clinique et métabolisme*, *28*(1), 12-16.

Navarro, J., et Bellon, G. (2001). *La mucoviscidose* (2ème édition). Espaces 34.

Powers, S. W., Mitchell, M. J., Patton, S. R., Byars, K. C., Jelalian, E., Mulvihill, M. M.,...Stark, L. J. (2005). Mealtime behaviors in families of infants and toddlers with cystic fibrosis. *Journal of Cystic Fibrosis*, *4*(3), 175-182.

Prudhon, E. (2017). Oralité alimentaire et Troubles du Spectre Autistique. *Rééducation orthophonique, 271,* 171-189.

Puech, M., Vergeau, D. (2004). Dysoralité : du refus à l'envie. *Rééducation orthophonique, 220,* 127-141.

Quick, V. M., Byrd-Bredbenner, C., et Neumark-Sztainer, D. (2013). Chronic illness and disordered eating : a discussion of the literature. *Advances in Nutrition, 4*(3), 277-286.

Ramsay, M. (2001). Les problèmes alimentaires chez les bébés et les jeunes enfants : une nouvelle perspective. *Devenir, 13*(2), 11-28.

Ramsay, M., Martel, C., Porporino, M., et Zygmuntowicz, C. (2011). The Montreal Children's Hospital Feeding Scale : A brief bilingual screening tool for identifying feeding problems. *Paediatrics & child health, 16*(3), 147-e17.

Senez, C. (2015). *Rééducation des troubles de l'oralité et de la déglutition*. Paris : De Boeck Superieur.

Skuse, D. (1993). Identification and management of problem eaters. *Archives of Disease in Childhood, 69*(5), 604-608.

Speyer, R., Cordier, R., Parsons, L., Denman, D., et Kim, J. H. (2018). Psychometric characteristics of non-instrumental swallowing and feeding assessments in pediatrics : A systematic review using COSMIN. *Dysphagia 33*(1), 1-14.

Stark, L. J., Mulvihill, M. M., Jelalian, E., Bowen, A. M., Powers, S. W., Tao, S.,...Hovell, M. F. (1997). Descriptive analysis of eating behavior in school-age children with cystic fibrosis and healthy control children. *Pediatrics, 99*(5), 665-671.

Tessier, M. J. (2010). *Marqueurs précoces des problèmes sensoriels chez le jeune enfant présentant des problèmes d'alimentation* (Mémoire de Sciences biomédicales option réadaptation). Université de Montréal, Québec, Canada.

Thibault, C. (2017). *Orthophonie et oralité : la sphère oro-faciale de l'enfant* (2ème édition). Paris : Masson.

Turck, D. (2003). Aspect physiopathologique des troubles nutritionnels au cours de la mucoviscidose. *Archives de pédiatrie*, *10*, 413s-420s.

SOMMAIRES DES TABLEAUX ET DES FIGURES

Sommaire des tableaux

Tableau 1 : Caractéristiques générales des sujets du groupe expérimental (N = 94) et du groupe contrôle (N = 407) 13

Tableau 2 : Exemples de cotation du score SC 17

Tableau 3 : Sigles utilisés pour les signes cliniques 22

Tableau 4 : Valeurs du *p* concernant les comparaisons des moyennes des scores SC, entre les groupes expérimental (N = 94) et contrôle (N = 407) 23

Tableau 5 : Valeurs du *p* concernant les comparaisons des moyennes des scores SC, au sein du groupe expérimental (N = 94) 23

Tableau 6 : Sigles utilisés pour les facteurs de risque 24

Tableau 7 : Répartition des réponses (en %) à la question « *Dans votre CRCM, quel(s) professionnel(s) prend (prennent) en charge les TOA ?* », dans le groupe Professionnels des CRCM (N = 84) 28

Sommaire des figures

Figure 1 : Répartition des sujets (en nombre) en fonction du type de profession, dans le groupe Professionnels des CRCM (N = 84) 13

Figure 2 : Déroulement du protocole 19

Figure 3 : Comparaisons des moyennes des scores SC en fonction du type de signe clinique, entre les groupes expérimental (N = 94) et contrôle (N = 407) (avec intervalle de confiance à 95%) 23

Figure 4 : Répartition des sujets (en %) en fonction du type de facteur de risque, dans les groupes expérimental (N = 94) et contrôle (N = 407) 24

Figure 5 : Corrélation entre la moyenne du score SC et la moyenne du score VP, au sein du groupe expérimental (N = 94) 25

Figure 6 : Répartition des réponses (en %) à la question « *Vous considérez l'alimentation de votre enfant comme un soin* », au sein du groupe expérimental (N = 94) 26

Figure 7 : Corrélation entre la moyenne du score SC et le score SU, au sein du groupe expérimental (N = 94) 26

Figure 8 : Répartition des réponses (en %) à la question « *Votre enfant est-il ou a-t-il déjà été suivi en orthophonie pour des TOA ?* », dans les groupes expérimental (N = 94) et contrôle (N = 407) 27

Figure 9 : Répartition des réponses (en %) à la question « *Avez-vous déjà entendu parler de la notion de TOA ?* », dans le groupe Professionnels des CRCM (N = 84) 27

