



HAL
open science

Fiabilité et validité du Modified Shuttle Walk Test lors de l'évaluation de la tolérance à l'effort chez les patients atteints de mucoviscidose : une revue de littérature

Léa Rochas

► To cite this version:

Léa Rochas. Fiabilité et validité du Modified Shuttle Walk Test lors de l'évaluation de la tolérance à l'effort chez les patients atteints de mucoviscidose : une revue de littérature. Sciences du Vivant [q-bio]. 2024. dumas-04779985

HAL Id: dumas-04779985

<https://dumas.ccsd.cnrs.fr/dumas-04779985v1>

Submitted on 13 Nov 2024

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.

**FIABILITE ET VALIDITE DU
« MODIFIED SHUTTLE WALK TEST » DANS
L'EVALUATION DE LA TOLERANCE A L'EFFORT
CHEZ LES PATIENTS ATTEINTS DE
MUCOVISCIDOSE : UNE REVUE DE
LITTERATURE**

ROCHAS Léa
Directeur de mémoire : Mr HERBET Antoine

REMERCIEMENTS

Je tiens à exprimer ma gratitude envers Monsieur Antoine Herbet, mon directeur de mémoire, pour son professionnalisme et son accompagnement tout au long de la rédaction de ce mémoire de fin d'études.

Je souhaite également exprimer ma reconnaissance envers l'ensemble des personnes que j'ai eu l'occasion de rencontrer lors de mes stages de mise en pratique pour avoir grandement participé à mon apprentissage et mon développement professionnel.

Je remercie les patients que j'ai eu le privilège de côtoyer lors de mes stages qui m'ont permis de consolider mon attachement au métier de masseur-kinésithérapeute.

A mes parents pour leur soutien indéfectible, leur amour inconditionnel ainsi que pour leur confiance en mes capacités, qui ont renforcé ma détermination à atteindre mes objectifs.

Un grand merci à mes deux grands frères, Nicolas et Julien, mes deux piliers, et à ma belle-sœur, Léa, qui n'ont jamais cessé de croire en moi.

Mes remerciements s'étendent également à l'ensemble de mes proches qui m'ont soutenue pendant ces années d'étude.

A Saveria, Angelina, Alba et Ange, mes nièces et mon filleul, je vous adresse tout mon amour infini.

Enfin, je dédie ce mémoire à mes grands-parents, Ange et Madeleine. Votre force de caractère et votre persévérance continueront à m'inspirer pour toujours.

TABLE DES MATIÈRES

| | |
|--|----|
| 1. INTRODUCTION | 1 |
| 1.1 Qu'est-ce que la mucoviscidose ?..... | 1 |
| 1.1.1 Définition | 1 |
| 1.1.2 Epidémiologie | 2 |
| 1.1.3 Diagnostic et espérance de vie | 2 |
| 1.1.4 Physiopathologie et signes cliniques | 5 |
| 1.1.5 Classification | 9 |
| 1.2 Prise en charge du patient atteint de fibrose kystique [15] [19]..... | 9 |
| 1.3 L'activité physique | 13 |
| 1.3.1 Définition | 13 |
| 1.3.2 La tolérance à l'effort chez les patients atteints de mucoviscidose | 13 |
| 1.3.3 Les différents outils d'évaluation de la tolérance à l'activité physique dans la mucoviscidose..... | 15 |
| 1.3.4 Modified shuttle walk test (MSWT) [31]..... | 17 |
| 1.4 Propriétés métrologiques [37][38] | 18 |
| 1.4.1 La fiabilité..... | 18 |
| 1.4.2 La validité | 18 |
| 1.5 Intérêt de la revue de littérature | 19 |
| 1.6 Objectifs de cette revue de littérature | 20 |
| 2. METHODE | 21 |
| 2.1. Critères d'éligibilité des études pour cette revue..... | 21 |
| 2.1.1 Schéma d'étude | 21 |
| 2.1.2 Population..... | 21 |
| 2.1.3 Intervention | 21 |
| 2.1.4 Comparateur | 22 |
| 2.1.5 Critères de jugement | 22 |
| 2.1.6 Langues et dates | 23 |
| 2.2 Méthodologie de recherche des études..... | 23 |
| 2.2.1 Sources d'information..... | 23 |
| 2.2.2 Equation de recherche..... | 23 |
| 2.3 Méthode d'extraction et d'analyse des données | 24 |
| 2.3.1 Méthode de sélection des études..... | 24 |
| 2.3.2 Extraction des données..... | 25 |
| 2.4 Evaluation de la qualité méthodologique des études sélectionnées | 25 |
| 2.5 Méthode de synthèse des résultats..... | 27 |
| 3. RESULTATS | 28 |

| | | |
|-----------|---|-----------|
| 3.1 | Diagramme de flux..... | 28 |
| 3.2 | Articles exclus | 29 |
| 3.3 | Articles inclus | 29 |
| 3.3.1 | Premier article sélectionné | 29 |
| 3.3.2 | Deuxième article sélectionné..... | 31 |
| 3.3.3 | Troisième article sélectionné | 32 |
| 3.3.4 | Quatrième article sélectionné | 33 |
| 3.3.5 | Cinquième article sélectionné | 34 |
| 3.4 | Synthèse des biais des études incluses..... | 37 |
| 3.4.1 | Echelle QAREL | 37 |
| 3.4.2 | Echelle QUADAS-2..... | 38 |
| 3.5 | Effets de la revue de littérature sur les critères de jugements | 39 |
| 3.5.1 | Résultats pour la fiabilité | 39 |
| 3.5.2 | Résultats pour la validité..... | 41 |
| 4. | DISCUSSION | 43 |
| 4.1 | Analyse des principaux résultats..... | 43 |
| 4.1.1 | La fiabilité test-retest..... | 43 |
| 4.1.2 | La validité | 46 |
| 4.2 | Evaluation des biais des études incluses | 48 |
| 4.3 | Applicabilité des résultats en pratique clinique..... | 50 |
| 4.4 | Qualité des preuves | 51 |
| 4.5 | Biais potentiel de la revue | 54 |
| 4.6 | Conflits d'intérêts et financement | 56 |
| 4.7 | Conflits d'intérêts et financement de cette revue..... | 56 |
| 5. | CONCLUSION | 57 |
| 6. | REFERENCES BIBLIOGRAPHIQUES | 58 |
| 7. | ANNEXES | 62 |

Abréviations

AFE : Augmentation du flux expiratoire
CFTR : Cystic Fibrosis Transmembrane conductance Regulator
CRCM : Centre de Ressources et de Compétences de la Mucoviscidose
CPET : Test d'effort cardio-pulmonaire
DA : Drainage autogène
EDIC : Exercices à débit inspiratoire contrôlé
ELPr : Expirations lentes et prolongées
ELTGOL : Expirations lentes totales à glotte ouvert en infra-latéral
FK : Fibrose kystique
IC à 95% : Intervalle de confiance à 95%
ICC : Coefficient de corrélation intra classe
IMG : Interruption médicale de grossesse
ISWT : Incremental Shuttle Walk Test
MST : Modified Shuttle Test
MSWT : Modified Shuttle Walk Test
QAREL : Quality Assessment of Reliability
QUADAS-2 : Quality Assessment of Diagnostic Accuracy Studies
TIR : Trypsine Immuno Réactive
VEMS : Volume expiratoire maximal par seconde
VO2max : Consommation maximale d'oxygène

Sommaire des tableaux

| | |
|--|----|
| Tableau I : Classification des différentes formes de la mucoviscidose | 9 |
| Tableau II : Question de recherche à l'aide du modèle du modèle PICO | 20 |
| Tableau III : Exemples de termes utilisés pour les recherches préliminaires | 23 |
| Tableau IV : Équations de recherches utilisées dans les différentes bases de données | 24 |
| Tableau V : Récapitulatif des articles inclus dans la revue | 35 |
| Tableau VI : Critères d'exclusion, fiabilité et validité des études sélectionnées | 36 |
| Tableau VII : Risque de biais au niveau de la fiabilité (QAREL) | 37 |
| Tableau VIII : Risque de biais au niveau de la validité (QUADAS-2)..... | 38 |
| Tableau IX : Données statistiques sur la fiabilité test-retest..... | 39 |
| Tableau X : Seuils de coefficient de corrélation intra classe dans l'étude n°1 (Del Corral et al.)..... | 39 |
| Tableau XI : Seuils de coefficient de corrélation intra classe dans l'étude n°2 (Corda et al.) | 39 |
| Tableau XII : Données statistiques sur la fiabilité test-retest de l'étude n°3 (Leite et al.) | 40 |
| Tableau XIII : Tableau récapitulatif des ICC et des IC à 95% des articles évaluant la fiabilité..... | 40 |
| Tableau XIV : Probabilité de différences statistiques significatives des moyennes obtenues lors de chaque visite dans l'article de Leite et al. | 40 |
| Tableau XV : Valeurs des écarts-types des différences moyennes obtenus dans les diagrammes de Bland-Altman..... | 41 |
| Tableau XVI : Données statistiques dans l'évaluation de la validité du MSWT | 42 |
| Tableau XVII : Qualité des preuves de notre revue de littérature selon le système GRADE..... | 53 |
| Tableau XVIII : Biais potentiel de la revue évalué avec l'échelle AMSTAR 2.0 | 55 |
| Tableau XIX : Conflits d'intérêts et financement des études sélectionnées | 56 |

Sommaire des figures

| | |
|---|-----------|
| Figure 1 : Localisation du gène CFTR sur le chromosome 7 | 5 |
| Figure 2 : Conséquences d'un défaut de la protéine CFTR sur le mucus | 7 |
| Figure 3 : Physiologie de la respiration | 11 |
| Figure 4 : Diagramme de flux | 28 |
| Figure 5 : Pourcentage de l'échelle QAREL..... | 37 |

1. INTRODUCTION

1.1 Qu'est-ce que la mucoviscidose ?

1.1.1 Définition

La **mucoviscidose**, également connue sous le nom de **fibrose kystique (FK) du pancréas**, est une pathologie chronique progressive touchant principalement les voies respiratoires et le système digestif.

Elle est caractérisée par une altération du mucus le rendant épais et collant.

Cette pathologie n'est pas considérée comme létale ce qui fait qu'elle n'intervient pas dans le cadre des Interruptions Médicales de Grossesse (IMG).

C'est une pathologie génétique dite autosomique récessive multisystémique. En effet, seuls les sujets ayant deux mutations du gène, l'une provenant du père et l'une provenant de la mère, sont atteints. [1]

- Le mode de transmission de la mucoviscidose (Annexe 1) :

Lorsqu'un couple de porteurs sains a des enfants, les probabilités d'avoir un enfant atteint ou non de la mucoviscidose sont les suivantes :

- ✓ Il y a une chance sur quatre que l'enfant ne soit pas malade et qu'il ne soit pas porteur du gène atteint. Il a donc hérité du gène sain de la mère et du gène sain du père.
- ✓ Il y a deux chances sur quatre que l'enfant ne soit pas malade mais qu'il soit porteur du gène de la mucoviscidose. Ici, l'enfant a hérité d'un gène sain de l'un de ses parents et d'un gène porteur de l'autre parent.
- ✓ Il y a un risque sur quatre que l'enfant soit atteint de la mucoviscidose, c'est-à-dire qu'il a hérité des deux gènes porteurs de la mucoviscidose, un de la mère et un du père.

Par conséquent, à chaque naissance d'un enfant de parents porteurs sains de la mutation du gène CFTR (Cystic Fibrosis Transmembrane conductance Regulator), on retrouve un **risque élevé** (1/4) que celui-ci développe la mucoviscidose.

1.1.2 Epidémiologie

La fibrose kystique est une des maladies génétiques les plus courantes chez les caucasiens avec une incidence mondiale de 0.25 à 5 pour 10 000 naissances [3].

Elle est retrouvée plus fréquemment dans la population d'origine européenne alors qu'elle est trois à quatre fois plus rare dans les populations des autres continents.

En effet, l'incidence varie considérablement selon l'origine ethnique avec [4] :

- 1 sur 13 500 chez les personnes hispaniques,
- 1 sur 15 000 chez les personnes africaines,
- 1 sur 35 000 chez les asiatiques.

Chaque année, en France, 200 enfants naissent avec la mucoviscidose, soit une moyenne de 1 sur 4 500 nouveau-nés.

La France compterait 6 000 patients.

Son diagnostic se fait avant la fin de la deuxième année de vie dans 70% des cas et avant l'âge de 18 ans dans 98% des cas [2].

Dans 90% des cas, les patients meurent suite à une insuffisance cardio-respiratoire sévère [5].

Au moment de sa découverte initiale, en 1938, la mucoviscidose était une maladie uniformément mortelle chez l'enfant.

Aujourd'hui, plus de 50% des personnes atteintes de FK ont 18 ans et plus : cette maladie exclusivement infantile à sa découverte devient une maladie dans laquelle les personnes touchées passent à l'âge l'adulte grâce à l'amélioration des soins et à l'évolution de la santé.

En 2018, 49 886 patients ont été comptabilisés en Europe, dont 51.2% étaient des adultes, selon la Société européenne de la fibrose kystique. [6]

Selon le Registre Français de la mucoviscidose, en 2022, on observe 62.5% d'adultes touchés par la pathologie contre 37.5% d'enfants malades (**Annexe 2**)[7].

1.1.3 Diagnostic et espérance de vie

○ Diagnostic prénatal

Cette procédure peut être recommandée aux femmes enceintes en début de grossesse après un conseil génétique.

Ce conseil génétique a lieu chez les familles où un membre est atteint de la mucoviscidose ou s'il est dépisté comme étant un porteur sain.

Il a pour objectif d'aider les parents à mieux appréhender les différentes possibilités.

Le diagnostic prénatal est effectué soit par un prélèvement du liquide amniotique par amniocentèse soit par la collecte des cellules du placenta dans l'utérus de la femme pour la réalisation d'une analyse génétique de l'embryon. [8]

- **Diagnostic néonatal [7]**

Avant 2002, le diagnostic était évoqué, après une période d'errance diagnostique, devant des signes cliniques confirmés par un test positif de la sueur avec un taux d'ions chlorures élevé.

En plus, une analyse moléculaire du gène CFTR était réalisée afin de rechercher d'éventuelles mutations.

En France, depuis 2002, le **dépistage néonatal est devenu systématique** à l'ensemble du territoire métropolitain ainsi qu'en Outre-Mer.

- ❖ **En quoi consiste le dépistage néonatal de la mucoviscidose ? [8]**

Le dépistage néonatal se fait au troisième jour de vie au cours duquel plusieurs examens sont réalisés afin de diagnostiquer la pathologie.

Un dosage sanguin de la trypsine immuno-réactive (TIR) est réalisé par le test de Guthrie : du sang est prélevé au niveau du talon du nouveau-né puis déposé sur un papier buvard.

Pendant la vie fœtale et dans les premiers mois de vie, en cas d'altération pancréatique, la TIR sera en plus grande quantité dans l'organisme.

Effectivement, chez les nouveau-nés malades, le surplus de mucus bloque partiellement les canaux pancréatiques reliés à l'intestin grêle. Ainsi, le trypsinogène n'atteint pas l'intestin et n'est donc pas converti en trypsine.

Elle est dosée car elle permet de **détecter 95% des nouveaux nés atteints de mucoviscidose.**

On considère le dépistage de la TIR positif lorsque le taux reste continuellement élevé entre 7 et 14 jours de vie.

Ce test identifie plusieurs maladies donc il existe des faux positifs mais aussi des faux négatifs. Dans ce cas-là, le patient peut être diagnostiqué très tard par des signes qui mettent du temps à apparaître.

Ainsi, si le test de Guthrie est positif, une recherche de mutations est effectuée directement sur le sang prélevé afin d'affiner le diagnostic.

Lors de la recherche de mutations du gène, plusieurs cas peuvent être observés :

- ✓ **Deux mutations génétiques sont décelées.**

Par conséquent, le nouveau-né et ses parents doivent se rendre dans un Centre de Ressources et de Compétences de la Mucoviscidose (CRCM) pour une évaluation définitive par le biais du test de la sueur dans les 72 heures suivant le dépistage positif. Cela permettra aussi de mettre en place une prise en charge précoce et adaptée.

✓ **Une seule mutation est décelée.**

Dans ce cas-là, le test de la sueur est aussi réalisé dans un centre spécifique.

Si le test est révélé positif, l'enfant est pris en charge avec le même protocole que les enfants ayant les deux mutations génétiques.

Cependant, quand le test est négatif, une consultation de conseil génétique permettra aux parents de comprendre les risques potentiels de leur nouveau-né.

✓ **Aucune mutation n'est décelée malgré un dosage de la TIR élevée.**

Ici, vers le 21ème jour de vie, un nouveau contrôle de la TIR est effectué. Si cette dernière reste anormalement augmentée, un test de la sueur sera réalisé dans un centre spécialisé.

Lorsque le résultat du test de la sueur est incertain, il sera nécessaire de répéter le test afin d'obtenir une évaluation plus précise.

○ Le test de la sueur [6]

La sensibilité de ce test est de 98% et sa spécificité est de 83%. Sa réalisation est soumise au respect du Guide de Bonne Exécution des Analyses (GBEA).