Figure 10 : Répartition des réponses (en %) à la question « *Dans votre CRCM, vous considérez que le diagnostic et la PEC des TOA sont une problématique actuelle* », dans le groupe Professionnels des CRCM (N = 84) 27

Figure 11 : Répartition des réponses (en %) à la question « *Recevoir une formation autour des TOA serait…* », dans le groupe Professionnels des CRCM (N = 84) 28

Figure 12 : Répartition des réponses (en %) à la question « *Pensez-vous qu'une prévention des TOA auprès des familles dans les CRCM serait nécessaire ?* », dans le groupe Professionnels des CRCM (N = 84) 29

Figure 13 : Répartition des réponses (en %) à la question « *Sous quelle(s) forme(s) cette prévention pourrait être mise en place ?* », dans le groupe Professionnels des CRCM (N = 84) 29

SOMMAIRE DES ANNEXES

Annexe I : Répartition des sujets (en nombre) du groupe Professionnels des CRCM (N = 84), en fonction des villes 44

Annexe II : Structure du questionnaire à destination des parents 45

Annexe III : Classification des signes cliniques de TOA 47

Annexe IV : Note explicative à destination des parents 48

Annexe V : Structure du questionnaire à destination des professionnels des CRCM 49

Annexe VI : Distribution des sujets des groupes expérimental (N = 94) et contrôle (N = 407), selon la variable Score FR 50

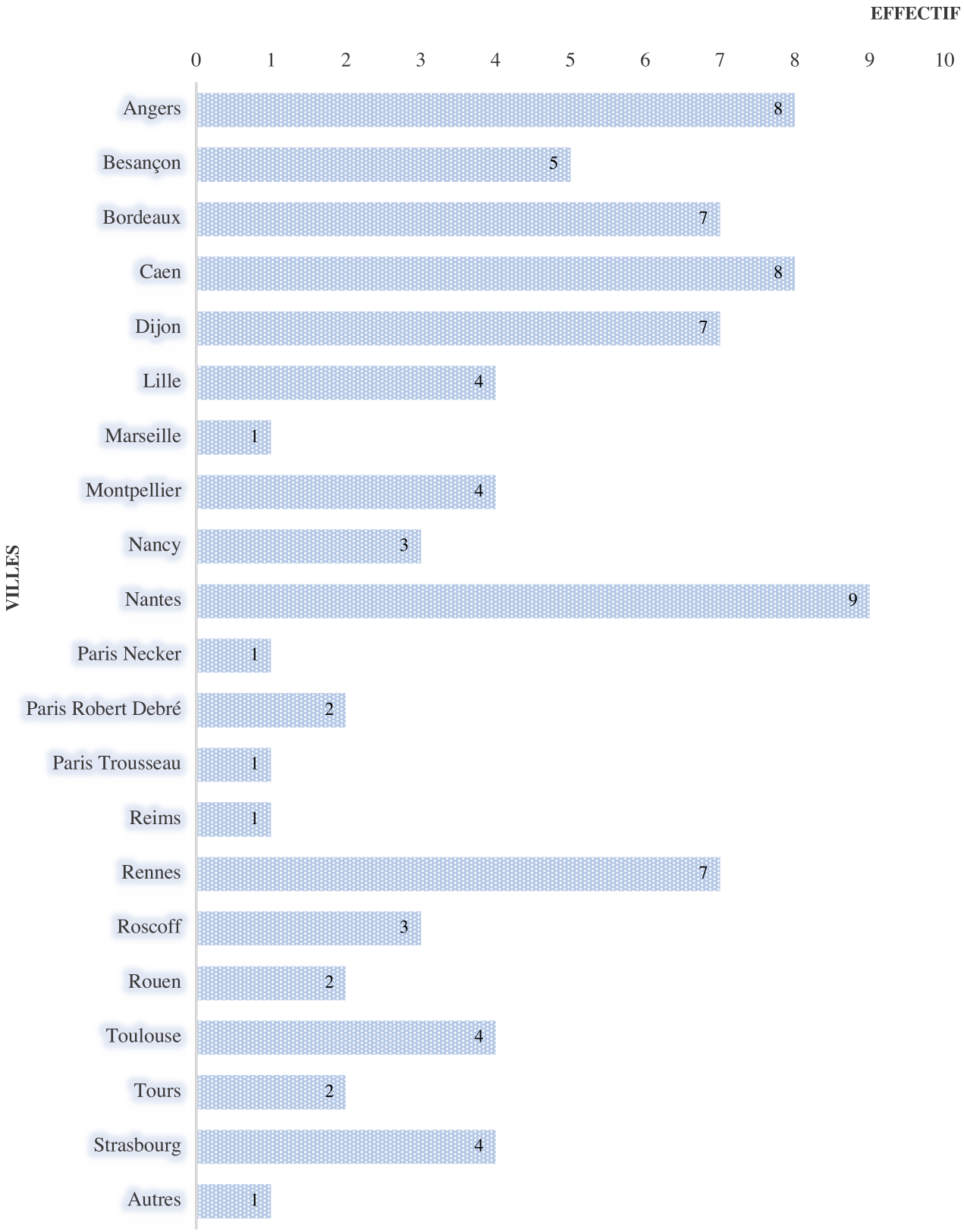
Annexe VII : Vérification de la normalité pour les variables Score SC, Score VP et Score SU dans les groupes expérimental (N = 94) et contrôle (N = 407) 51

Annexe VIII : Description et comparaison des variables dans les groupes expérimental (N = 94) et contrôle (N = 407) 53

Annexe IX : Résultats du questionnaire à destination du groupe Professionnels des CRCM (N = 84) 54

Annexe X : Commentaires des professionnels des CRCM à la fin du questionnaire 56

Annexe I : Répartition des sujets (en nombre) du groupe Professionnels des CRCM (N = 84), en fonction des villes



Annexe II : Structure du questionnaire à destination des parents

DOMAINES	COMPOSANTES ET EXEMPLES DE QUESTIONS
Informations personnelles	Répondant (mère, père, les deux ensemble) Sexe de l'enfant Âge de l'enfant
Antécédents de santé	**Antécédents médicaux** (critères d'exclusion) *Votre enfant est-il concerné par l'une des problématiques suivantes ?* - Fente labiale et/ou vélo-palatine - Autisme - Atteinte neurologiques : AVC, traumatisme crânien, anoxie cérébrale… - Maladie génétique (hors mucoviscidose) : trisomie 21, myopathie, drépanocytose… **Facteurs de risque de TOA** : hospitalisation prolongée, réanimation, intubation, nutrition artificielle, RGO, infections ORL fréquentes, allergies/intolérances alimentaires, défaut d'expérimentation orale, douleurs (bouche, gorge, ventre) *Votre enfant…* - A déjà été hospitalisé plus d'un mois - A (ou a déjà été) nourri artificiellement - A (ou a déjà eu) un RGO - A (ou a eu) des allergies et/ou intolérances alimentaires - Présente des douleurs au niveau de la bouche, de la gorge et/ou du ventre **PEC orthophonique** *Votre enfant est-il ou a-t-il déjà été suivi en orthophonie pour des troubles de l'oralité alimentaire (difficultés d'alimentation) ?*
Signes cliniques de TOA	Lenteur lors des repas, absence de plaisir, manque d'appétit, refus de la nouveauté, sélectivité alimentaire, défenses comportementales, hypersensorialité, nausées/vomissements, anomalies praxiques *Votre enfant…* - Réclame à manger quand il a faim - A un repas de prédilection et n'aime pas en changer - A des réactions d'opposition lors des repas (grimace, pleure, tourne la tête, repousse la nourriture) - Supporte facilement de marcher pieds nus dans l'herbe ou le sable - Ne supporte pas le brossage de dents (sensation dans la bouche) - Garde longtemps les aliments en bouche sans les avaler - Mange des morceaux (viande, légumes…)

Vécu parental concernant l'alimentation de l'enfant	**Souvenir de l'allaitement** *Gardez-vous un bon souvenir de la période d'allaitement ?* **Inquiétudes dans la vie quotidienne** *Dans la vie de tous les jours :* - Vous avez peur que votre enfant s'étouffe avec un aliment et/ou un objet - Le poids de votre enfant est une préoccupation majeure - Le fait que votre enfant puisse avoir les mains sales pendant le temps des repas / en dehors du temps des repas vous inquiète **Ressentis concernant les repas** *Pour vous, les repas de votre enfant sont :* - Un moment convivial - Un moment angoissant, stressant - Un moment de plaisir - Une contrainte **Alimentation = soin ?** *Considérez-vous l'alimentation de votre enfant comme un soin ?*
Utilisation de stratégies facilitant les repas	Variation des textures et/ou des couleurs des aliments, utilisation des aliments préférés de l'enfant, modification du visuel de l'assiette, proposition d'aliments nouveaux, diminution des quantités dans l'assiette, proposition d'une récompense, proposition de prises alimentaires supplémentaires en dehors des repas, détournement de l'attention, utilisation de compléments nutritionnels *Afin de faciliter les repas, il vous arrive de :* - Modifier le visuel de l'assiette (dessin avec les aliments) - Diminuer les quantités dans l'assiette pour l'inciter à tout finir - Proposer une récompense en fin de repas - Détourner son attention grâce à l'utilisation de divertissements pendant les repas (jouet, doudou, télévision, musique, comptines…)

Annexe III : Classification des signes cliniques de TOA

SIGNES CLINIQUES	ITEMS DU QUESTIONNAIRE : l'enfant…
Lenteur lors des repas (SC1)	- Est lent pour manger (le repas dure plus de 30 minutes)
Absence de plaisir (SC2)	- Ne réclame pas à manger par gourmandise - Garde longtemps les aliments en bouche sans les avaler - Avale tout rond sans mâcher - Recrache ce qu'il a en bouche
Manque d'appétit (SC3)	- Ne réclame pas à manger quand il a faim - Garde longtemps les aliments en bouche sans les avaler
Refus de la nouveauté (SC4)	- Refuse de goûter les aliments inconnus/nouveaux
Sélectivité alimentaire (SC5)	- Ne mange que les aliments d'un certain goût ou d'une certaine couleur, texture, température, marque… - A un repas de prédilection et n'aime pas en changer
Défenses comportementales (SC6)	- A des réactions d'opposition lors des repas (grimace, pleure, tourne la tête, repousse la nourriture) - Recrache ce qu'il a en bouche - A un repas de prédilection et n'aime pas en changer
Hypersensorialité (SC7)	- Supporte difficilement de marcher pieds nus dans l'herbe ou le sable - Supporte difficilement de toucher avec les mains la pâte à modeler, la peinture, les aliments… - Se laisse difficilement toucher au niveau du visage (caresses, gant de toilette, bisous…) - Supporte difficilement le brossage de dents (sensation dans la bouche) - Supporte difficilement d'avoir les mains sales (besoin de s'essuyer) - Tolère difficilement le moment du bain - Tolère difficilement la vue et/ou l'odeur des aliments - Avale tout rond sans mâcher - Garde longtemps les aliments en bouche sans les avaler - Ne mange pas de morceaux
Nausées, vomissements (SC8)	- A des nausées, haut-le-cœur - Régurgite/vomit
Anomalies praxiques (SC9)	- Ne peut pas utiliser le verre tout seul - Ne peut pas utiliser les couverts tout seul - Avale tout rond sans mâcher - Garde longtemps les aliments en bouche sans les avaler - Ne mange pas de morceaux