Ce test peut être effectué dès 48 heures de vie et idéalement avant l'âge de 4 semaines. Il est pratiqué chez tous les nourrissons présentant des symptômes évocateurs de la mucoviscidose comme des infections respiratoires répétitives ou un retard de croissance.

Il n'est pas réalisé avant car il est normal que dans les premières 24 heures de vie, les taux de sodium dans la sueur soient élevés.

Pour améliorer les chances d'une collecte de sueur adéquate, il est recommandé que le nouveau-né pèse au moins 3.5 kg ou bien qu'il ait atteint trois semaines de vie.

L'objectif de ce test est d'évaluer la fonction de la protéine CFTR au niveau des glandes sudoripares. Si le patient est atteint de mucoviscidose, on retrouvera une concentration élevée en chlorure.

○ Espérance de vie à la naissance [9]

Le dépistage néonatal systématique ainsi que l'amélioration de la prise en charge ont permis une augmentation de l'espérance de vie à la naissance des patients atteints de fibrose kystique.

En 1960, l'espérance de vie était de 5 ans.

En 2018, l'espérance de vie était de 50 ans avec un âge médian à 40 ans.

Une prise en charge de plus en plus précoce a permis d'atteindre une espérance de vie à 49 ans chez les femmes et à 56 ans chez les hommes en 2023.

1.1.4 Physiopathologie et signes cliniques

Le mot « mucoviscidose » dérive de **mucus** et de **visqueux**.

- Quel est le rôle du mucus ? [10]

Le mucus se définit comme une substance visqueuse élaborée par plusieurs glandes, en particulier celles présentes au niveau du système respiratoire, du système digestif, des organes génitaux et à différents endroits du corps humain.

Ce dernier contient de l'eau, des glycoprotéines, des lipides et des sels. Cependant, cette composition peut varier selon sa localisation.

Il est responsable de quatre grandes fonctions dans l'organisme, qui sont :

- ✓ Un rôle de **protection** contre les substances étrangères au corps humain comme les bactéries, les virus et les particules irritantes. Il va agir comme une barrière en empêchant leurs passages dans les voies respiratoires, dans le système digestif...
- ✓ Un rôle de **fluidifiant** afin de lubrifier les muqueuses. Ainsi, la plupart de nos fonctions physiologiques sont facilitées.
- ✓ Un rôle de **protection** de la fragilité des tissus de nos organes contre l'irritation et les dommages mécaniques.
- ✓ Enfin, un rôle **d'élimination** des déchets : le mucus va internaliser les particules étrangères pour les expulser du corps. Par exemple, il peut les évacuer en passant par les voies respiratoires où intervient le phénomène de la toux afin de supprimer les sécrétions.

Sa production est régulée par différents signaux chimiques et physiologiques.

Sa viscosité peut être modifiée selon différents facteurs, notamment selon la pathologie de la personne.

Dans la mucoviscidose, nous verrons que sa **composition est altérée** le rendant plus épais. Si le mucus est plus épais, il sera plus difficile à éliminer et va donc stagner dans l'organisme.

- Quel est le rôle du gène CFTR ?

Dans la fibrose kystique, on retrouve un **défaut du gène CFTR** présent sur le **chromosome 7** [11]. Il s'agit d'un chromosome autosome, que l'on différencie des chromosomes sexuels X et Y.

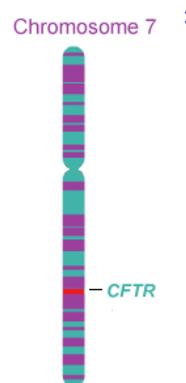


Figure 1 : Localisation du gène CFTR sur le chromosome 7

Ce gène a pour rôle la synthèse de la protéine CFTR présente dans la membrane apicale des épithéliums sécrétoires de plusieurs organes, notamment [12] :

- ✓ Le poumon
- ✓ Les sinus
- ✓ Le foie
- ✓ Le pancréas
- ✓ Les glandes salivaires
- ✓ Les organes génitaux

Cette dernière est composée de 1 480 acides aminés et pèse 140 kD.

La fonction de cette protéine est la régulation des canaux ioniques pour permettre le transport des ions chlorures. Elle agit aussi sur l'équilibre hydroélectrolytique des sécrétions par inhibition du canal sodium. [13]

S'il y a une altération du passage de la protéine CFTR au niveau du canal sodium, il y aura un problème d'échange et d'hydratation provoquant une atteinte des mucosités.

Dans la mucoviscidose, cette protéine sera soit absente, soit en quantité insuffisante, soit avec un défaut structurel et fonctionnel : ce dysfonctionnement engendre un défaut de sécrétion de l'eau et des électrolytes causant une déshydratation et un épaississement du mucus. [12]

Il s'agit d'une exocrinopathie généralisée, c'est-à-dire que toutes les glandes exocrines et endocrines sont concernées ainsi que l'appareil génital.

Ce défaut va conduire à une **hyper concentration de mucus (Annexe 3)** entraînant plusieurs problèmes de santé [4] :

- ✓ Au niveau **respiratoire**, l'épaississement du mucus provoque une obstruction des voies respiratoires à l'origine d'infections pulmonaires fréquentes, une toux persistante et une réduction de la capacité respiratoire.
- ✓ Au niveau **digestif**, on retrouve une atteinte des canaux pancréatiques ce qui déclenche un dérèglement du processus de digestion et de l'absorption des nutriments. Ce sont des patients présentant une malnutrition globale alors que leur appétit est souvent conservé, voire augmenté.
- ✓ Chez les patients atteints de mucoviscidose, on retrouve une forte concentration de sels dans leur **sueur**, ce qui constitue un des éléments diagnostiques de la maladie.

Pour ce qui concerne **l'appareil génital**, la fibrose kystique est à l'origine d'une hypofertilité voire d'une stérilité.

La protéine CFTR permet aussi l'internalisation et l'élimination des bactéries.

Diverses mutations du gène CFTR existent.

Dans la mucoviscidose, la plus fréquente est la **mutation F508del** [12]. En effet, elle est retrouvée chez 82% des patients atteints de mucoviscidose en France.

Cette mutation entraîne un défaut de destruction des bactéries provoquant donc leur reproduction.

La figure ci-dessous permet de représenter visuellement les conséquences d'une anomalie du gène CFTR [14] :

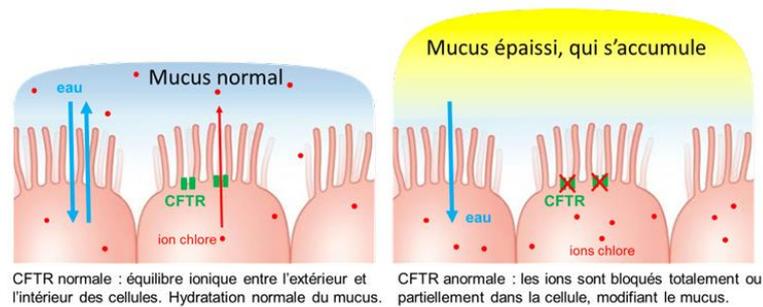


Figure 2 : Conséquences d'un défaut de la protéine CFTR sur le mucus

❖ LES SIGNES CLINIQUES [15]

La fibrose kystique est une maladie complexe pouvant présenter divers signes cliniques évolutifs et variables d'un individu à l'autre. [3]

Les signes cliniques typiques sont évidents dès les premiers mois de vie.

Comme vu précédemment, l'anomalie de fonctionnement du gène CFTR se manifeste notamment au niveau des voies respiratoires, de l'appareil digestif, du foie, des glandes sudoripares et de l'appareil reproducteur. Nous allons donc détailler plus amplement les conséquences sur ces différents systèmes.

○ **Au niveau respiratoire** [12]

L'anomalie de la protéine CFTR entraîne un trouble de la qualité et de la quantité du mucus le rendant très épais. Ce mucus va finir par stagner et capter toutes les impuretés.

L'issue de cette hyperviscosité est une altération de la clairance muco-ciliaire générant une inflammation des tissus.

La mucoviscidose est une pathologie pulmonaire chronique. En effet, on observe une obstruction progressive des voies respiratoires et le développement de bronchectasies.

La bronchectasie se définit comme un élargissement anormal et permanent des bronches provoquant une diminution de la capacité à éliminer les sécrétions ce qui augmente le risque d'infections pulmonaires. [16]

Dans la majorité du temps, le degré d'atteinte respiratoire agit sur le pronostic vital.

Les **autres signes caractéristiques** qui peuvent être retrouvés dans la fibrose kystique sont [4] :

- ✓ Les sinusites
- ✓ Les bronchites
- ✓ Les pneumonies récurrentes, notamment causées par des bactéries comme *Pseudomonas aeruginosa*
- ✓ Un asthme qui ne répond pas bien au traitement standard
- ✓ Une polypose nasale : il s'agit d'une inflammation de la muqueuse des sinus à l'origine de polypes nasaux qui sont des petites tumeurs bénignes dans le nez.
- ✓ Une toux persistante et productive

- **Au niveau digestif** [4] [17]

Les différents signes observés peuvent être :

- ✓ La malnutrition : on a une mauvaise absorption des nutriments pouvant entraîner un retard de croissance chez les enfants
- ✓ Une stéatorrhée définie par des selles volumineuses et malodorantes
- ✓ Une obstruction intestinale
- ✓ Une constipation chronique
- ✓ Un prolapsus rectal
- ✓ Une maladie du foie

- **Au niveau des glandes sudoripares** [4]

Pour diagnostiquer la mucoviscidose, un **test de sueur** est utilisé car les patients possèdent une concentration élevée en sel dans leur sueur.

En cas de transpiration accrue, ces derniers ont tendance à être déshydratés.

- **Au niveau de l'appareil reproducteur** [18]

Chez 98% des hommes atteints de la mucoviscidose, il y a une atrésie des canaux déférents engendrant une stérilité.

On observe aussi une diminution de la fertilité féminine car le mucus du col de l'utérus devient trop épais ce qui rend difficile la pénétration par les spermatozoïdes.

De plus, les sécrétions épaisses et collantes vont obstruer les trompes de Fallope perturbant le transport des ovules vers l'utérus.

1.1.5 Classification

On retrouve plusieurs formes de mucoviscidose en fonction du degré d'atteinte de la protéine CFTR. [4]

| CLASSIFICATION | DEGRÉ D'ATTEINTE DE LA PROTÉINE CFTR | CONSÉQUENCES |
|----------------|---|--|
| Classe 1 | Absence complète de la protéine par un arrêt prématuré de la traduction | Forme létale, l'enfant ne survit pas. |
| Classe 2 | Anomalie de la maturation et de la progression de la protéine : elle n'atteint pas la membrane plasmique des cellules | Forme généralement grave et non viable. |
| Classe 3 | Anomalie de régulation et de l'ouverture du canal chlore | Forme respiratoire et digestive grave mais viable |
| Classe 4 | Anomalie de la conductance des ions chlorures. | Forme la plus fréquente. |
| Classe 5 | Diminution, instabilité ou réduction de la quantité en CFTR | Forme bénigne de mucoviscidose : on la retrouve chez les adultes présentant des pathologies associées. |

Tableau I : Classification des différentes formes de la mucoviscidose

1.2 Prise en charge du patient atteint de fibrose kystique [15] [19]

La prise en charge de la mucoviscidose est **multidisciplinaire** et assez contraignante.

Le dépistage néonatal systématique de la mucoviscidose permet une prise en charge précoce de la pathologie afin de ralentir son évolution et de limiter certaines complications.

Une fois que l'enfant est diagnostiqué comme étant atteint de la mucoviscidose, la première étape est qu'il doit se rendre dans un CRCM afin de mettre en place son protocole de soin

Dans les six premiers mois de vie, il y a une consultation tous les mois au CRCM. Ensuite, tout au long de sa première année de vie, les consultations ont lieu tous les deux mois.

Après sa première année de vie, l'enfant vient tous les trois mois au CRCM. A chaque visite, un bilan complet va être réalisé.

Celui-ci consiste en :

- ✓ Une évaluation clinique où le poids, la taille et le périmètre brachial sont mesurés. Il y a aussi une cotation du bilan musculaire.
- ✓ Une exploration fonctionnelle respiratoire en fonction de l'âge. Il s'agit d'une série d'examens évaluant la capacité respiratoire du patient.
- ✓ Un examen cyto bactériologique des crachats (ECBC).

Tous les six mois, on réalise :

- Un recueil de l'apport calorique sur 24 heures : les parents doivent noter tout ce que l'enfant avale.
- Un recueil des lipides présents dans les selles pendant trois jours : l'enfant doit manger le plus gras possible pour avoir un maximum de lipides dans les selles donnant des selles très grasses (stéatorrhée).
- Une évaluation de la bonne pratique des aérosols. Ce n'est pas systématique mais il est très fréquent que ces patients soient sous aérosol.

A ce jour, il n'existe aucun traitement curatif de la fibrose kystique même si de nombreux progrès ont permis d'améliorer la prise en charge des patients.

Nous sommes sur un traitement symptomatique et multidisciplinaire où un pédiatre, un masseur-kinésithérapeute, un diététicien et un psychologue interviennent.

La prise en charge est centrée sur l'atteinte respiratoire du patient mais il ne faut pas négliger les troubles digestifs et nutritionnels. [19]

- **Au niveau respiratoire**, on retrouve deux objectifs principaux [20] :

1. L'amélioration de la clairance mucociliaire
2. La réduction des infections bactériennes au niveau des poumons

Pour ce qui est du traitement médical [3], cette prise en charge nécessite une antibiothérapie, des fluidifiants mucolytiques, des traitements par bronchodilatateurs et des anti-inflammatoires.

Les fluidifiants permettent une élimination des sécrétions plus efficaces en les rendant plus liquides. Ils sont administrés sous forme d'aérosols et doivent être complétés par des séances de kinésithérapie respiratoire.

En cas de complications, les patients sont mis sous antibiothérapie. Cependant, l'administration d'antibiotiques peut devenir inefficace due à des souches bactériennes multirésistantes présentes dans les poumons mais aussi à l'hyperviscosité du mucus rendant le passage difficile d'accès pour les antibiotiques.

Dans les cas les plus graves, c'est-à-dire lors d'une insuffisance respiratoire terminale, une **transplantation pulmonaire** peut être proposée. [15]

Depuis 2015, les chercheurs se concentrent sur des **thérapies ciblées** sur les mutations du gène CFTR [20]. Une diminution significative de l'ensemble des troubles de la pathologie a pu être observée, notamment au niveau de la fonction respiratoire.

Ces nouveaux traitements agissent sur la protéine soit en stimulant l'activité de cette dernière soit en corrigeant ses anomalies.

En fonction de la mutation présente chez le patient, le médecin pourra lui prescrire [19] :

- ✓ Le Kaftrio®
- ✓ L'Ivacaftor (Kalydeco®)
- ✓ L'Orkambi®
- ✓ Le Symkevi®

○ **Au niveau pancréatique** [17]

Des séances avec une diététicienne sont proposées pour définir un régime alimentaire adapté et permettre une compensation du déficit enzymatique.

Cette amélioration de la malnutrition permet un meilleur état général mais aussi une résistance anti-infectieuse et une capacité respiratoire plus performantes.

Une insulinothérapie peut devenir nécessaire due à l'apparition d'un **diabète** qui est la conséquence d'un dysfonctionnement du pancréas.

Chez les patients atteints de mucoviscidose, les vaccins contre la grippe, le Covid-19, la rougeole et le pneumocoque sont recommandés.

❖ **L'importance de la kinésithérapie respiratoire**

Le patient doit être pris en charge dans un cabinet libéral ou à domicile le plus rapidement possible afin de réaliser des séances de kinésithérapie respiratoire.

Tout d'abord, nous allons évoquer la physiologie respiratoire. Puis, nous verrons les conséquences de la mucoviscidose sur la respiration des patients, d'où la nécessité de ces séances.

Il s'agit de l'une des plus grandes fonctions respiratoires de notre organisme.

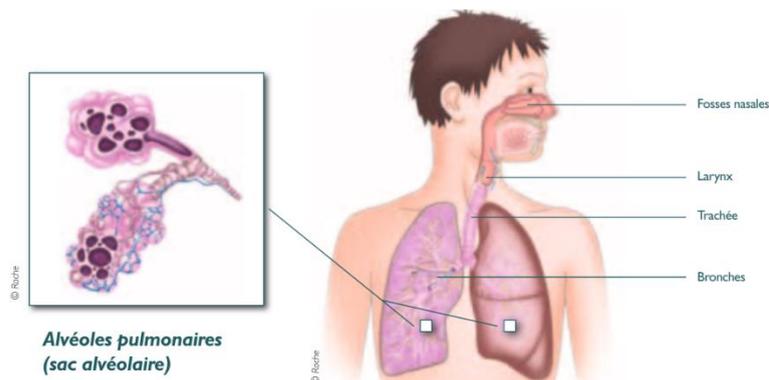


Figure 3 : Physiologie de la respiration

L'air que l'on inspire est chargé en oxygène et passe par le nez, la trachée et les bronches.