Annexe IV : Note explicative à destination des parents

UNIVERSITÉ CAEN NORMANDIE

CHU CAEN NORMANDIE

QUESTIONNAIRE A DESTINATION DES PARENTS D'ENFANTS ÂGÉS DE 3 A 6 ANS

NOTE EXPLICATIVE

Pour en savoir plus sur l'étude…

Étudiante en 5ème année d'orthophonie à l'Université de Caen, je réalise mon mémoire de fin d'études sur les liens entre l'oralité alimentaire et la mucoviscidose. Je suis encadrée par Murielle KOSMAN, orthophoniste en libéral, et Perrine VINCENT, psychologue au CRCM (Centre de Ressources et de Compétences de la Mucoviscidose) de Caen.

Dans le but de préciser le dispositif de prévention et d'accompagnement auprès des enfants atteints de mucoviscidose, nous cherchons à analyser si le comportement alimentaire de ces enfants est différent de celui des autres enfants.

Pour cela, nous avons créé un **questionnaire en ligne** à destination des parents d'enfants ; qui doivent respecter les critères suivants :

- Parents d'enfants âgés **de 3 ans à 6 ans 11 mois**
- Parents d'enfants atteints de mucoviscidose (recrutés via les CRCM = centres spécialisés)
- Parents d'enfants de la population générale (recrutés via les écoles maternelles et réseaux sociaux)

Ce questionnaire est entièrement anonyme et cela vous prendra moins de 10 minutes !
Le questionnaire est activé jusqu'au 28 février 2019 ; le traitement statistique des réponses débutera en mars 2019. C'est avec plaisir que je vous transmettrai mon travail à la fin de l'année universitaire.
Une enquête auprès des professionnels de santé travaillant dans les CRCM est réalisée en parallèle.

Merci pour votre aide précieuse !

Pour me joindre :

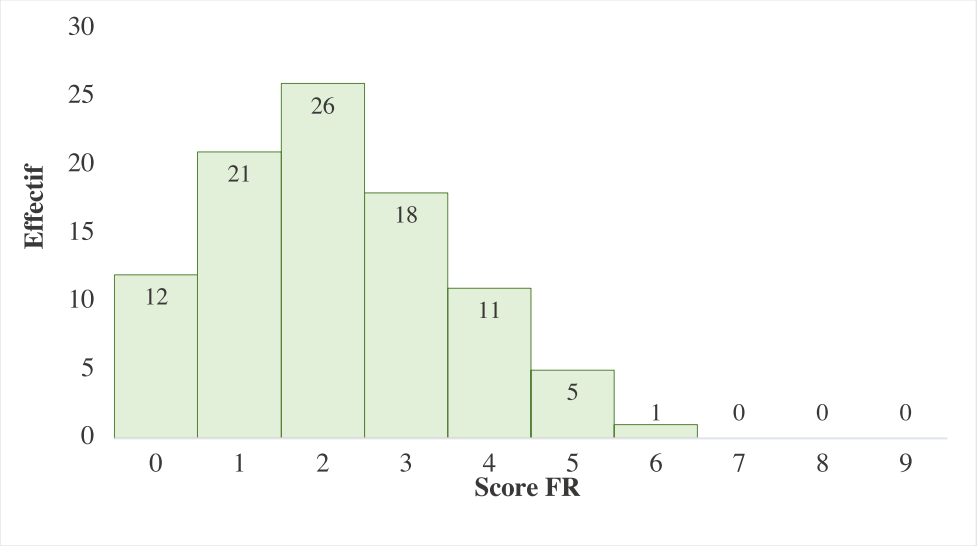
Laura REYNAUD

Lien du questionnaire *:* https://enquetes.unicaen.fr/index.php/614733?lang=fr

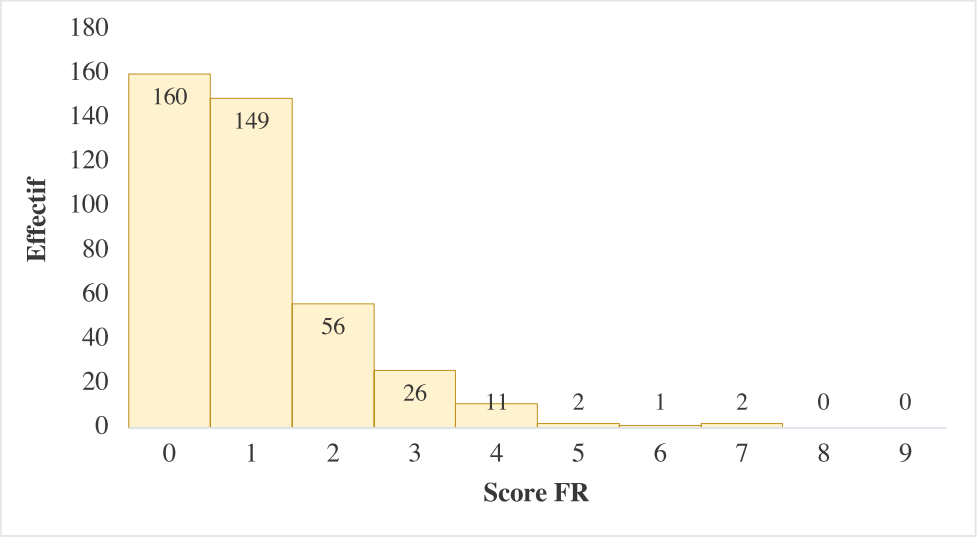
Annexe V : Structure du questionnaire à destination des professionnels des CRCM

DOMAINES	COMPOSANTES ET EXEMPLES DE QUESTIONS
Notion de « TOA »	Connaissance du terme « TOA » *Avez-vous déjà entendu parler de la notion de « TOA » ?* - Non, pas du tout - Oui, mais je ne sais pas vraiment à quoi cela fait référence - Oui, je connais assez bien (ou très bien) ces troubles
Les TOA : un enjeu actuel ?	Opinion concernant le diagnostic et la PEC des TOA *Dans votre CRCM, vous considérez que le diagnostic et la prise en charge des TOA sont une problématique actuelle :* - Oui - Non - Je ne sais pas
Vers quel(s) professionnel(s) orienter ?	Professionnel(s) prenant en charge les TOA chez les enfants atteints de mucoviscidose *Dans votre CRCM, quel(s) professionnel(s) prend (prennent) en charge les TOA ?* - Un orthophoniste extérieur au CRCM - Le médecin - Aucun - Le psychologue - Le kinésithérapeute - Autre - Le diététicien - L'infirmier
Formation auprès des professionnels	Opinion concernant la nécessité d'être formé sur les TOA, pour le répondant et pour son équipe *Pour vous / Pour les membres de votre équipe, recevoir une formation autour des TOA serait :* - Nécessaire - Pas nécessaire, mais intéressant - Pas nécessaire, car je me sens déjà assez formé(e) / ils sont déjà assez formé(s) - Pas nécessaire, car cette problématique ne me concerne pas / ne les concerne pas - Sans avis
Prévention auprès des familles	Opinion concernant la nécessité de mettre en place un moyen de prévention *Pensez-vous qu'une prévention des TOA auprès des familles dans les CRCM serait nécessaire ?* - Oui - Non - Déjà mise en place *Si oui, sous quelle(s) forme(s) ?* - Mise en place d'une consultation spécifique « oralité » - Création d'une brochure/plaquette d'informations - De manière informelle lors des consultations classiques - Orientation vers un bilan complémentaire (orthophonique, psychomoteur)

Annexe VI : Distribution des sujets des groupes expérimental (N = 94) et contrôle (N = 407), selon la variable Score FR

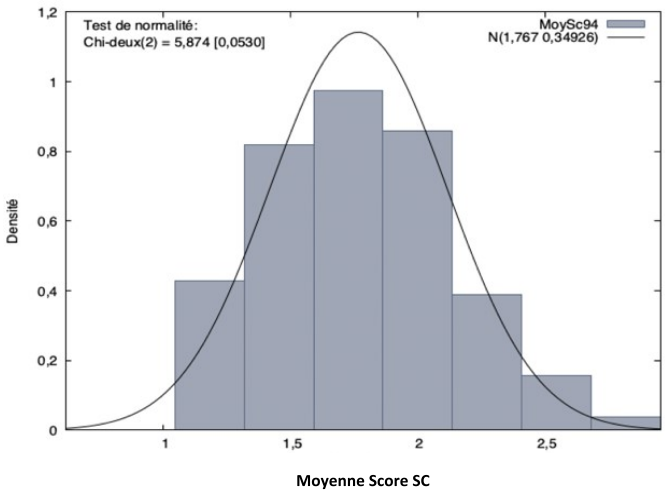


Distribution des sujets (en nombre) en fonction du Score FR, dans le groupe expérimental (N = 94)

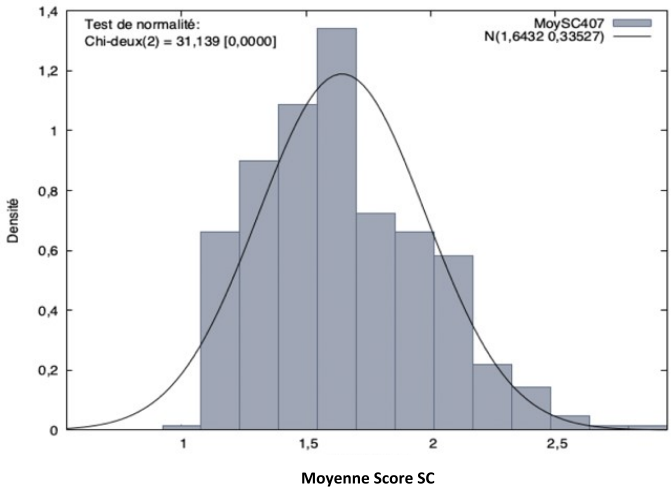


Distribution des sujets (en nombre) en fonction du Score FR, dans le groupe contrôle (N = 407)