Le nez va servir à humidifier et réchauffer cet air.

Les bronches se divisent en plusieurs bronchioles. Une fois que l'air inspiré arrive au niveau des bronchioles terminales, ce dernier entre dans des alvéoles pulmonaires.

C'est à cet endroit que le sang récupère l'air oxygéné et se débarrasse du dioxyde de carbone, que nous éliminons lors de l'expiration.

Cependant, chez les patients atteints de CF, même si à leur naissance leurs poumons sont sains, en grandissant il va y avoir un défaut d'hydratation. Ainsi, le surplus de mucus va empêcher les cils de se mouvoir afin d'éliminer les sécrétions et les bactéries, ce qui va provoquer des infections.

Les bronches qui sont normalement rigides vont devenir molles et difficiles à vidanger, donc le mucus va venir stagner à cet endroit et il n'y aura plus d'élimination de bactéries d'où la kinésithérapie respiratoire [22] (**Annexe 3**).

Ces séances ont plusieurs rôles :

- ✓ Un rôle d'**éducation et d'apprentissage** de l'autonomie pour les parents et pour les enfants
- ✓ Un rôle de **développement du capital alvéolaire** de façon ludique
- ✓ Un rôle d'**évacuation du mucus et de prévention** des complications

Les sessions sont réalisées en fonction des besoins : cela peut aller de deux fois par jour en phase aiguë à une fois par semaine.

Elles doivent être faites à distance des repas et après l'administration de fluidifiants. Il est important d'effectuer la séance avant la prise de l'antibiothérapie en aérosol.

Chez ces patients, il faut se méfier de l'auscultation pulmonaire en début de séance. En effet, si le mucus est très épais et bouge très peu, le kinésithérapeute entendra peu de bruit au stéthoscope.

Il existe plusieurs techniques de nettoyage des voies respiratoires.

Le nettoyage des voies aériennes supérieures se fait par douche nasale. Il est l'un des plus importants et doit être réalisé plusieurs fois par jour, soit par le kinésithérapeute soit par les parents du patient ou par le patient qui est en âge de comprendre l'exécution du lavage de nez.

Celui des voies aériennes inférieures dépend du niveau d'encombrement [23] :

- ✓ Si les bronches proximales sont encombrées, la méthode d'augmentation du flux expiratoire (AFE) de façon rapide est utilisée.
- ✓ Si ce sont les bronches moyennes : on réalise des AFE lentes, des expirations lentes et prolongées (ELPr), du drainage autogène (DA) et des expirations lentes, totales à glotte ouverte en décubitus infra latéral (ELTGOL).
- ✓ Si ce sont les bronches distales : le DA, des exercices à débit inspiratoire contrôlé (EDIC) et de la spirométrie incitative sont effectués.

La mucoviscidose est un syndrome obstructif qui évolue vers un syndrome restrictif avec une atteinte principalement du poumon profond que l'on cherchera à limiter.

Le choix des techniques utilisées au cours de la séance de kinésithérapie respiratoire dépend aussi de l'évolution de la pathologie ainsi que des complications retrouvées chez le patient.

- La kinésithérapie musculo squelettique [23]

La kinésithérapie respiratoire est couplée à des séances de renforcement musculaire et de mobilité articulaire car l'atteinte respiratoire engendre des troubles musculosquelettiques tels qu'une faiblesse musculaire, des déformations articulaires...

La kinésithérapie musculosquelettique a aussi pour objectif de diminuer les douleurs musculaires et articulaires chez ces patients. Cette douleur peut être due à un phénomène répétitif de toux mais elle peut aussi être la conséquence de déformations squelettiques et de modification de la mécanique ventilatoire.

1.3 L'activité physique

1.3.1 Définition

Selon l'**HAS** : " L'activité physique est définie comme tout mouvement corporel produit par les muscles squelettiques qui entraîne une dépense énergétique supérieure à celle du métabolisme de repos. L'activité comprend les activités physiques de la vie quotidienne, les exercices physiques et les activités physiques." ¹

- Quels sont les bienfaits d'une activité physique régulière ? [24] [25]

Une activité physique régulière va permettre diverses améliorations, notamment sur :

- ✓ La **tolérance à l'effort**
- ✓ La fonction pulmonaire
- ✓ La fonction musculaire
- ✓ Le capital osseux
- ✓ Le profil glycémique
- ✓ Le pronostic de survie
- ✓ La qualité de vie
- ✓ Le ralentissement du déclin de la capacité respiratoire

1.3.2 La tolérance à l'effort chez les patients atteints de mucoviscidose

Grâce aux progrès de la science, l'âge médian de survie des patients atteints de mucoviscidose a considérablement augmenté.

Cependant, chez les patients atteints de mucoviscidose, on retrouve une limitation de leur capacité physique et de moins bonnes réponses cardio-respiratoires par rapport à une population saine. Cela est notamment due à l'évolution progressive de la pathologie, en particulier les troubles respiratoires, la carence en nutriments et la diminution de la force musculaire respiratoire. [26]

La tolérance à l'effort est aussi liée à la qualité de vie du patient et à sa survie. [27]

¹ https://www.has-sante.fr/upload/docs/application/pdf/2022-08/guide_connaissance_ap_sedentarite_vf.pdf

L'activité physique a de nombreux résultats positifs chez les patients atteints de FK, comme :

- ✓ Une diminution de la dyspnée,
- ✓ Une amélioration de la clairance mucociliaire,
- ✓ Une augmentation des expectorations par la mobilisation des sécrétions à l'aide de la ventilation,
- ✓ Une amélioration de la fonction cardio-respiratoire
- ✓ Une augmentation de la force des muscles respiratoires
- ✓ Une amélioration de la capacité aérobie
- ✓ Une augmentation de la qualité de vie

Une évaluation complète de la tolérance à l'effort est donc fondamentale dans la prise en charge de ces patients. [26]

Néanmoins, les mesures spirométriques de la fonction pulmonaire ne permettent pas de prédire précisément la tolérance à l'effort du patient. [28]

Etant donnée que la capacité d'exercice est dépendante de l'état de la personne, des tests d'effort sont réalisés afin de fournir des recommandations adaptées et efficaces pour l'activité physique chez ces patients.

Il est recommandé de réaliser un test d'effort une fois par an. [26]

En effet, ce test permet de dégager plusieurs éléments importants, tels que [29] :

- ✓ L'impact de la maladie sur le patient
- ✓ L'identification des limitations fonctionnelles
- ✓ La quantification des effets de la maladie sur les activités quotidiennes et sur la qualité de vie
- ✓ Le pronostic de la maladie
- ✓ Une prescription précise de l'exercice
- ✓ L'évaluation de certains traitements sur la mucoviscidose

Le test d'effort cardio-pulmonaire (CPET) est le gold standard et il évalue la VO₂max du patient. Il s'agit de l'outil le plus précis ayant pour objectif d'évaluer la capacité à l'exercice.

❖ **On peut donc se demander ce que signifie la VO₂ max ?**

Lors d'un exercice progressif, la consommation en oxygène s'accroît de manière linéaire jusqu'à atteindre un pic d'oxygène. Dans certains cas, on obtient un plateau, c'est-à-dire que la quantité d'oxygène n'augmente plus même si la charge de travail s'intensifie. Ce plateau est la VO₂max. [30]

Ainsi, la consommation maximale d'oxygène, aussi appelée la VO₂max, correspond à la quantité maximale d'oxygène utilisée par le corps lors d'un effort physique, intense et soutenu. [27]

C'est un indicateur de la capacité aérobie de la personne, soit sa capacité à utiliser l'oxygène pendant l'exercice pour produire de l'énergie.

Sa mesure permet donc d'évaluer la forme cardio-respiratoire de l'individu, sa tolérance à l'effort physique.

Au plus la VO₂max est élevée, au plus la personne a une bonne endurance.

La VO₂ max s'exprime en mL/min/kg.

Chez la femme non malade, elle varie généralement entre 25 et 70 mL/min/kg.
Chez l'homme non malade, elle se trouve entre 30 et 90 mL/min/kg.

Toutefois, la valeur dépend du niveau de sédentarité de la personne.

Avec la valeur obtenue, l'objectif serait de suivre l'évolution des patients atteints de FK et de mettre en place des programmes d'activités physiques adaptés à leur tolérance à l'effort afin d'offrir des bénéfices thérapeutiques tout en étant sécuritaires.

Avant de mettre en place ces programmes, il est indispensable de réaliser un bilan complet en kinésithérapie comprenant un test d'effort.

1.3.3 Les différents outils d'évaluation de la tolérance à l'activité physique dans la mucoviscidose

Plusieurs outils permettent d'évaluer la tolérance à l'effort. On retrouve notamment :

→ L'épreuve d'effort maximale cardio-respiratoire (CPET) [31]

L'épreuve d'effort maximale cardio-respiratoire correspond à une évaluation du fonctionnement des systèmes respiratoire et cardio-vasculaire d'un individu pendant l'exercice physique. Comme dit précédemment, il s'agit du gold standard de l'évaluation de la tolérance à l'effort.

Le test est réalisé soit sur un tapis roulant soit sur un cycloergomètre.

Différentes données sont enregistrées lors du test, telles que : la fréquence cardiaque, la fréquence respiratoire, la quantité d'oxygène et de dioxyde de carbone expirée, ainsi que la performance physique de la personne.

En augmentant progressivement l'intensité de l'exercice au cours de l'épreuve, on observe une interaction entre le cœur, les poumons et les muscles.

On aura donc une idée précise de la capacité aérobie de la personne.

Cependant, ce test présente beaucoup **d'inconvénients** comme :

- Une complexité de réalisation : l'évaluation demande un équipement spécialisé et des compétences techniques.
- Un inconfort car nous sommes sur une activité physique intense. En effet, elle peut être difficilement supportable chez des personnes présentant des pathologies sous-jacentes ou celles qui ne sont pas habituées à un tel effort.
- Une surveillance accrue de l'individu notamment les personnes avec des problèmes cardiaques ou pulmonaires.
- Le coût : les équipements utilisés sont coûteux, rendant le test indisponible dans plusieurs installations médicales.
- Le test se déroule selon plusieurs phases.
- Il est chronophage et stressant.

Ainsi, étant donné le manque de temps, de personnel, de financement et d'équipement sophistiqué, les tests d'exercices simples sur terrain sont plus souvent utilisés. [27]

→ Le test de marche de six minutes (TM6) [32] (Annexe 4)

Le test de marche de six minutes est fréquemment utilisé afin d'évaluer objectivement la capacité fonctionnelle à l'exercice chez les patients présentant des pathologies pulmonaires modérées à graves. Il ne nécessite pas d'équipements complexes ou la présence d'experts.

Pour ce qui est du déroulement du test, le patient doit faire des allers-retours le long d'un couloir de 30 mètres pendant 6 minutes. La distance totale parcourue, mesurée en mètre, est enregistrée à la fin de ce test.

La saturation en oxygène (SpO₂) est mesurée avant, pendant et après l'évaluation, et la tension est prise au début et à la fin du test.

Ce test présente plusieurs **inconvénients** :

- Une évaluation sous-maximale.
- Le test est à charge constante et ne reflète donc pas la capacité maximale d'exercice.
- Il est sensible aux variations individuelles et à la motivation du patient.
- La distance totale parcourue peut être modifiée par des facteurs externes.
- Il peut ne pas être adapté aux individus présentant une atteinte pulmonaire légère.

→ Incremental Shuttle Walk Test (ISWT) :

Il s'agit d'un test de marche standardisé et rythmé avec une structure progressive.

Lors du déroulement de ce test, le patient doit marcher (test de 10 mètres) ou courir (test de 20 mètres) entre deux repères (aller-retour : navette) dictés par le rythme d'un signal audio.

En effet, toutes les minutes, la vitesse de marche doit être augmentée de 0.17 m/s.

Aucun équipement coûteux est nécessaire et ils peuvent administrer facilement dans un couloir. [33]

Celui de 10 mètres a été développé et validé par Singh et al [34] et celui de 20 mètres, aussi connu sous le nom de test de Luc Léger, par Leger et al. [35]

Ils sont non contraignants et le test se termine lorsque le patient [36] :

- Est incapable de suivre la vitesse requise,
- Echoue à terminer une navette dans le temps imparti,
- Atteint sa fréquence cardiaque maximale.

Le signal audio permet d'augmenter la motivation du patient et ainsi de reproduire une meilleure représentation des schémas de l'activité quotidienne.

Cependant, à l'heure actuelle, une augmentation des niveaux d'activité physique chez les patients atteints de mucoviscidose a été observée.

Ainsi, ce test a un effet plafond.

→ **Le Modified Shuttle Walk Test** : ce dernier est la partie intégrante de notre sujet. Il est détaillé ci-dessous.

1.3.4 Modified shuttle walk test (MSWT) [31]

Il s'agit du ISWT avec des niveaux supplémentaires afin de l'adapter à l'évolution des patients. Selon le nombre de niveaux ajoutés, il prend le nom de MST-15 ou MST-25.

Le Modified Shuttle Walk test est une épreuve d'endurance cardio-respiratoire utilisée pour évaluer la capacité d'exercice et la tolérance à l'effort chez les individus. **(Annexe 5)**

Il est notamment mis en œuvre pour les patients souffrant de pathologies respiratoires telles que l'asthme, la mucoviscidose et d'autres maladies pulmonaires.

La procédure du test est décrite au patient et, éventuellement, l'opérateur lui explique la façon dont sa fréquence cardiaque et sa saturation en oxygène sont mesurées.

Une zone est délimitée par des repères placés à des intervalles spécifiques. Le participant doit marcher de manière continue entre ces marqueurs.

Le test est structuré en différentes phases appelées "navettes" (allers-retours).

Le participant commence à marcher à un certain rythme. Cette vitesse augmente progressivement en suivant un signal sonore. A chaque son émis, le participant doit atteindre le repère suivant avant que le prochain signal ne retentisse.

Les signaux deviennent de plus en plus rapprochés, ce qui rend le rythme de marche plus rapide au fur et à mesure que la durée du test augmente.

Cette évaluation demande une adaptation et une intensification de l'effort du patient pour demeurer en phase avec les intervalles de plus en plus courts.

Le test peut se finir de plusieurs façons :

- Le participant n'arrive plus à suivre le rythme des signaux sonores pendant deux intervalles consécutifs.
- Le participant demande d'arrêter le test à cause d'une importante fatigue.
- Le participant a atteint la distance maximale (1 500 mètres).

A la fin du MSWT, la distance totale parcourue, la fréquence cardiaque, la saturation en oxygène (SpO2) sont enregistrées. D'autres paramètres peuvent être pris en compte pour obtenir une évaluation plus précise de la tolérance à l'effort.

1.4 Propriétés métrologiques [37][38]

1.4.1 La fiabilité

La fiabilité d'une mesure ou d'un outil de mesure est sa capacité à être stable entre les différentes mesures tant que ce que l'on cherche à évaluer n'a pas évolué dans le temps.

Il faut savoir qu'un outil de mesure ne sera jamais parfaitement fiable parce qu'à chaque évaluation, des sources d'erreurs aléatoires peuvent être présentes.

Diverses formes sont retrouvées, telles que la fiabilité test-retest qui quantifie la stabilité temporelle d'une mesure. Elle implique de mesurer la même chose sur un même groupe à deux moments différents, avec un laps de temps entre les deux mesures.

Pour l'évaluation de la fiabilité test-retest, le coefficient alpha de Cronbach, le coefficient de kappa et le coefficient de corrélation intra classe (ICC) sont utilisés.

Le coefficient de kappa concerne les variables binaires ou ordinales tandis que le coefficient de corrélation intra classe s'intéresse aux variables continues.

Il est à noter qu'au plus la valeur du coefficient se rapproche de 1, au plus la fiabilité sera bonne.

On peut aussi évoquer la méthode graphique de Bland-Altman.

C'est un outil visuel permettant d'évaluer la concordance entre deux méthodes de mesures en analysant les différences de moyennes ainsi que les écarts types.

Pour évaluer le risque de biais de nos études par rapport à la fiabilité, l'échelle **QAREL** (Quality Assessment of Reliability) (**Annexe 6**) sera utilisée. Dans cette liste, le nombre de réponses positives permettra de définir le risque de biais de l'étude évaluée.

1.4.2 La validité

Elle est définie par la capacité d'une mesure ou d'un instrument de mesure à **représenter avec précision ce qu'il est censé évaluer**.

La fiabilité est un **prérequis** à la validité : pour qu'une mesure soit considérée comme fiable et valide, il faut que ce soit une mesure capable d'agréger des **résultats stables reflétant le concept étudié**.

On peut voir deux grandes approches afin d'évaluer et de mesurer la validité d'un outil :

- Soit la **validité par critère** s'il existe un **gold standard**, c'est-à-dire un test de référence, en rapport avec ce que j'évalue.
- Soit la **validité par construit** qui est utilisée en cas d'**absence de gold standard**.

Cette validité est vérifiée avec l'échelle **QUADAS 2** (Quality Assessment of Diagnostic Accuracy Studies) (**Annexe 7**) où les réponses positives permettent de diminuer le risque de biais présent au sein de l'étude.