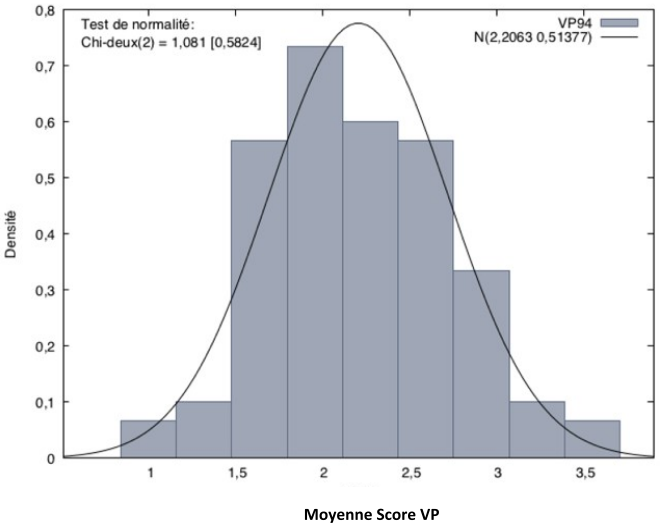
Annexe VII : Vérification de la normalité pour les variables Score SC, Score VP et Score SU, dans les groupes expérimental (N = 94) et contrôle (N = 407)



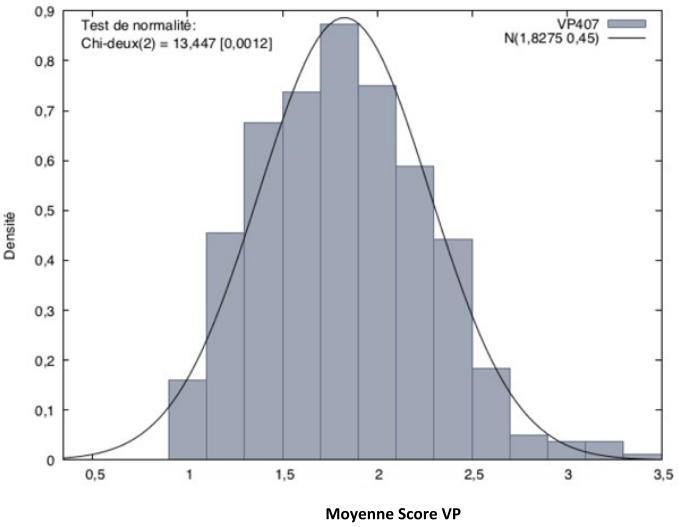
Distribution de la variable Score SC face à la loi normale, dans le groupe expérimental (N = 94)



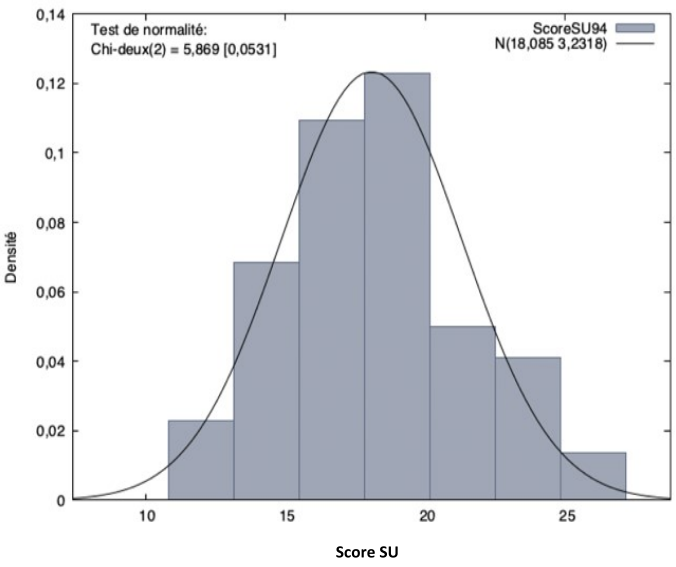
Distribution de la variable Score SC face à la loi normale, dans le groupe contrôle (N = 407)



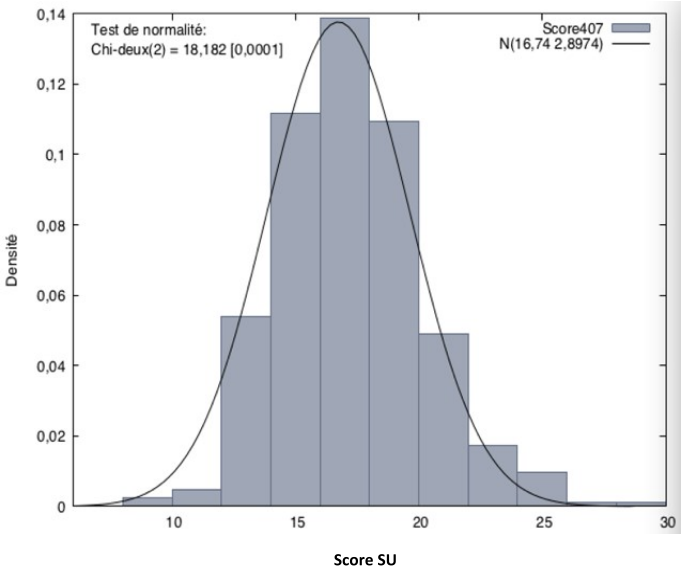
Distribution de la variable Score VP face à la loi normale, dans le groupe expérimental (N = 94)



Distribution de la variable Score VP face à la loi normale, dans le groupe contrôle (N = 407)



Distribution de la variable Score SU face à la loi normale, dans le groupe expérimental (N = 94)



Distribution de la variable Score SU face à la loi normale, dans le groupe contrôle (N = 407)

Annexe VIII : Description et comparaison des variables dans les groupes expérimental (N = 94) et contrôle (N = 407)

Variables	Groupe expérimental (N = 94)	Groupe contrôle (N = 407)	*p*
Score SC (moyennes)	1,76 (± 0,37)	1,65 (± 0,35)	0,0058*
Lenteur (score SC1)	2,77 (± 1,02)	2,18 (± 1,07)	< 0,001*
Absence de plaisir (score SC2)	2,08 (± 0,53)	1,91 (± 0,48)	0,99
Manque d'appétit (score SC3)	1,99 (± 0,79)	1,69 (± 0,61)	0,34
Refus de la nouveauté (score SC4)	2,24 (± 0,97)	2,11 (± 0,90)	0,99
Sélectivité alimentaire (score SC5)	1,96 (± 0,89)	1,79 (± 0,84)	0,99
Défenses comportementales (score SC6)	2,97 (± 1,14)	2,88 (± 1,17)	0,99
Hypersensorialité (score SC7)	1,64 (± 0,37)	1,58 (± 0,35)	1
Nausées, vomissements (score SC8)	1,64 (± 0,76)	1,47 (± 0,72)	0,99
Anomalies praxiques (score SC9)	1,50 (± 0,36)	1,38 (± 0,32)	0,99
Score FR (scores bruts)	2 [1 ; 3]	1 [0 ; 1]	< 0,001*
Hospitalisation	15 (16 %)	2 (0 %)	< 0,001*
Réanimation	5 (5 %)	2 (0 %)	0,006*
Intubation	15 (16 %)	9 (2 %)	< 0,001*
Nutrition artificielle	24 (26 %)	18 (4 %)	< 0,001*
RGO	27 (29 %)	79 (19 %)	0,046*
Infections ORL fréquentes	37 (39 %)	132 (32 %)	0,20
Allergies / intolérances alimentaires	7 (7 %)	35 (9 %)	0,72
Défaut d'expérimentation orale	28 (30 %)	58 (14 %)	< 0,001*
Douleurs (bouche, gorge, ventre)	44 (47 %)	78 (19 %)	< 0,001*
Score VP (moyennes)	2,22 (± 0,53)	1,83 (± 0,46)	< 0,001*
Score SU (scores bruts)	17,98 (± 3,22)	16,74 (± 2,90)	< 0,001*
PEC orthophonique pour des TOA Oui Non	 12 (13 %) 82 (87 %)	 8 (2 %) 399 (98 %)	< 0,001*

Description sous la forme moyenne (écart-type) ou médiane [Q1 ;Q3] selon le type de distribution
*** : résultat significatif ($p < 0,05$)**

Annexe IX : Résultats du questionnaire à destination du groupe Professionnels des CRCM (N = 84)

Notion de « TOA » *Avez-vous déjà entendu parler de la notion de « TOA » ?*	
Non, pas du tout	1 (1 %)
Oui, mais je ne sais pas vraiment à quoi cela fait référence	16 (19 %)
Oui, je connais assez bien (ou très bien) ces troubles	67 (80 %)
Les TOA = un enjeu actuel ? *Dans votre CRCM, vous considérez que le diagnostic et la prise en charge des TOA sont une problématique actuelle*	
Oui	56 (67 %)
Non	15 (18 %)
Je ne sais pas	13 (15 %)
Orientation des patients ayant un TOA *Dans votre CRCM, quel(s) professionnel(s) prend (prennent) en charge les TOA ?*	
Un orthophoniste extérieur au CRCM	59 (70 %)
Le psychologue	52 (62 %)
Le diététicien	59 (70 %)
Le médecin	34 (40 %)
Le kinésithérapeute	6 (7 %)
L'infirmier	14 (17 %)
L'éducateur sportif	0 (0 %)
Autre	7 (8%)
Aucun	3 (4 %)
Nécessité d'une formation des professionnels des CRCM *Pour vous, recevoir une formation autour des TOA serait :*	
Nécessaire	40 (48 %)
Pas nécessaire, mais intéressant	31 (37 %)
Pas nécessaire, car je me sens déjà assez formé(e)	11 (13%)
Pas nécessaire, car cette problématique ne me concerne pas	2 (2 %)
Sans avis	0 (0 %)