1.5 Intérêt de la revue de littérature

Même si l'espérance de vie des patients atteints de mucoviscidose s'est considérablement améliorée, leur qualité de vie et leur état de santé restent fortement diminués. [25]

L'exercice physique est devenu un traitement à part entière de leur prise en charge en kinésithérapie.

Cependant, ces patients, à cause de leur état de santé, ne peuvent pas pratiquer n'importe quelle activité à n'importe quelle intensité.

De plus, la mucoviscidose étant une pathologie chronique, il est indispensable d'évaluer l'évolution de la tolérance à l'effort tout au long de la vie des patients.

C'est pour cela qu'il est important d'utiliser un outil de mesure fiable, valide et adapté au patient afin de lui créer un programme d'entraînement sécuritaire et nécessaire à ses besoins, ainsi que pour suivre son évolution.

Un grand nombre d'études ont été retrouvées sur ces différents outils, mais la plupart avait des limitations comme le coût, le temps, la présence d'experts. [31] [32]

Une revue de littérature a été réalisée en 2018 sur le test de marche de six minutes. [39]

Cependant, avec nos recherches, nous n'avons trouvé aucune revue de littérature concentrée uniquement sur le MSWT.

Cet outil d'évaluation semble être une bonne alternative dans l'évaluation de la tolérance à l'effort par rapport aux autres épreuves. En effet, ce dernier est moins coûteux, favorise un environnement moins stressant pour les patients et se réalise en dehors des laboratoires d'analyses. [28] [40]

Nous pouvons donc nous demander :

« Le Modified Shuttle Walk Test est-il un outil de mesure fiable et valide dans l'évaluation de la tolérance à l'effort chez les patients atteints de mucoviscidose ? »

1.6 Objectifs de cette revue de littérature

Dans cette revue de littérature, nous sommes dans le cadre d'une question diagnostique car nous cherchons à évaluer les propriétés métrologiques du MSWT.

Notre question clinique a été construite à l'aide de l'acronyme PICO :

| | |
|---------------------------------------|------------------------------------|
| Population | Patients atteints de mucoviscidose |
| Intervention | MSWT |
| Compareur | CPET |
| Outcome (critères de jugement) | Fiabilité et validité |

Tableau II : Question de recherche à l'aide du modèle du modèle PICO

2. METHODE

2.1. Critères d'éligibilité des études pour cette revue

Ce mémoire est une **revue de littérature** regroupant les résultats de plusieurs études scientifiques.

2.1.1 Schéma d'étude

Notre problématique étant d'évaluer les propriétés métrologiques du Modified Shuttle Walk Test, nous sommes donc sur une question de type clinimétrique.

Dans ce type de question, les études les plus intéressantes sont :

- ✓ Les études transversales avec répétition de mesure pour la fiabilité et la reproductibilité du test,
- ✓ Les études transversales ou longitudinales pour la validité de l'outil de mesure,
- ✓ Les essais cliniques randomisés pour l'efficacité et l'utilité du test.

Dans notre mémoire, les études transversales avec répétitions de mesure et les études transversales ou longitudinales sont celles recherchées pour répondre à nos critères de jugement (validité et fiabilité).

Cependant, si on obtient peu de résultats, on pourra inclure des essais cliniques randomisés pour démontrer l'efficacité du MSWT.

2.1.2 Population

Notre revue de littérature s'intéresse aux personnes atteintes de mucoviscidose dans un état cliniquement stable.

Nous n'avons pas mis de restrictions au niveau du sexe et sur le degré d'atteinte de la maladie afin d'avoir la population la plus large possible.

Les critères d'exclusion pris en compte sont :

- La présence de comorbidités pulmonaires,
- L'incapacité à réaliser le test en raison de limitations physiques ou cognitives,
- Les récentes interventions chirurgicales limitant la tolérance à l'effort du patient,
- Une hospitalisation récente,
- L'absence de consentement éclairé.

2.1.3 Intervention

Notre revue de littérature est portée sur le **Modified Shuttle Walk Test** qui est utilisée pour évaluer la capacité d'un individu à tolérer l'effort physique.

2.1.4 Comparateur

Le comparateur est le gold standard de l'évolution de la tolérance à l'effort, le test d'effort cardio-pulmonaire (CPET).

2.1.5 Critères de jugement

Les critères de jugement pris en compte dans cette étude sont la fiabilité et la validité.

Au niveau de la fiabilité, nous nous concentrerons sur la fiabilité test-retest.

Afin d'évaluer le risque de biais au niveau de la fiabilité, nous utiliserons l'échelle **QAREL**.

Au niveau de la validité, dans l'évaluation de la capacité physique, il existe un gold standard.

Or, dans cette revue de littérature, la distance parcourue lors du MSWT va être analysée.

Il serait donc judicieux d'évaluer la sensibilité et la spécificité de ce test.

Cependant, la distance parcourue étant une variable continue, il est difficile de définir un seuil affirmant si le test est positif ou négatif.

La distance parcourue lors du MSWT va permettre d'évaluer l'évolution de la tolérance à l'effort du patient et d'établir des niveaux d'intensité d'exercices adaptés lors de son activité physique.

Notre objectif n'est donc pas de classer les résultats comme positifs ou négatifs.

Ainsi, les coefficients de corrélation de Spearman et Pearson vont être employés.

Il s'agit de coefficient qui définissent la force du lien entre deux variables quantitatives, dans notre cas, la corrélation entre la distance parcourue au MSWT et la VO2 max enregistrée lors du gold standard.

Il est à noter que les coefficients de corrélation, désignés par « r », doivent être compris entre -1 et 1 :

- Si le r est égal à 0, cela signifie qu'il n'y a aucune corrélation entre les deux mesures analysées.
- Si le r est strictement supérieur à 0, on peut en conclure que la distance parcourue augmente avec la VO2max.
- Si le r est strictement inférieur à 0, on peut en déduire que la VO2max diminue lorsque la distance parcourue augmente.

Le risque de biais de la validité sera évalué avec l'échelle **QUADAS-2**.

2.1.6 Langues et dates

Les articles choisis sont rédigés en **français** ou en **anglais**.

Nous avons restreint le choix des articles à partir de **l'année 2000** afin de ne pas inclure des articles trop anciens qui pourraient être obsolètes avec l'avancée de la science.

2.2 Méthodologie de recherche des études

2.2.1 Sources d'information

Les recherches ont eu lieu sur plusieurs bases de données : **PubMed** (principale ressource pour la recherche médicale et la science de la vie), **Cochrane** (production de revues systématiques et d'évaluations basées sur des preuves) et **DiTA** (base de données sur la précision des tests diagnostiques).

Nous avons examiné la **littérature grise**, comprenant des mémoires et des thèses, afin d'identifier des références d'articles et d'éviter la redondance de sujets déjà traités.

2.2.2 Equation de recherche

Nous nous sommes aidés du modèle PICO défini dans l'introduction afin de peaufiner notre équation de recherche.

Des synonymes ont été utilisés pour ne pas obtenir trop de silences.

| | |
|-----------------------------|---|
| Population | cystic fibrosis, mucoviscidosis |
| Intervention | modified shuttle walk test, modified shuttle test, modified shuttle |
| Comparateur | cardiopulmonary exercise test, CPET |
| Critères de jugement | validity, reliability, metrological properties |

Tableau III : Exemples de termes utilisés pour les recherches préliminaires

Plusieurs **équations de recherche** ont été réalisées afin de correspondre à chacune des bases de données :

| Base de données | Equations de recherche | Nombre de résultats obtenues |
|-----------------|--|------------------------------|
| PubMed | ((cystic fibrosis) OR (mucoviscidosis)) AND (modified shuttle walk test) OR (modified shuttle test) | 341 résultats |
| DiTA | Subdiscipline : "paediatrics" Body part : "chest" Pathology : "respiratory" Type of index test : "physical examination" Method : "primary study" | 12 résultats |
| Cochrane | "Cystic fibrosis" AND "Modified shuttle walk test" OR "Modified shuttle test" | 152 résultats |

Tableau IV : Équations de recherche utilisées dans les différentes bases de données

De plus, la période entre 2000 et 2023 a été sélectionnée.

Au total, grâce à ces équations de recherche, **505 articles** ont été obtenus à travers les diverses bases de données utilisées.

2.3 Méthode d'extraction et d'analyse des données

2.3.1 Méthode de sélection des études

La procédure de sélection des études se déroule en plusieurs étapes :

- 1^{ère} étape : Exclusion par le titre

Cette première phase consiste à lire les titres de chaque article afin d'éliminer ceux qui ne sont pas directement liés à la problématique.

Le titre de l'article doit comporter au moins un élément correspondant à notre problématique initiale pour être pris en considération.

Seuls les articles dont le titre semble pertinent pour notre recherche sont inclus.

- 2^{ème} étape : Exclusion des doublons

Puis, les doublons présents dans les différentes bases de données sont supprimés.

- 3^{ème} étape : Exclusion par la lecture des résumés

La lecture des résumés des articles restants permet de déterminer s'ils sont en lien avec notre modèle PICO. Si un des critères d'exclusion mentionnés précédemment est cité dans l'abstract, l'article est écarté de la sélection.

- 4^{ème} étape : Exclusion par lecture intégrale de l'article

Enfin, une lecture complète de l'article est entreprise afin de vérifier la présence de nos critères d'inclusion et d'exclusion. L'article doit aussi évoquer la fiabilité ou la validité du Modified Shuttle Walk Test pour être considéré.

2.3.2 Extraction des données

Lors de la lecture des articles, les données les plus pertinentes pour répondre à notre problématique sont extraites. Elles concernent :

- Le **type d'étude** : études longitudinales ou transversales, essais cliniques randomisés.
- Le **nom de l'auteur ou des auteurs et la date de l'article (à partir de 2000)**
- Les **spécificités individuelles des participants** à l'étude :

Il est important de noter si les patients ont eu un diagnostic confirmé de mucoviscidose.

Les critères d'inclusion et d'exclusion sont à préciser.

Il faut aussi donner la taille de l'échantillon et la moyenne d'âge des participants compris dans l'étude.

- **Le déroulement de l'étude** :
 - La procédure de réalisation du Modified Shuttle Walk test
 - Les coefficients utilisés afin d'évaluer la validité et la fiabilité
- Les **résultats de l'étude**

2.4 Evaluation de la qualité méthodologique des études sélectionnées

Le biais représente la tendance d'un auteur à introduire de manière presque systématique des erreurs dans ses recherches, ce qui diminue la validité des résultats.

On peut retrouver ces biais au niveau du protocole de recherche, de la réalisation du protocole, de la collecte et de l'interprétation des données ainsi que sur la publication des résultats.

Pour éviter d'inclure des risques de biais trop importants dans notre revue de littérature, il est nécessaire de les **évaluer** à l'aide **d'échelles**.

Etant donné que nos critères de jugement concernent la fiabilité et la validité, les risques de biais de nos études en fonction de ces deux critères sont évalués.

- **L'évaluation de la fiabilité à l'aide de l'échelle QAREL [41] :**

L'échelle QAREL est une échelle de **11 critères (Annexe 6)** et nous pouvons cocher qu'une seule réponse : soit oui, soit non, soit incertaine (INC).

Elle prend en compte :

- ✓ La représentativité des participants,
- ✓ La représentativité des examinateurs,
- ✓ La mise en aveugle : inter-examineur, intra-examineur, du gold standard, du dossier du patient et des indices cliniques,
- ✓ La randomisation de l'ordre d'évaluation,
- ✓ La stabilité temporelle,
- ✓ La standardisation de la procédure,
- ✓ L'analyse et l'interprétation.

Si le score obtenu à cette échelle est faible, le risque de biais de l'étude est important.

- **L'évaluation de la validité à l'aide de l'échelle QUADAS-2 [42]**

L'échelle de QUADAS-2 est présentée en trois phases (**Annexe 7**).

La première phase consiste à poser la question clinique sur les données du patient, sur le test évalué, sur le test de référence et sur l'objectif recherché.

La seconde phase correspond à dessiner le diagramme de flux si celui-ci est présent dans l'étude en question.

Enfin, la dernière étape est divisée en quatre domaines évalués en termes de risques de biais et d'applicabilités cliniques de la question de recherche. Chaque domaine comporte une série de questions.

- ✓ Le domaine 1 s'intéresse à la sélection des patients,
- ✓ Le domaine 2 à l'évaluation du test,
- ✓ Le domaine 3 au test de référence,
- ✓ Le domaine 4 au suivi et à la temporisation du test.

Tout comme l'échelle QAREL pour la fiabilité, un score faible à l'échelle QUADAS-2 se traduit par un risque de biais de l'étude élevé.

2.5 Méthode de synthèse des résultats

Tout d'abord, la sélection des articles pour cette revue sera présentée sous forme de diagramme de flux. L'exclusion des articles sera expliquée au-dessous de ce diagramme.

Ensuite, les articles inclus seront cités et un résumé de chacun de ces articles avec les informations importantes sera noté.

Un tableau récapitulatif des données utiles des différentes études sélectionnées permettra d'avoir une forme plus générale de chaque article.

Les valeurs utilisées pour la fiabilité seront le coefficient de corrélation intra classe ainsi que la méthode de Bland-Altman.

Celles utilisées pour la validité seront les coefficients de corrélation de Pearson et Spearman.

Les risques de biais des articles seront évalués à l'aide des grilles QAREL et QADAS-2.

Pour la fiabilité test-retest, les coefficients de corrélation intra classe ainsi que leurs intervalles de confiance seront synthétisés dans un tableau.

Pour la validité, les valeurs de coefficients de corrélation Spearman et Pearson seront résumées dans un tableau.

Dès que cela est possible, les résultats des différentes études seront comparés entre eux.

3. RESULTATS

3.1 Diagramme de flux

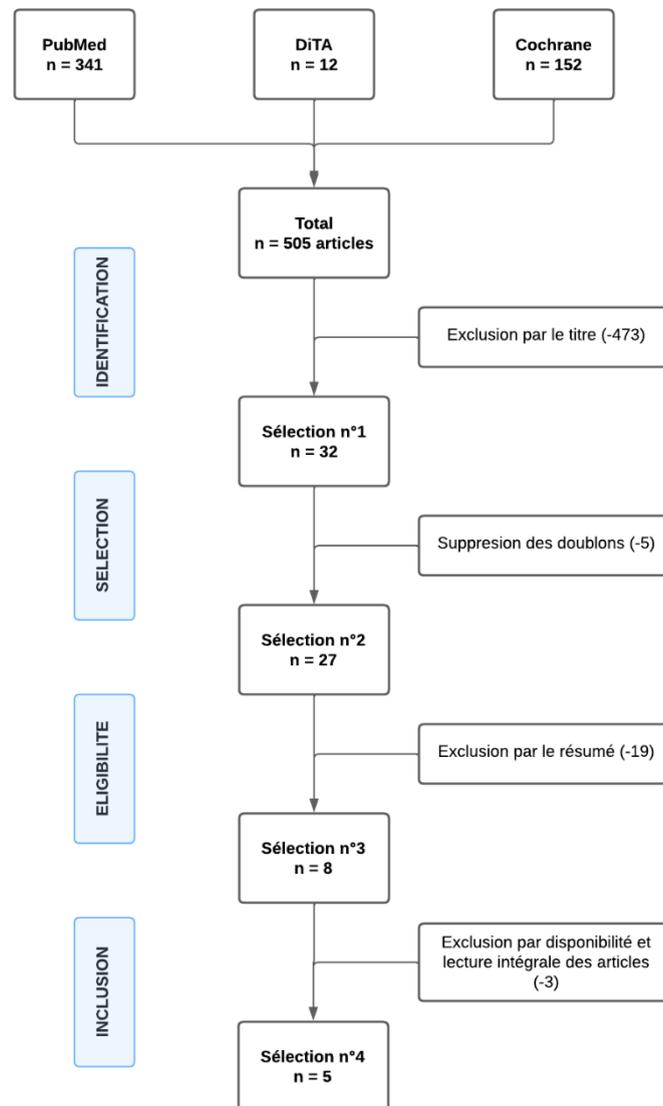


Figure 4 : Diagramme de flux

3.2 Articles exclus

➤ Motifs d'exclusion lors de la première sélection :

- 25 articles ont été exclus car ils ne faisaient pas référence au MSWT.
- 37 articles ont été exclus car ils ne faisaient pas référence à une population atteinte de mucoviscidose mais à une population saine ou encore à des patients atteints d'obésité, de bronchopneumopathie chronique obstructive (BPCO) ou d'asthme.
- 411 articles ont été exclus car ils ne faisaient référence ni au MSWT ni à la mucoviscidose.

Au total, 473 articles ont été exclus lors de la première sélection.

➤ Motifs d'exclusion lors de la seconde sélection :

Cinq articles ont été exclus car ils étaient présents à la fois sur PubMed et sur la base de données Cochrane et certains existaient en double sur Cochrane.

➤ Motifs d'exclusion lors de la troisième sélection :

Dix-neuf articles ont été exclus à la lecture du résumé.

Les principales raisons étaient que les patients n'étaient pas stables cliniquement et que le schéma d'études n'était pas le bon.

➤ Motifs d'exclusion lors de la quatrième sélection :

Sur les sept articles restants, trois ont été exclus car l'intégralité d'un des articles n'était pas disponible et les deux autres ne se préoccupaient pas de la fiabilité et de la validité du MSWT.

Les motifs d'exclusion sont résumés dans un tableau en annexe (**Annexe 8**).

3.3 Articles inclus

3.3.1 Premier article sélectionné

**« Test-retest reliability, minimal detectable change and minimal clinically important differences in modified shuttle walk test in children and adolescents with cystic fibrosis »
(Del Corral et al., 2019) [27]**

Le but de cette étude était d'évaluer la fiabilité test-retest, le changement minimal détectable ainsi que les différences minimales cliniquement importantes (MCID) lors du MSWT chez les enfants atteints de mucoviscidose.

De plus, les auteurs ont comparé la distance parcourue au MSWT chez les enfants atteints de fibrose kystique et celle parcourue chez les enfants sains. La force des membres inférieurs et supérieurs a aussi été mesurée et comparée entre ces deux populations.

Ainsi, au cours de cette étude, trois évaluations différentes ont été réalisées :

- ✓ Un design de concordance pour la fiabilité test-retest,
- ✓ Une étude quantitative de type quasi-expérimental pour le MCID,
- ✓ Une étude transversale pour les différences de tolérance et de force entre les patients et les témoins sains.

Les patients atteints de mucoviscidose inclus dans cette étude étaient cliniquement stables et familiarisés avec le test.

L'évaluation qui nous intéresse dans cette étude est celle de la fiabilité test-retest.

La population de cet article a été recrutée à l'aide de courrier électronique et par la distribution de dépliants.

Pour l'évaluation de la fiabilité, 35 patients atteints de fibrose kystique ont réalisé deux MSWT séparés de 2 à 4 jours.

La population était âgée de 7 à 17 ans, avec une moyenne d'âge de 11.54 ans chez les patients, et une moyenne de 12.48 ans chez les sujets sains.

➤ Critères d'exclusion :

- Comorbidités pulmonaires,
- Comorbidités cardio-vasculaires,
- Comorbidités neuro-musculaires,
- Comorbidités ostéo-articulaires.

La spirométrie a été évaluée avec un spiromètre portable.

L'essoufflement perçu et la fatigue subjective des jambes par l'échelle de Borg modifiée lors de la réalisation du MSWT ont été mesurés.

La distance parcourue, la saturation en oxygène et la fréquence cardiaque ont été relevées à la fin du test.

➤ Evaluation de la fiabilité :

Le coefficient de corrélation intra classe ainsi que la méthode de Bland-Altman ont été utilisés pour la fiabilité test-retest.

Le critère de jugement principal était la distance parcourue lors du MSWT mesurée en mètre.

3.3.2 Deuxième article sélectionné

« Validation of the 25 level modified shuttle test in children with cystic fibrosis » (Corda et al., 2023) [33]

L'objectif de cette étude était d'évaluer la validité ainsi que la fiabilité du test de navette modifié à 25 niveaux chez les enfants atteints de mucoviscidose.

Les participants étaient 20 enfants atteints de mucoviscidose et cliniquement stables. Ils étaient âgés de 8 à 19 ans avec une moyenne d'âge de 13.8 (+/- 2.1) ans et un VEMS moyen de 87 (+/- 14.5) %.

Ils ont effectué deux conditions de tests, chacune sur des jours distincts sur une période d'un mois :

- Une visite consistait à deux tests de navette modifié à 25 niveaux (MST-25)
- Une visite pour la réalisation du test d'exercice cardio-pulmonaire (le test de référence)

L'ordre des tests était randomisé et caché dans des enveloppes opaques.

➤ Critères d'exclusion :

- Une taille inférieure à 135 cm de hauteur (par rapport au pédalage sur ergocycle),
- Les enfants ayant eu une transplantation,
- Un VEMS inférieur à 30%,
- Les enfants colonisés par des mycobactéries,
- Ceux avec une comorbidité limitant leur capacité à réaliser des tests d'effort.

Le MST-25 a été réalisé par un kinésithérapeute pédiatrique expérimenté et le test d'exercice cardio-pulmonaire (CPET) par deux experts.

Les deux MST-25 ont été réalisés le même jour avec une pause de 30 minutes entre les deux.

➤ Critères de jugement

Le critère principal du MST-25 était la distance parcourue mesurée en mètre.

La saturation en oxygène et la fréquence cardiaque étaient surveillées en continu.

La perception subjective de l'essoufflement a été évaluée à l'aide de l'échelle de Borg modifiée.

Le taux d'effort perçu a été enregistré au repos, à la fin du test et 5 minutes après la fin.

Pour le CPET, la saturation en oxygène et la fréquence cardiaque ont aussi été contrôlées en continu.

La VO₂max a été calculée selon des méthodes standardisées avec les mesures des 30 dernières secondes du test.

➤ Evaluation de la validité du MST-25

- Comparaison de la plus grande distance parcourue lors des MST-25 avec la capacité d'exercice maximale du CPET en utilisant le coefficient de corrélation de Pearson ou le coefficient de Spearman.

Les mesures de la saturation en oxygène, de la fréquence cardiaque maximale, de la dyspnée ainsi que de l'effort perçu ont été comparées entre les MST-25 et le CPET en utilisant le test t de Student.

Quinze enfants ont été inclus pour l'évaluation de la validité car les cinq autres n'ont pas pu réaliser le CEPT en raison des restrictions liées au COVID-19.

➤ Evaluation de la fiabilité

La fiabilité des deux MST-25 a été évaluée avec la méthode de Bland-Altman.

Pour la reproductibilité, un coefficient de corrélation intra classe à deux facteurs a été utilisé pour ce qui est de la distance, de la fréquence cardiaque, de la saturation, de la dyspnée ainsi que de l'effort perçu obtenus aux deux tests.

Dix-neuf patients ont été inclus pour l'évaluation de la fiabilité étant donné que l'un des participants a refusé de réaliser une deuxième fois le MST-25.

3.3.3 Troisième article sélectionné

**« Clinical use of the modified shuttle test in children with cystic fibrosis: Is one test sufficient ? »
(Leite et al., 2021) [43]**

Le but de cette étude était d'évaluer la reproductibilité du test de navette modifié chez les enfants atteints de mucoviscidose.

Le second objectif consistait à déterminer s'il était nécessaire de réaliser le test plus d'une fois afin d'évaluer la capacité d'exercice chez ces enfants.

Cet article est une étude longitudinale prospective qui s'est déroulée sur une période de 9 mois. La tranche d'âge de la population se situait entre 6 et 18 ans avec une moyenne d'âge à 10.1 (+/- 2.7) ans.

Quarante-huit enfants cliniquement stables ont été inclus.
Le VEMS moyen était de 73.5 (+/- 21.9) %.

Les données anthropométriques ont été rassemblées et la fonction pulmonaire a été évaluée.

➤ Critères d'exclusion :

- Exacerbation pulmonaire,
- Altérations musculosquelettiques,
- Altérations neurologiques,
- Altérations hématologiques.

Au cours de la période de 9 mois, une évaluation a eu lieu tous les trois mois, soit trois analyses au total :

- *1ère visite* → Deux MST ont été réalisés avec une pause d'au moins 30 minutes entre chaque test. Les deux tests ont été réalisés par le même kinésithérapeute.
- *2ème visite* → 4 participants ont été exclus dus à une exacerbation. Une nouvelle évaluation avec deux MST a eu lieu.
- *3ème visite* → 9 participants ont été exclus en raison d'une exacerbation.

La saturation en oxygène et la fréquence cardiaque étaient continuellement surveillées.

De plus, la fréquence respiratoire, la pression artérielle systolique et diastolique ont été analysées avant et après chaque test de marche.

La perception subjective de l'effort a été mesurée à l'aide de l'échelle de Borg modifiée.

Enfin, la VO₂max a été estimée.

➤ Evaluation de la fiabilité :

La distance parcourue mesurée en mètre était le critère de jugement principal.

Le coefficient de corrélation intra classe et l'analyse de Bland-Altman ont été appliqués.

3.3.4 Quatrième article sélectionné

« Prediction of peak oxygen uptake using the modified shuttle test in children and adolescents with cystic fibrosis » (Vendrusculo et al., 2019) [31]

Il s'agissait d'une étude transversale qui avait pour objectif d'évaluer l'utilisation du MSWT comme prédicteur de la consommation maximale d'oxygène et de comparer le VO₂max et la fréquence cardiaque maximale obtenus au cours du MSWT et du CPET.

La population était constituée d'enfants et adolescents âgés de 6 à 20 ans atteints de fibrose kystique et cliniquement stables.

L'âge moyen des vingt-quatre participants était de 15.7 (+/-4.2) ans et le VEMS moyen de 76.4 (+/-23.8) %.

Un MSWT et un CPET ont été réalisés lors de deux visites consécutives.

Le poids et la taille ont été mesurés.

Les données cliniques et génétiques, le type de mutation, la présence d'insuffisance pancréatique et la colonisation chronique par le *Pseudomonas aeruginosa* de chaque participant ont été collectés.

➤ Critères d'exclusion :

- Anomalies ostéo-articulaires,
- Anomalies musculosquelettiques,
- Incapacité de réaliser au moins l'un des deux tests,
- Exacerbation.

➤ Les variables recueillies lors du CPET :

- La VO₂max,
- La production de CO₂,
- La fréquence respiratoire maximale,
- Le rapport d'échange respiratoire,
- Les équivalents ventilatoires pour la consommation d'oxygène et pour la production de CO₂,
- La fréquence cardiaque maximale

Au cours du CPET et du MSWT, la fréquence cardiaque et la saturation en oxygène ont été surveillées en continu. De plus, elles ont été mesurées avant et après les tests tout comme la pression artérielle et la perception subjective de l'essoufflement (avec l'échelle de Borg modifiée).

A la fin du MSWT, la distance parcourue mesurée en mètre a été enregistrée.

Une spirométrie a été réalisée avec les patients en position orthostatique.

➤ Analyse statistique :

- Les variables continues sont décrites sous forme de moyennes et d'écart-types.
- Pour l'évaluation de la validité, le coefficient de Pearson a été utilisé.

3.3.5 Cinquième article sélectionné

« Validity of a modified shuttle test in adult cystic fibrosis » (Bradley et al., 2000) [44]

Cet article a pour objectif d'évaluer la validité du MSWT en comparant les résultats obtenus lors du MSWT avec la VO₂max mesurée lors d'un test sur tapis roulant.

La population de l'étude était composée de vingt patients atteints de mucoviscidose cliniquement stables.

L'âge moyen des participants était de 25 (+/-7) ans. Ils étaient volontaires pour participer à l'étude et ont été familiarisés avec les deux tests. Les deux tests ont été réalisés lors de deux visites espacées en moyenne de 7 jours et l'ordre des tests a été randomisé.

La saturation en oxygène, la fréquence cardiaque, la dyspnée ainsi que les mesures spirométriques ont été enregistrées.

✓ Mesures enregistrées lors du test sur tapis roulant :

- ✓ La VO₂max,
- ✓ Le VCO₂,
- ✓ La fréquence respiratoire,
- ✓ La fréquence cardiaque,
- ✓ La saturation en oxygène,
- ✓ Le pic de perception de l'essoufflement.

✓ Mesures enregistrées lors du MSWT :

- ✓ La fréquence cardiaque,
- ✓ La saturation en oxygène,
- ✓ La fréquence cardiaque maximale,
- ✓ Le pic de perception de l'essoufflement,
- ✓ La distance parcourue.

La mesure de la validité du MSWT a été réalisée à l'aide d'un coefficient de corrélation "r". De plus, on retrouve une figure représentant la régression linéaire dans la relation entre la distance obtenue lors du MSWT et la VO₂max mesurée lors du test du tapis roulant.

| Articles et auteurs | Année | Pays | Population | Moyenne d'âge | Taille de l'échantillon | Sexe | Consentement éclairé |
|---|-------|-----------|--|------------------------------------|-------------------------|---|--|
| « Test-retest reliability, minimal detectable change and minimal clinically important differences in modified shuttle walk test in children and adolescents with cystic fibrosis » Del Corral et al. | 2019 | Espagne | Patients atteints de mucoviscidose cliniquement stables | 11.54 ans chez les enfants malades | 35 patients | 15 filles et 20 garçons | Oui (enfants et parents/tuteurs légaux) |
| « Validation of the 25 level modified shuttle test in children with cystic fibrosis » Corda et al. | 2023 | Australie | Patients atteints de mucoviscidose cliniquement stables âgés de 8 à 19 ans | 13.8 (+/- 2.1) ans | 20 participants | 9 garçons (45%) 11 filles (55%) | Oui (parents/tuteurs légaux) |
| « Clinical use of the modified shuttle test in children with cystic fibrosis: Is one test sufficient? » Leite et al. | 2021 | Brésil | Patients atteints de mucoviscidose cliniquement stables âgés de 6 à 18 ans | 10.1 (+/- 2.7) ans | 48 participants | 29 garçons (60.4%) 19 filles (39.6%) | Oui (parents/tuteurs légaux) |
| « Prediction of peak oxygen uptake using the modified shuttle test in children and adolescents with cystic fibrosis » Vendrusculo et al. | 2019 | Brésil | Patients atteints de mucoviscidose âgés de 6 à 20 ans | 15.7 (+/- 4.2) ans | 24 participants | 18 garçons (75%) | Oui (tuteurs légaux + patients majeurs + enfants et adolescents) |
| « Validity of a modified shuttle test in adult cystic fibrosis » Bradley et al. | 2000 | Irlande | Patients atteints de mucoviscidose cliniquement stables | 25 (+/-7) ans | 20 participants | 14 garçons 6 filles | Oui |

Tableau V : Récapitulatif des articles inclus dans la revue

| Articles | Critères d'exclusion | Fiabilité | Validité |
|---------------------------|--|---|---|
| Del Corral et al. | Antécédents de comorbidités pulmonaires, neuro-musculaires ou ostéo-articulaires | Coefficient de corrélation intra classe (ICC) Méthode de Bland-Altman | Non évaluée |
| Corda et al. | Une taille inférieure à 135 cm Transplantation antérieure VEMS < 30% Colonisation par des mycobactéries Comorbidités limitant les capacités à l'effort | 19 enfants inclus Méthode de Bland-Altman Coefficient de corrélation intra classe | 15 enfants inclus Coefficient de corrélation de Pearson Coefficient de Spearman |
| Leite et al. | Exacerbation pulmonaire Altérations musculosquelettiques, neurologiques, hématologiques | Coefficient de corrélation intra classe Analyse de Bland-Altman | Non évaluée |
| Vendrusculo et al. | Anomalies ostéo-articulaires Anomalies musculosquelettiques Incapacité à réaliser les tests Exacerbation | Non évalué | Coefficient de Pearson |
| Bradley et al. | Exacerbation Non familiarisé avec les tests | Non évalué | Coefficient de Pearson |

Tableau VI : Critères d'exclusion, fiabilité et validité des études sélectionnées

3.4 Synthèse des biais des études incluses

3.4.1 Echelle QAREL

Comme vu précédemment, l'évaluation du risque de biais de la fiabilité se fait à l'aide de l'échelle QAREL.

Lorsque la réponse n'était pas clairement définie dans l'article, celle-ci était interprétée comme incertaine (INC). Il faut savoir qu'une réponse par « non » ou « incertaine » rapportait zéro point.

Les résultats obtenus sont présentés dans le tableau ci-dessous :

| Auteurs | Année | Question n°1 | Question n°2 | Question n°3 | Question n°4 | Question n°5 | Question n°6 | Question n°7 | Question n°8 | Question n°9 | Question n°10 | Question n°11 | TOTAL |
|-------------------|-------|--------------|--------------|--------------|--------------|--------------|--------------|--------------|--------------|--------------|---------------|---------------|-------|
| Del Corral et al. | 2019 | OUI | OUI | INC | INC | NA | NON | NON | INC | OUI | OUI | OUI | 5/10 |
| Corda et al. | 2023 | OUI | OUI | OUI | NON | NON | NON | NON | OUI | NON | OUI | OUI | 6/11 |
| Leite et al. | 2021 | OUI | OUI | INC | NON | NA | NON | NON | NON | NON | OUI | OUI | 4/10 |

INC = Incertaine NA = Non applicable

Tableau VII : Risque de biais au niveau de la fiabilité (QAREL)

On peut retrouver le détail des échelles QAREL de chaque article inclus faisant référence à la fiabilité dans **(Annexe 9)**.