Pour les membres de votre équipe, recevoir une formation autour des TOA serait :	
Nécessaire	50 (60 %)
Pas nécessaire, mais intéressant	18 (21 %)
Pas nécessaire, car ils sont déjà assez formés	8 (10 %)
Pas nécessaire, car cette problématique ne les concerne pas	2 (2 %)
Sans avis	6 (7 %)
Nécessité d'une prévention auprès des familles *Pensez-vous qu'une prévention des TOA auprès des familles dans les CRCM serait nécessaire ?*	
Oui	58 (69 %)
Non	4 (5 %)
Déjà mise en place	8 (9 %)
Sans avis	14 (17 %)
Si oui, sous quelle(s) forme(s) ?	
Mise en place d'une consultation spécifique « oralité »	27 (32 %)
Création d'une brochure/plaquette d'informations	40 (48 %)
De manière informelle lors des consultations classiques	26 (31 %)
Orientation vers un bilan complémentaire (orthophonique, psychomoteur)	30 (36 %)

Annexe X : Commentaires des professionnels des CRCM à la fin du questionnaire

« Nous nous questionnons en équipe sur la prévention des troubles de l'oralité dans cette pathologie chronique où la sphère ORL est touchée et agressée, où la parentalité peut être bousculée, où la prise de poids est primordiale et entraîne une pression. Chaque professionnel a son rôle préventif : par exemple, j'essaie d'agresser au minimum lors des prélèvements de mucus la sphère ORL chez le petit enfant. »

« Je pense en effet qu'il serait très intéressant de développer cet aspect de la PEC au niveau des différents professionnels de santé, en particulier pour informer et spécifier le rôle de chaque professionnel (inter et pluridisciplinarité). En revanche, je ne suis pas certaine qu'il soit utile de trop en informer les parents de nos patients, afin d'éviter toute focalisation supplémentaire en lien avec la nutrition. Les enfants étant suivis très régulièrement, c'est aux professionnels de santé de diagnostiquer ce trouble en étant mieux informés ! »

« Au niveau du CRCM, il est important que nous connaissions les causes et sachions les dépister ; éventuellement que nous nous mettions en lien avec une personne qui fasse le diagnostic (sauf si une personne est formée). Mais le suivi doit pouvoir se faire en libéral. »

« Nous rencontrons régulièrement des enfants en consultation présentant des sensibilités ORL. Mes objectifs en tant que diététicienne sont de les détecter au plus vite pour les renvoyer vers un professionnel (orthophoniste spécialisé dans les TOA pédiatriques) et d'éviter d'induire un stress auprès des parents dans la PEC nutritionnelle de leur enfant. Les difficultés que nous rencontrons sont qu'initialement nous ne sommes pas formés pour dépister les premiers signes d'un TOA et que lorsque nous le suspectons nous ne rencontrons pas d'orthophonistes disponibles. »

« Nécessité de création de réseaux de soins locaux, informels ou formalisés, incluant les compétences médicales et non médicales (orthophonistes, kinésithérapeutes, psychologues). »

« C'est une PEC qui nécessite des rendez-vous fréquents, en général hebdomadaires, et il est préférable d'avoir une PEC au plus près du domicile. C'est possible lorsque les orthophonistes sont formés. »

« Certains membres de l'équipe médicale et paramédicale sont bien formés à la prévention, au dépistage, à la guidance et à la coordination de la PEC des troubles de l'oralité et sensibilisent et forment les autres membres de l'équipe.»

« Il est important de faire un travail d'équipe pour accompagner au mieux les familles qui sont confrontées à cette problématique. »

« Je pense qu'il est important que le gastro-entérologue, la diététicienne ainsi que la psychologue soient formées aux troubles de l 'oralité. »

« Dans la mucoviscidose, il y a pleins de facteurs qui peuvent être responsables des troubles de l'oralité. C'est un travail d'équipe, avec les familles. Le tout chapeauté par l'orthophoniste. »

« Actuellement, dans notre CRCM, les TOA sont connus mais banalisés et/ou pas toujours correctement accompagnés... Je suis convaincue qu'une meilleure information, bien réfléchie pour ne pas générer un stress supplémentaire auprès des familles qui se culpabilisent déjà énormément, serait nécessaire. Je revendique depuis de nombreuses années un orthophoniste dans notre équipe pluridisciplinaire… »

RÉSUMÉ / ABSTRACT

Titre : **Troubles de l'oralité alimentaire : le cas particulier de la mucoviscidose -** ***Enquête auprès des parents et des professionnels de santé***

Title : Dysorality : the specific case of cystic fibrosis – ***A parent and healthcare professional survey***

Cette étude s'est donné pour objectifs de démontrer que les enfants atteints de mucoviscidose présentent plus de signes cliniques retrouvés dans les troubles de l'oralité alimentaire que les enfants sains, ainsi que d'étudier les ressentis des professionnels de santé des CRCM. Une enquête menée auprès des parents a montré des différences significatives entre enfants atteints et enfants sains concernant les signes cliniques, les facteurs de risque, le vécu parental et les stratégies utilisées pour faciliter les repas. De plus, les professionnels ressentent le besoin d'être davantage formés et estiment qu'une prévention auprès des familles serait nécessaire.

MOTS-CLÉS : mucoviscidose, troubles de l'oralité alimentaire, signes cliniques, professionnels des CRCM

KEYWORDS : cystic fibrosis, dysorality, clinical signs, CRCM professionals