Un pourcentage de ce que représente chaque item a été représenté ci-après :

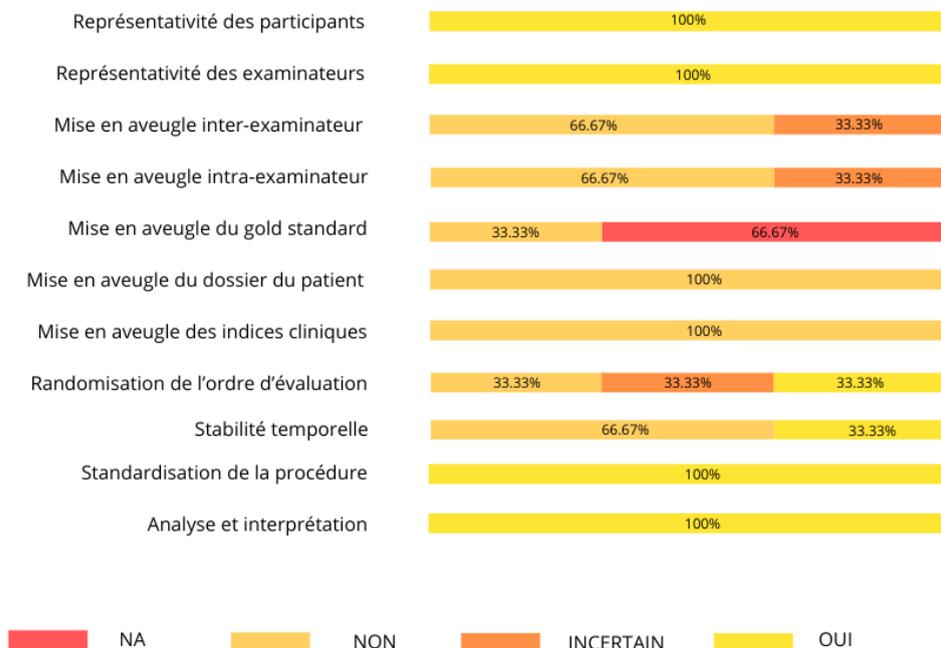


Figure 5 : Pourcentage de l'échelle QAREL

Comme trois articles évaluent la fiabilité, les pourcentages de 33.33% et de 66.67% sont approximatifs.

On peut voir que le risque de biais est le plus élevé au niveau de la mise en aveugle du dossier du patient ainsi que sur les indices cliniques dans chacun des articles inclus.

Ces biais seront détaillés dans la partie discussion de cette revue de littérature.

3.4.2 Echelle QUADAS-2

Trois des articles inclus dans l'étude font référence à la validité du Modified Shuttle Walk Test.

Comme pour la fiabilité, le risque incertain a été défini quand la réponse n'était pas clairement citée dans l'article.

Aussi, le risque élevé et le risque incertain rapportaient tous les deux zéro point.

Les résultats obtenus sont présentés sous forme de tableau :

| Auteurs | RISQUE DE BIAIS | | | | PRÉOCCUPATIONS SUR L'APPLICABILITÉ | | | SCORE |
|--------------------|--|---|--|--|--|--|---|-------|
| | Sélection des patients | Test évalué | Test de référence | Suivi et temporisation | Sélection des patients | Test évalué | Test de référence | |
| Corda et al. |  |  |  | ? |  |  |  | 5/7 |
| Vendrusculo et al. |  | ? |  |  |  |  |  | 5/7 |
| Bradley et al. |  | ? |  |  |  |  | ? | 3/7 |

-  Risque faible
-  Risque élevé
-  Risque incertain

Tableau VIII : Risque de biais au niveau de la validité (QUADAS-2)

Le détail des résultats de chaque article est donné dans l'Annexe 10.

3.5 Effets de la revue de littérature sur les critères de jugements

3.5.1 Résultats pour la fiabilité

Le coefficient de corrélation intra classe a été utilisé dans les trois articles évaluant la fiabilité test-retest.

On retrouve des graphiques de Bland-Altman évoquant la fiabilité test-retest du MSWT dans les articles menés par Del Corral et al. et par Corda et al.

Dans chacun des articles inclus, la différence entre fiabilité inter-examineur et fiabilité intra-examineur n'est pas exprimée.

✓ Coefficient de corrélation intra classe :

Nous avons réalisé plusieurs tableaux afin de présenter les résultats obtenus lors de l'évaluation de la fiabilité test-retest.

Tout d'abord, on retrouve deux études dans lesquelles deux évaluations du MSWT ont été effectuées.

| Articles | Nombre de participants | Moyenne de la distance T1 (En mètre) | SD | Moyenne de la distance T2 (En mètre) | SD | Mean différence (En mètre) | ICC | IC à 95% |
|-------------------|------------------------|--------------------------------------|--------|--------------------------------------|-------|----------------------------|-------|---------------|
| Del Corral et al. | 35 | 849.14 | 262.88 | 867.43 | 273.2 | 18.29 | 0.975 | [0.951-0.987] |
| Corda et al. | 20 | 1419 | 282 | 1370 | 290 | -48 | 0.907 | [0.775-0.963] |

Tableau IX : Données statistiques sur la fiabilité test-retest

Ces deux articles ont établi des seuils pour les coefficients de corrélation intra classe afin de déterminer la fiabilité test-retest du test diagnostique.

Pour Del Corral et al., on retrouve ces valeurs :

| ICC | ≥ 0.90 | $0.90 > ICC \geq 0.70$ | $0.70 > ICC \geq 0.4$ | < 0.4 |
|-----------|-------------|------------------------|-----------------------|---------|
| Fiabilité | Excellente | Bonne | Moyenne | Faible |

Tableau X : Seuils de coefficient de corrélation intra classe dans l'étude n°1 (Del Corral et al.)

Dans le cas de Corda et al., seules les notions de "bonne" et "excellente" fiabilité ont été définies :

| ICC | ≥ 0.90 | $0.90 > ICC \geq 0.75$ |
|-----------|-------------|------------------------|
| Fiabilité | Excellente | Bonne |

Tableau XI : Seuils de coefficient de corrélation intra classe dans l'étude n°2 (Corda et al.)

Dans le second tableau, uniquement les données de l'article mené par Leite et al. ont été incluses, puisque cette étude comporte trois visites au cours desquelles deux MSWT sont réalisés à chaque fois.

| Visites | Echantillon | Moyenne distance (ET) | Différence entre T1-T2 | ICC | IC à 95% |
|----------|-------------|-----------------------|------------------------|------|-------------|
| Visite 1 | 48 | 588.5 (+/- 168.4) | 23 | 0.83 | [0.70-0.90] |
| Visite 2 | 44 | 543.4 (+/- 161.8) | -18.7 | 0.90 | [0.80-0.94] |
| Visite 3 | 35 | 558.5 (+/-165.3) | 10 | 0.80 | [0.60-0.90] |

Tableau XII : Données statistiques sur la fiabilité test-retest de l'étude n°3 (Leite et al.)

La moyenne de l'ICC des trois visites a été calculée ainsi que son intervalle de confiance à 95%.

Ainsi, on obtient les ICC et les intervalles de confiance inscrits dans le tableau ci-dessous :

| Articles | ICC | IC à 95% |
|-------------------|-------|---------------|
| Del Corral et al. | 0.975 | [0.951-0.987] |
| Corda et al. | 0.907 | [0.775-0.963] |
| Leite et al. | 0.84 | [0.70-0.90] |

Tableau XIII : Tableau récapitulatif des ICC et des IC à 95% des articles évaluant la fiabilité

Dans l'étude menée par Leite et al., des seuils identiques d'ICC à ceux établis dans l'étude menée par Del Corral et al. ont été définis.

Dans l'ensemble de ces études, les données mentionnées ne sont pas suffisantes pour calculer les intervalles de confiance afin de voir si ceux donnés par les auteurs sont les bons.

Dans l'article mené par Leite et al., un histogramme montre qu'il n'y a pas de différences statistiquement significatives entre les deux tests effectués au cours de la même visite :

| Visites | Visite 1 | Visite 2 | Visite 3 |
|---------|----------|----------|----------|
| p | 0.23 | 0.24 | 0.85 |

Tableau XIV : Probabilité de différences statistiques significatives des moyennes obtenues lors de chaque visite dans l'article de Leite et al.

Sachant que le seuil est de $p < 0.05$, en effet lors de chacune des visites, aucune différence significative entre les deux tests a été enregistrée.

✓ Diagramme de Bland-Altman :

Les études menées par Del Corral et al. et Corda et al. représentent des diagrammes de Bland-Altman susceptibles de nous intéresser.

En effet, les graphiques présents affichent la moyenne des distances obtenues aux deux MSWT sur l'axe des abscisses.

Sur l'axe des ordonnées, on retrouve la différence entre les distances enregistrées aux MSWT lors du test n°1 et lors du test n°2.

Dans la figure n°1 (**Annexe 11**) de Del Corral et al., on s'intéresse au graphique de Bland-Altman à propos de la population atteinte de FK.

Les lignes en pointillés font référence aux écarts-types de la différence moyenne des distances enregistrées.

| Articles | Différence moyenne | + 1.96 SD | - 1.96 SD |
|-------------------|--------------------|-----------|-----------|
| Del Corral et al. | -18.3 | 97.0 | - 133.6 |
| Corda et al. | 48.4 | 293.6 | - 196.8 |

Tableau XV : Valeurs des écarts-types des différences moyennes obtenus dans les diagrammes de Bland-Altman

Les différences moyennes calculées sont les mêmes que celles retrouvées dans le texte des articles.

Pratiquement l'ensemble des distances parcourues dans ces articles sont situées entre les lignes en pointillées, ce qui signifie que leurs valeurs sont entre les écarts-types calculés dans nos deux études incluses.

Un seul point de données se situe légèrement au-delà de la valeur de l'écart-type positif dans l'étude de Corda et al. Il correspond donc à une valeur aberrante, ainsi peut-être à une erreur de mesure.

3.5.2 Résultats pour la validité

Dans ce type de revue de littérature, étant donné que nous avons un gold standard, normalement la validité se démontre avec la sensibilité et la spécificité.

Cependant, au cours des recherches, on remarque que, pour chacun des articles trouvés, ces termes ne sont pas employés et que les coefficients de Pearson et Spearman sont choisis pour évoquer la validité.

En effet, afin d'évaluer la sensibilité et la spécificité d'un test, il est nécessaire d'établir une valeur seuil permettant d'identifier si le test est positif ou négatif.

Néanmoins, nous évaluons des distances lors du MSWT, lesquelles correspondent à des variables continues. Il est donc difficile de définir un seuil ainsi que de parler de test positif ou négatif.

Les coefficients de Spearman et Pearson sont des coefficients de corrélation spécifiant la force du lien entre deux variables quantitatives : dans notre cas, une corrélation entre la distance parcourue au MSWT et la VO2max enregistrée lors du CPET.

La notion de validité est prise en compte dans trois articles de notre revue de littérature : Corda et al., Vendrusculo et al. et Bradley et al.

Les données de chaque article sont formulées dans le tableau suivant :

| Articles | Nombre de participants | Moyenne de la distance parcourue (En mètre) | Ecart-type | Vo2max enregistrée (En mL/kg/min) | Ecart-type | Coefficient de corrélation (r) | p |
|--------------------|------------------------|---|------------|-----------------------------------|------------|--------------------------------|---------|
| Corda et al. | 15 | 1408 | 298 | 38.6 | 8.1 | 0.8 | <0.05 |
| Vendrusculo et al. | 24 | 968.0 | 251.7 | 38.3 | 5.9 | 0.79 | <0.0001 |
| Bradley et al. | 20 | 929 | 335 | 32.85 | 10.36 | 0.78 | <0.001 |

Tableau XVI : Données statistiques dans l'évaluation de la validité du MSWT

Dans la partie méthodologie, il est expliqué que plus le coefficient de corrélation se rapproche de 1, plus la relation entre les deux variables quantitatives est forte.

En analysant les valeurs obtenues dans chacun des articles inclus, on retrouve une forte corrélation entre la distance parcourue au MSWT et la VO2 enregistrée lors du CPET (0.8 ; 0.79 ; 0.78).

Le "p" représente la valeur de la probabilité dans le contexte des tests statistiques. Il permet d'identifier si la corrélation observée est statistiquement significative ou non.

Nos trois études possèdent une valeur de $p < 0.05$, on peut donc en déduire que les résultats obtenus sont statistiquement significatifs.

Dans ces trois articles, on retrouve une régression linéaire représentant la corrélation entre la distance parcourue et la VO2 max enregistrée (**Annexe 12**).

Sur ces trois graphiques, on observe une forte liaison positive, ce qui concorde avec les valeurs des coefficients de corrélation obtenues.

4. DISCUSSION

4.1 Analyse des principaux résultats

4.1.1 La fiabilité test-retest

A l'aide de seuils fournis dans les études et les données statistiques du **Tableau IX**, on peut observer que les ICC obtenus sont supérieurs à 0.90 (ICC = 0.975 et ICC = 0.907). Ainsi, la fiabilité test-retest de ces deux études est excellente.

Par ailleurs, en examinant les intervalles de confiance à 95%, on observe que dans l'étude menée par Del Corral et al., l'intervalle de confiance possède une faible amplitude. Cette constatation souligne que plus l'amplitude de l'intervalle de confiance est réduite, plus l'estimation est précise.

Dans l'étude menée par Corda et al., l'intervalle de confiance est plus étendu que celui de Del Corral et al. Néanmoins, cette amplitude reste relativement modérée ce qui garantit une estimation précise de la valeur de l'ICC.

Il est indispensable de rappeler que les intervalles de confiance n'ont pas pu être calculés afin de voir si ceux transmis dans les études étaient bons, ce qui entraîne un fort risque de biais.

Ensuite, comme dit précédemment, des seuils identiques de coefficient de corrélation intra classe à ceux établis dans l'étude menée par Del Corral et al. ont été définis pour Leite et al.

Dans le **Tableau XII**, on observe une excellente fiabilité lors de la visite n°2 (ICC= 0.90), alors que pour les deux autres visites, la fiabilité a été définie comme étant bonne (ICC = 0.83 et ICC = 0.80).

Lors de la première visite, les participants ont été initialement introduits au MSWT, ainsi ils étaient plus familiarisés avec la réalisation du test lors de la seconde visite.

Une meilleure cohérence entre les résultats obtenus à cette seconde visite est donc envisageable, se traduisant par une augmentation de la valeur de l'ICC.

De plus, même si la distance moyenne parcourue au troisième mois de l'étude est plus faible qu'à la première visite, la variation des performances de chaque patient peut être moins importante, donc une meilleure fiabilité des mesures peut être enregistrée.

Cela dépend aussi des conditions du test pouvant varier lors de la même visite mais aussi lors de deux visites différentes.

Entre le second et dernier test, on voit que l'échantillon diminue de neuf participants. Ainsi, une variation du nombre de participants pourrait impliquer un changement d'ICC.

Étant donné que cette étude se déroule sur plusieurs mois, la variabilité temporelle est un élément à prendre en compte. En effet, les performances obtenues par les participants peuvent fluctuer au fil du temps, donnant des ICC différents. Néanmoins, leurs valeurs restent tout de même cohérentes et elles témoignent d'une fiabilité satisfaisante du MSWT.

Ainsi, lors de cette étude, une moyenne des ICC des trois visites a été calculée démontrant ainsi une bonne fiabilité (ICC = 0.80).

Au niveau des intervalles de confiance à 95%, on peut noter que l'amplitude est faible dans chacune des visites, ce qui montre une estimation précise de la valeur du coefficient de corrélation intra classe. En conclusion, les résultats des ICC de nos études incluses indiquent que le MSWT possède une fiabilité bonne voire excellente.

Aussi, il est important de souligner que dans les études de Del Corral et al. et Corda et al., notre taille d'échantillon est faible ($n = 35$; $n = 20$).

En effet, ces faibles échantillons peuvent ne pas être totalement représentatifs de la population atteinte de mucoviscidose, ce qui peut entraîner un biais dans les résultats obtenus.

L'étude menée par Leite et al. possède une taille d'échantillon plus importante et il est précisé dans l'article que les deux MSWT ont été réalisés par le même kinésithérapeute.

L'exécution des tests par le même kinésithérapeute pourrait expliquer les faibles différences moyennes obtenues entre les tests effectués le même jour par rapport à la différence moyenne notée dans Corda et al.

On peut maintenant évoquer le temps de latence qu'il y a eu entre l'exécution des deux tests dans les articles évaluant la fiabilité test-retest.

Dans l'article de Del Corral et al., l'intervalle de temps entre la réalisation du premier et du second test de marche était de deux à quatre jours.

Les patients ont donc bien pu récupérer, et ce laps de temps est suffisamment long pour que les patients aient pu oublier les distances qu'ils ont parcourues lors du premier test.

On retrouve une augmentation de la distance moyenne lors du second test (18.29 mètres).

Or, dans l'article mené par Corda et al. et celui de Leite et al., les deux MSWT ont été réalisés le même jour et ils ont été espacés soit de 30 minutes minimum soit le temps que les signes vitaux (fréquence cardiaque et saturation en oxygène) reviennent à leur valeur de référence.

Ainsi, la différence moyenne enregistrée dans Corda et al. peut s'expliquer par un temps de latence insuffisant, donc les patients ont réalisé le second test en n'ayant pas assez récupéré et ont donc eu des valeurs inférieures au second test.

De plus, un temps de latence court signifie que les patients et les examinateurs se souviennent de la distance obtenue lors du premier test. Il n'est précisé dans aucun des articles si le patient est en aveugle de sa distance parcourue au cours du premier MSWT.

Ce temps de latence plus important dans l'étude menée par Del Corral et al. pourrait justifier que son intervalle de confiance soit plus étroit et ainsi plus précis que dans les deux autres études.

Dans Leite et al., uniquement les distances moyennes lors des trois visites sont présentées.

Les valeurs des distances parcourues lors du test n°1 et lors du test n°2 ne sont pas fournies.

Il est observé que la plus grande distance moyenne a été enregistrée lors de la première visite.

Néanmoins, on retrouve la différence des distances moyennes entre le test n°1 et le test n°2 effectués lors de la même visite.

Au cours des visites n°1 et n°3, les participants ont parcouru une plus grande distance lors du premier MSWT, ce qui concorde avec un temps de latence insuffisant et donc qu'ils n'ont peut-être pas totalement récupéré.

Cependant, pour la visite n°2, une distance plus importante a été enregistrée au second MSWT. Il serait pertinent d'acquiescer les données concernant les distances exactes de chaque test afin de comparer les valeurs du MSWT n°1 et celles du MSWT n°2 lors de chaque visite. De plus, il serait intéressant d'avoir plus d'informations à propos de la réalisation des MSWT lors de chaque visite : des différences d'exécution peuvent être présentes.

Par la suite, on remarque des perdus de vue dans les études menées par Corda et al. et Leite et al.

En effet, pour Corda et al., un des patients a refusé de réaliser le test une seconde fois. Pour Leite et al., à l'aide du **Tableau XII**, on peut voir que la taille de l'échantillon diminue au fur et à mesure des visites. Un total de treize participants a été exclu suite à des exacerbations.

Il est important de citer ces perdus de vue puisque cela diminue la taille des échantillons, pouvant entraîner un biais sur l'obtention de nos valeurs.

Dans Corda et al., seules les données des patients qui ont réalisé deux fois le test ont été prises en compte.

Toutefois, chez Leite et al., une moyenne des ICC est calculée avec les valeurs obtenues lors de chaque visite, même si le nombre de participants n'est pas le même à chaque fois. Cela entraîne un biais dans l'obtention des résultats de l'ICC moyen obtenu et de l'intervalle de confiance à 95%.

L'étude menée par Corda et al. a enregistré des distances plus importantes lors de la réalisation des deux MSWT.

En effet, les tests se sont déroulés selon 25 niveaux alors que dans les autres articles, seulement 15 niveaux ont été utilisés.

Ce dernier augmente le niveau de fiabilité puisqu'il réduit la variabilité des mesures et fournit des estimations plus précises.

Malgré tout, cela dépend de l'administration du test ainsi que d'autres facteurs, tels que l'examineur, le patient et l'environnement.

Un écart assez important est observé entre les distances enregistrées dans l'étude de Del Corral et al. (849,14 m et 867,43 m) et celles parcourues lors des MSWT de Leite et al. (588,5 m ; 543,4 m ; 558,5 m), bien que les tests de ces deux articles aient été effectués selon 15 niveaux.

Néanmoins, on peut noter qu'avant la réalisation des MSWT chez Del Corral et al., les patients étaient assis pendant dix minutes durant lesquelles leur saturation en oxygène était mesurée. De plus, au cours de la première minute du test, le patient était accompagné par un kinésithérapeute. Ces informations pourraient justifier l'obtention de distances plus élevées dans cette étude.

Ensuite, on peut supposer que les participants de Leite et al. avaient un stade de mucoviscidose plus avancé, donnant des distances moyennes inférieures à celle de Del Corral et al.

Enfin, en ce qui concerne le niveau de la fiabilité, il serait intéressant de savoir si l'ICC est plus proche de la valeur de 0.90, soit d'une excellente fiabilité, ou plus proche de 0.80, soit d'une bonne fiabilité.

A l'aide des informations précédentes, on sait que le temps de latence est optimal dans l'étude de Del Corral et al.

De plus, l'échantillon initial dans l'étude de Leite et al. est plus important, mais on retrouve un grand nombre de perdus de vue. Ainsi, lors de la troisième visite, il y a autant de participants que chez Del Corral et al., où aucun patient n'a été exclu de l'étude.

L'ICC moyen retrouvé chez Leite et al. est biaisé car cette valeur est calculée à partir des ICC obtenus lors de trois visites où le nombre de participants différait.

On retrouve un intervalle de confiance plus étroit dans l'article de Del Corral et al., ce qui indique une estimation plus précise du coefficient de corrélation intra classe.

Dans notre revue de littérature, deux articles sont en faveur d'une excellente fiabilité tandis qu'un seul justifie une bonne fiabilité.

Dans l'article de Leite et al., même si la fiabilité moyenne sur les trois visites est bonne, celle de la deuxième visite est excellente.

En prenant en compte le nombre de filles et de garçons présents dans les études de Del Corral et al. et de Corda et al., on retrouve une parité presque totale (26 filles et 29 garçons). Dans l'autre étude, il y a un plus grand nombre de garçons, ce qui est moins représentatif de la population atteinte de mucoviscidose (19 filles et 29 garçons).

Ainsi, la valeur du coefficient de corrélation intra classe du MSWT tend vers une fiabilité excellente.

4.1.2 La validité

Pour rappel, les articles évaluant la validité du MSWT sont ceux menés par Corda et al., Vendrusculo et al. et Bradley et al.

Pour cette partie, on s'intéresse donc aux coefficients de corrélation de Spearman et de Person.

Le coefficient de Spearman est employé dans les études de Corda et al. ainsi que de Leite et al. Celui de Pearson est utilisé dans les études de Corda et al. et de Vendrusculo et al.

On remarque que les deux coefficients sont pris en compte dans l'article mené par Corda et al. En effet, cela dépend des variables mesurées.

Pour notre revue, la corrélation entre la distance parcourue au MSWT et la valeur de la VO₂max au CPET est recherchée.

L'étude de Corda et al. ne précise pas si c'est le coefficient de Spearman ou de Pearson qui est choisi pour évaluer la corrélation entre ces deux variables.

En analysant le **Tableau XVI**, on peut voir que nos trois coefficients de corrélation ont une valeur proche de 1 (0.8; 0.79; 0.78).

Cela signifie que la valeur de la VO₂max au CPET augmente avec la distance parcourue au MSWT, ainsi on obtient une bonne corrélation.

Cependant, cette dernière n'est pas parfaite car aucune valeur obtenue est égale à 1.

De plus, on note un $p < 0.05$ dans ces trois études ce qui montre que nos résultats sont statistiquement significatifs.

En accord avec nos valeurs, les régressions linéaires (**Annexe 12**) schématisées dans deux des articles sur la validité décrivent une forte liaison positive entre la distance parcourue et la VO₂max chez les patients atteints de mucoviscidose.

Toutefois, il est important de préciser que lors de l'écriture de l'article mené par Bradley et al., il n'y avait pas encore de gold référence dans l'évaluation de la tolérance à l'effort. Ainsi, un test sur tapis roulant a été réalisé selon un protocole standardisé ressemblant au CPET.

Cela peut-être un risque de biais sur l'interprétation des résultats. De plus, étant un article plus ancien que les autres, on retrouve moins de détails sur la réalisation de l'étude, ce qui nous donne moins de précisions par rapport aux résultats obtenus.

Ensuite, il faut savoir que le coefficient de Pearson est plus sensible aux données aberrantes que le coefficient de Spearman. Puisqu'il est le plus fréquemment utilisé dans nos études évaluant la validité, il est nécessaire de noter qu'il est susceptible d'inclure des biais dans nos résultats.

On retrouve une taille d'échantillons encore plus faible dans l'article mené par Corda et al. lorsque celui-ci s'intéresse à la validité. En effet, étant une étude assez récente, cinq participants n'ont pas pu effectuer le CPET en raison des restrictions liées au COVID-19.

Au total, dans cette étude, quinze participants ont participé à la recherche de la corrélation entre nos deux variables, ce qui représente un faible échantillon représentatif de la population atteint de FK.

Au niveau des mesures obtenues, que ce soit pour la distance parcourue au MSWT ou pour la valeur de la VO₂max enregistrée, on retrouve très peu de différences entre les trois études (**Tableau XVI**).

Par la suite, comme pour la fiabilité, nous allons évaluer le temps de latence entre la réalisation du MSWT et celle du CPET.

Pour l'étude de Corda et al, deux visites distinctes sont effectuées sur une période d'un mois :

- ✓ Lors d'une visite, deux MSWT sont réalisés.
- ✓ Lors de l'autre visite, le CPET est enregistré.

Dans l'étude de Vendrusculo et al, il est seulement mentionné que les deux tests sont réalisés lors de deux visites distinctes, sans préciser la durée exacte du temps de latence entre ces deux rendez-vous.

Pour Bradley et al, le MSWT et le CPET ont eu lieu lors de deux visites séparées, avec une durée moyenne entre chaque visite de 7 (+/- 4) jours.

Ainsi, un temps de latence adéquat est observé pour l'ensemble de nos mesures. Même si la valeur exacte n'est pas précisée chez Vendrusculo et al., on sait que les deux tests se sont déroulés lors de deux visites différentes, ce qui reste une information importante.

Dans ces articles inclus dans l'analyse de la validité du MSWT, la corrélation de nombreuses autres variables est évaluée.

Ces variables pourraient être le sujet d'une autre revue de littérature afin de permettre de renforcer ou à l'inverse de contester le lien de corrélation entre le MSWT et la VO₂max.

Enfin, on peut revenir sur le fait qu'un gold standard existe dans l'évaluation de la tolérance à l'effort chez les patients atteints de mucoviscidose.

Ainsi, il aurait été intéressant d'analyser la sensibilité et la spécificité du MSWT. Cependant, il faudrait établir un seuil pour pouvoir définir ces deux critères, ce qui représente un défi, étant donné qu'on étudie une variable continue, la distance parcourue lors du test, fortement dépendante de chaque patient.

Notre objectif principal dans l'utilisation du MSWT est de comparer l'évolution des performances du patient au fil du temps et d'établir des niveaux d'intensité d'exercices adaptés lors de son activité physique, plutôt que de chercher à classer les résultats comme positifs ou négatifs.

Pour finir, il est important de signaler que la moyenne d'âge dans chacune des études est assez faible. Ainsi, les résultats sont plutôt représentatifs d'une population jeune atteinte de mucoviscidose.

Or, on sait que l'espérance de vie à la naissance dans cette pathologie ne cesse d'accroître et elle se trouve actuellement 50 ans avec un âge médian de 40 ans. Il ne faut donc pas négliger l'importance du MSWT chez une population adulte. Les valeurs, que ce soit pour la fiabilité ou la validité, seront peut-être différentes que celles obtenues chez une population plus jeune.

4.2 Evaluation des biais des études incluses

Dans cette sous-partie, on va analyser en détail les risques de biais de nos études incluses. Comme vu précédemment, le risque de biais au niveau de la fiabilité est évalué avec l'échelle de QAREL et celui de la validité avec l'échelle de QUADAS-2.

➤ **QAREL (Annexe 9)**

L'article de Corda et al. a obtenu le score de 6/11, tandis que Del Corral et al. et Leite et al. ont respectivement eu les notes de 5/10 et de 4/10.

Le risque de biais au niveau de la fiabilité est donc moyen.

A l'aide du **Tableau VII** ainsi que de la **Figure 5**, on peut observer :

✓ **Une excellente représentativité des participants et des examinateurs.**

En effet, dans chacun de nos articles évaluant la fiabilité, l'échantillon attendu afin d'obtenir un niveau de signification à 0.05% a été respecté.

De plus, l'ensemble des MSWT ont été réalisés par des kinésithérapeutes ou par des opérateurs exerçant dans des services spécialisés sur la mucoviscidose.

Un de nos objectifs est de voir si ce test est bien conçu pour des personnes qui le réalisent déjà ou qui ont l'intention de le réaliser chez leurs patients atteints de mucoviscidose.

✓ **Une faible mise en aveugle inter et intra-examineur.**

Dans les études incluses, on retrouve peu d'informations à ce sujet.

Seule l'étude menée par Leite et al précise que c'est le même kinésithérapeute qui réalise les deux MSWT lors de la même visite.

Toutefois, il est difficile de mettre en aveugle la valeur de la distance parcourue si c'est le même kinésithérapeute qui subordonne les deux MSWT, étant donné que c'est lui qui relève la valeur obtenue. Afin d'obtenir une mise en aveugle, il faut un temps de latence suffisant pour que le kinésithérapeute ne se souvienne plus de la distance enregistrée.

✓ **L'item 5 fait référence au gold standard.**

Ainsi, seulement l'article de Corda et al. sur ces trois articles évalue le gold standard.

On a alors décidé d'écrire non applicable pour les deux autres articles, ce qui explique pourquoi ils ont reçu une note sur 10.

Dans le cas de Corda et al., le MSWT et le CPET ont été effectués par des examinateurs différents. De plus, l'ordre des tests a été randomisé et inscrit dans des enveloppes opaques et scellées permettant de limiter le risque de biais.

Ainsi, c'est le seul article qui inclut une randomisation de l'ordre d'évaluation.

✓ **Un fort risque de biais au niveau du dossier patient ainsi que sur les indices cliniques.**

Dans aucun des articles, il est spécifié que les examinateurs étaient en aveugle à une quelconque information clinique sur le déroulement du test ou dans le cadre du protocole.

Aucun indice ne faisant pas partie du test a été mentionné.

✓ **L'item 9 représente la stabilité temporelle.**

Comme expliqué précédemment dans la partie discussion à propos de la fiabilité, seulement l'étude menée par Corda et al. a instauré un temps de latence suffisant (plusieurs jours) afin de permettre aux participants de récupérer et d'oublier la valeur de la distance qu'ils ont parcourue lors du premier test.

Dans les deux autres articles, les deux MSWT ont été réalisés avec un laps de temps de 30 minutes ou lorsque les signes vitaux étaient redevenus à la normale. Ce temps de latence semble inadéquat pour obtenir un résultat représentatif.

✓ **L'item 10 évoque la réalisation et l'interprétation des tests.**

Le déroulement des tests a bien été expliqué en précisant le lieu, le matériel nécessaire, les données mesurées. Chacun des articles précisent la formulation d'encouragements verbaux et les raisons ayant mis fin aux MSWT.

✓ **L'item 11 fait référence à la présence ou non du coefficient de corrélation intra classe.**

Dans l'ensemble de nos articles, la fiabilité test-retest a été calculée à l'aide du coefficient de corrélation intra classe. Ainsi, le risque de biais au niveau de l'interprétation des résultats est faible.

➤ **QUADAS-2 (Annexe 10)**

Les scores obtenus à l'évaluation du risque de biais de la validité sont :

- Pour Corda et al. : 5/7
- Pour Vendrusculo et al. : 5/7
- Pour Bradley et al. : 3/7

On rappelle que le risque incertain ainsi que le risque élevé rapportent 0 point.

Certains items de cette échelle ne sont pas adaptés à cette revue.

En effet, l'objectif de cette revue de littérature n'est pas d'identifier la présence ou l'absence d'une pathologie mais bien d'analyser une variable continue, soit la distance parcourue au MSWT.

Ainsi les questions : « Un schéma d'étude type cas-témoin a-t-il été évité ? » et « Si un seuil de décision a été utilisé, a-t-il été spécifié ? » sont non applicables à notre problématique.

En réponse à ces questions, aucune proposition n'a été surlignée pour l'ensemble de nos études.

Dans le domaine 3 de cette échelle, les items « Le test de référence est-il susceptible de correctement identifier la pathologie recherchée » et « Y a-t-il une préoccupation quant au fait que la pathologie telle qu'elle a été diagnostiquée par le test de référence diffère de celle de la question de recherche ? » ont été interprétés différemment afin de correspondre à notre problématique.

On a compris la première question comme nous demandant si le test de référence permettait d'obtenir la valeur attendue.

Pour le second item, il s'agissait de déterminer si des préoccupations existaient concernant un manque de corrélation entre le test de référence et le test diagnostique.

✓ **Le risque de biais le plus important est retrouvé lors de la sélection des patients.**

Dans chacun des articles inclus dans cette revue de littérature, il n'est pas précisé si les patients ont été sélectionnés de manière aléatoire.

Pour l'étude menée par Bradley et al., il est même mentionné que les participants étaient des volontaires.

Ainsi, étant donné qu'il n'y a aucune certitude sur cette sélection de patients, même si des critères d'exclusion ont empêché certaines personnes de participer à ces études, il reste une incertitude sur des exclusions inappropriées.

On note aussi des incertitudes au niveau du test évalué, du suivi et de la temporisation.

Une préoccupation incertaine apparaît sur le test de référence de l'étude menée par Bradley et al.

En effet, quand cet article a été publié, le gold standard n'avait pas encore été défini même si son protocole est similaire à celui retrouvé dans Bradley et al.

On reste tout de même incertain sur l'interprétation et le lien entre ce test et le MSWT.

4.3 Applicabilité des résultats en pratique clinique

L'objectif de notre revue de littérature était d'évaluer les propriétés métrologiques du MSWT dans l'évaluation de la tolérance chez les patients atteints de mucoviscidose.

Dans cette revue, tous les articles inclus ont utilisé le MSWT afin d'analyser la tolérance à l'effort chez cette population spécifique.

En effet, l'ensemble des patients inclus étaient :

- ✓ Atteints de mucoviscidose avec un diagnostic clinique confirmé,
- ✓ Cliniquement stables,
- ✓ Capables d'effectuer les tests.

Le MSWT est un test d'effort maximal, progressif et externe. Le déroulement de son protocole est similaire à celui du gold standard. [31]

Il est relativement simple à administrer et ne nécessite pas un matériel sophistiqué.

L'exécution de notre test a lieu dans un couloir de dix mètres où les patients peuvent marcher ou courir en faisant des allers-retours entre deux plots/cônes.

Un signal sonore demande aux patients d'augmenter leur vitesse de marche toutes les minutes, ce qui rend le test plus ludique et donne un objectif à atteindre en fonction du signal.

Etant donné que la mucoviscidose est une pathologie présente dès la naissance, il est important que cela ne soit pas monotone ou trop répétitif pour les enfants malades.

Les équipements nécessaires pour réaliser ce test sont peu coûteux en comparaison de ceux utilisés lors du CPET.

En effet, il comprend des plots/cônes, un appareil de signal sonore, un chronomètre, éventuellement un saturomètre et un tensiomètre.

De plus, les kinésithérapeutes n'ont pas besoin de formation supplémentaire pour pouvoir réaliser ce test.

En comparaison avec les autres tests de marche qui possèdent un effet plafond limitant leur utilisation, le MSWT présente moins de restrictions.

Cependant, compte tenu de l'amélioration progressive de la capacité physique des patients atteints de mucoviscidose, il serait bénéfique de privilégier la version du MSWT comportant 25 niveaux dans le but d'éviter tout effet plafond indésirable.

4.4 Qualité des preuves

La qualité des preuves se définit par les critères de jugement de notre revue de littérature et non par les niveaux de preuves des études incluses.

Ainsi, on s'intéresse à la qualité des preuves de la fiabilité et de la validité du MSWT.

La première chose à évaluer afin d'obtenir la qualité des preuves de notre revue est le type d'études incluses. Des études clinimétriques sont sélectionnées afin de répondre à notre problématique.

On recherche la fiabilité et la validité d'un test de marche, et non l'efficacité d'un traitement sur une population ou le pronostic d'une pathologie.

Ainsi, grâce à l'utilisation du grade de recommandations de l'HAS² (**Annexe 13**), on peut observer que notre revue possède un **GRADE C niveau 4**, ce qui se traduit par un faible niveau de preuves scientifiques.

D'autres facteurs, au nombre de cinq, ont une influence sur le niveau de preuves de notre revue :

- **Le risque de biais**

Les valeurs obtenues dans l'échelle QAREL sont de 5/10, 6/11 et 4/10.

Avec ces résultats et les informations cités dans la partie discussion à propos de la fiabilité, on peut déduire que **le risque de biais est important (-1)**.

L'échelle QUADAS-2 a évalué le biais de la validité de nos études :

- ✓ Pour Corda et al. : 5/7
- ✓ Pour Vendrusculo et al. : 5/7
- ✓ Pour Bradley et al. : 3/7

² https://www.has-sante.fr/upload/docs/application/pdf/2013-06/etat_des_lieux_niveau_preuve_gradation.pdf

Même si des scores corrects sont obtenus pour les études menées par Corda et al. et Vendrusculo et al., étant donné la valeur du QUADAS-2 chez Bradley et al. et les risques de biais mentionnés précédemment, la validité possède un **risque de biais important (-1)**.

✓ **L'hétérogénéité permet d'évoquer si des différences ou des similarités sont retrouvées.**

Les ICC obtenus dans chacune des études évaluant la fiabilité ont des valeurs rapprochées, ce qui montre une faible hétérogénéité des résultats.

Les valeurs des intervalles de confiance de ces ICC se chevauchent dans les trois études analysant la fiabilité du MSWT.

Cependant, les informations données par ces trois études ne permettent pas de calculer les intervalles de confiance afin de voir si des erreurs de calcul ont été faites par les auteurs.

Ainsi, une hétérogénéité entre les vrais IC à 95% peut être présente.

On considère donc une **hétérogénéité importante (-1)** en ce qui concerne la fiabilité.

Les coefficients de corrélation obtenus dans chacun des articles évaluant la validité sont très rapprochés. En effet, les valeurs sont de 0.8; 0.79; 0.78. De plus, les courbes de régression linéaire sont fortement similaires.

Les valeurs d'intervalles de confiance de nos coefficients de corrélation ne sont pas mentionnées dans nos articles. De plus, les données à notre disposition ne suffisent pas pour les calculer.

Même si, dans l'ensemble de notre étude, les résultats sont plutôt homogènes, il manque les intervalles de confiance au niveau de la validité.

L'hétérogénéité de notre revue au niveau de la validité reste tout de même **importante (-1)**.

✓ **Le caractère indirect**

On observe que dans chacune de nos études, que ce soit au niveau de la fiabilité et de la validité, une moyenne d'âge assez faible. En effet, la plus élevée est de 25 (+/-7) ans.

Ainsi, notre revue de littérature fait référence à l'utilisation du MSWT chez une population jeune atteinte de mucoviscidose.

Cependant, il est important de noter que l'espérance de vie à la naissance chez les patients atteints de mucoviscidose augmente au fil des années. Ainsi, lors de l'évaluation de la fiabilité et de la validité des différentes études, il convient de considérer ces deux critères de jugement uniquement pour les patients jeunes.

Ensuite, que ce soit dans la fiabilité ou dans la validité, on peut voir que les participants sont majoritairement des garçons ce qui peut être un biais au niveau du genre. On peut se demander si le MSWT serait aussi fiable et valide s'il y avait une parité filles/garçons ou s'il y avait plus de filles.

Une **incertitude majeure** est donc retenue dans le caractère indirect **(-2)** à la fois pour la fiabilité et pour la validité.

✓ **L'imprécision des résultats**

L'ensemble des intervalles de confiance retrouvés dans nos études ont une amplitude faible ce qui renforce la précision des résultats.

Néanmoins, comme dit précédemment, aucun intervalle de confiance en lien avec la validité n'est cité dans les articles de la revue.

De plus, on peut remarquer qu'un faible échantillon de participants a été sélectionné dans chacun des articles, ce qui limite la représentativité des populations malades de FK.

Ainsi, au niveau de la fiabilité, on retrouve une imprécision **importante (-1)** des résultats. Cependant, en ce qui concerne la validité, cette imprécision des résultats est **très importante (-2)**.

✓ **Le biais de publication**

Afin de répondre à notre problématique, seulement trois bases de données ont été exploitées.

Nous avons restreint nos recherches aux articles écrits en anglais ou en français. De plus, uniquement trois études évaluent la fiabilité et trois autres analysent la validité.

Concernant l'année de publication, quatre articles sur cinq ont été publiés au cours des dix dernières années.

Cela peut être interprété de façon positive en témoignant des avancées de la science mais aussi de façon négative puisque nous n'avons pas assez de recul sur les résultats obtenus.

Inversement, un de ces articles date de l'année 2000, période où la science était moins évoluée et où les patients atteints de mucoviscidose présentaient un niveau d'activité physique moins important.

Il est important de noter que pour évaluer le biais de publication, il faut utiliser un Funnel plot (nuage de points) afin de l'apprécier visuellement. Cependant, en raison du faible nombre d'études sélectionnées, nos données ne sont pas suffisantes pour le réaliser.

Ainsi, ce biais de publication ne sera évalué que de manière subjective.

Un tableau récapitulatif de l'ensemble des facteurs évaluant la qualité des preuves de notre revue de littérature selon le système GRADE a été réalisé :

| Niveau de qualité de départ | | |
|-----------------------------|---|--------------------------|
| Types d'études | Etudes diagnostiques : « GRADE C Niveau 4 » | |
| Niveaux de qualité en moins | | |
| Critères de jugement | Fiabilité | Validité |
| Risques de biais | Important (-1) | Important (-1) |
| Hétérogénéité | Importante (-1) | Importante (-1) |
| Caractère indirect | Incertitude majeure (-2) | Incertitude majeure (-2) |
| Précision des résultats | Importante (-1) | Très importante (-2) |
| Biais de publication | Analysé subjectivement | |
| Niveau de preuves | GRADE C Niveau 4 | ⊕ ⊕ ○ ○ |

Tableau XVII : Qualité des preuves de notre revue de littérature selon le système GRADE

Avec ces cinq facteurs décrits, il est possible de perdre huit points sur la qualité des preuves de nos critères de jugement.

On observe dans le tableau que la fiabilité perd 5 points de qualité tandis que la validité en perd 4.

On obtient donc un niveau de preuve de **GRADE C de niveau 4**, il s'agit d'un niveau de preuve faible.

Ainsi, cela signifie que notre confiance dans l'estimation est limitée.

En conclusion, les valeurs obtenues pour la fiabilité et la validité du MSWT peuvent être sensiblement différentes dans la réalité.

4.5 Biais potentiel de la revue

Le biais potentiel de cette revue de littérature a été évalué à l'aide de l'échelle AMSTAR 2.0.

La version française datant de 2019 a été utilisée. [45]

| Items | Cotations | Réponses | Justifications |
|-------|--|----------|---|
| 1 | Est-ce que les questions de recherche et les critères d'inclusion de la revue ont inclus les critères PICO ? | OUI | 1.6. Objectifs de cette revue de littérature 2.1. Critères d'éligibilité des études pour cette revue 2.2.2. Equation de recherche |
| 2 | Est-ce que le rapport de la revue contenait une déclaration explicite indiquant que la méthode de la revue a été établie avant de conduire la revue ? Est-ce que le rapport justifiait toute déviation significative par rapport au protocole ? | OUI | 2. METHODE |
| 3 | Les auteurs ont-ils expliqué leur choix de schémas d'étude à inclure dans la revue ? | OUI | 2.1.1. Schéma d'étude |
| 4 | Les auteurs ont-ils utilisé une stratégie de recherche documentaire exhaustive ? | OUI | 2.2.1. Sources d'information 2.2.2. Equation de recherche |
| 5 | Les auteurs ont-ils effectué en double la sélection des études ? | NON | |
| 6 | Les auteurs ont-ils effectué en double l'extraction des données ? | NON | |
| 7 | Les auteurs ont-ils fourni une liste des études exclues et justifié les exclusions ? | OUI | 3.2. Articles exclus Annexe 8 |
| 8 | Les auteurs ont-ils décrit les études incluses de manière suffisamment détaillée ? | OUI | 3.3. Articles inclus |

| | | | |
|----|--|-------------------|---|
| 9 | Les auteurs ont-ils utilisé une technique satisfaisante pour évaluer le risque de biais des études individuelles incluses dans la revue ? | OUI | 3.4. Synthèse des biais des études incluses Utilisation des échelles QAREL (fiabilité) et QUADAS-2 (validité). |
| 10 | Les auteurs ont-ils indiqué les sources de financement des études incluses dans la revue ? | OUI partiellement | 4.7. Conflits d'intérêts et financement de cette revue Un des articles n'a pas précisé son financement |
| 11 | Si une méta-analyse a été effectuée, les auteurs ont-ils utilisé des méthodes appropriées pour la combinaison statistique des résultats ? | OUI | 3.5. Effets de la revue de littérature sur les critères de jugements 4.1. Analyse des principaux résultats |
| 12 | Si une méta-analyse a été effectuée, les auteurs ont-ils évalué l'impact potentiel des risques de biais des études individuelles sur les résultats de la méta-analyse ou d'une autre synthèse des preuves ? | OUI | 4.1. Analyse des principaux résultats 4.2. Evaluation des biais des études incluses |
| 13 | Les auteurs ont-ils pris en compte le risque de biais des études individuelles lors de l'interprétation / de la discussion des résultats de la revue ? | OUI | 4.2. Evaluation des biais des études incluses |
| 14 | Les auteurs ont-ils fourni une explication satisfaisante pour toute hétérogénéité observée dans les résultats de la revue, et une discussion sur celle-ci ? | OUI | 4.4. Qualité des preuves |
| 15 | S'ils ont réalisé une synthèse quantitative, les auteurs ont-ils mené une évaluation adéquate des biais de publication (biais de petite étude) et ont discuté de son impact probable sur les résultats de la revue ? | OUI | 4.4. Qualité des preuves |
| 16 | Les auteurs ont-ils rapporté toute source potentielle de conflit d'intérêt, y compris tout financement reçu pour réaliser la revue ? | OUI | 4.7. Conflits d'intérêts et financement de cette revue |

Tableau XVIII : Biais potentiel de la revue évalué avec l'échelle AMSTAR 2.0

La réponse à l'item n°10 est « oui partiellement » puisque dans un des articles inclus dans notre étude, les auteurs ne font pas référence aux sources de financement.

Nous avons décidé de comptabiliser zéro point pour cette question.

Ainsi, un score de 13/16 est obtenu à l'échelle AMSTAR 2.0, soit un très bon résultat. Cependant, d'autres biais peuvent être évoqués.

Premièrement, les items n°5 et n°6 ont eu une réponse négative puisqu'il n'y a pas eu de double sélection d'études ou de double extraction de données. En effet, cette revue de littérature a été menée par une seule personne, ce qui représente un fort risque de biais.

Ensuite, l'ensemble des articles sélectionnés étaient en anglais alors que l'examineur était français, certaines informations ont pu être mal interprétées.

Pour conclure, il semble que le biais de cette revue de littérature soit davantage orienté vers un risque de biais modéré plutôt qu'un risque de biais faible. En effet, cette échelle n'inclut pas l'ensemble des risques biais pouvant être retrouvés dans notre étude.

4.6 Conflits d'intérêts et financement

Les conflits d'intérêts et le financement de nos études incluses ont été cités dans le tableau suivant :

| Articles | Conflits d'intérêts | Financement |
|---------------------------|--|---|
| Del Corral et al. | Les auteurs mentionnent qu'il n'y a eu aucun lien d'affiliation ou d'implication financière avec une organisation ou une entité ayant un intérêt financier direct dans le sujet. | Les auteurs citent que la recherche n'a reçu aucun financement spécifique de la part d'organismes de financement des secteurs public, commercial ou non lucratif. |
| Corda et al. | Les auteurs déclarent n'avoir eu aucun conflit d'intérêt. | <ul style="list-style-type: none"> ○ JC a bénéficié d'un soutien à la recherche de la part de Cystic Fibrosis Community Care. ○ La publication en libre accès a été rendue possible grâce à l'Université de La Trobe. |
| Leite et al. | <u>Non précisé</u> | <ul style="list-style-type: none"> ○ Fundo de Iniciação a Pesquisa de Pontificia ○ Universidade Catolica de Minas Gerais |
| Vendrusculo et al. | <u>Non précisé</u> | <ul style="list-style-type: none"> ○ Coordenação de Aperfeiçoamento de Pessoal de Nível Superior (CAPES) ○ Conselho Nacional de Desenvolvimento Científico e Tecnológico (CNPq) |
| Bradley et al. | <u>Non précisé</u> | <u>Non précisé</u> |

Tableau XIX : Conflits d'intérêts et financement des études sélectionnées

4.7 Conflits d'intérêts et financement de cette revue

Aucun conflit d'intérêt n'est à déclarer dans cette revue de littérature.
Aucun financement n'a été alloué à la rédaction de ce projet.

5. CONCLUSION

Pour conclure, cette revue de littérature met en lumière la fiabilité et la validité du Modified Shuttle Walk Test chez les patients atteints de mucoviscidose.

Les articles inclus dans cette revue ont montré de très bons résultats au niveau de la fiabilité et de la validité de ce test de marche. Il serait donc intéressant de l'inclure dans la prise en charge des patients atteints de mucoviscidose afin d'évaluer leur tolérance à l'effort.

Étant donné les coûts, le temps et le personnel nécessaire pour réaliser le gold standard, le MSWT représente une alternative prometteuse pour cette population.

Cependant, il ne faut pas négliger les risques de biais rencontrés dans les différentes études, soulignant ainsi la nécessité de recherches plus approfondies à ce sujet.

De plus, l'article le plus récent dans cette revue a été publié en 2023, on vient donc à espérer que les recherches sur ce test ne sont peut-être pas abouties.

Compte tenu de l'augmentation constante de l'espérance de vie à la naissance ainsi que de la qualité de vie des patients atteints de mucoviscidose, il serait intéressant que de nouvelles études soient réalisées à propos de la fiabilité et la validité du MSWT constitué de 25 niveaux.

En effet, avec les années, le MSWT se déroulant selon 15 niveaux risque de devenir trop facile pour cette population, ainsi l'ajout de niveaux supplémentaires semble pertinent.

Les limites évoquées dans la partie discussion soulignent que cette revue de littérature manque de données pour confirmer une excellente fiabilité et une excellente validité de ce test. Notamment, le faible échantillon ainsi que la moyenne d'âge observés dans chacune des études incluses ne semblent pas totalement représentatifs.

Néanmoins, ce test reste facile à administrer, ne nécessite pas de formation supplémentaire à celle de masseur-kinésithérapeute et est rapide à réaliser tout en stimulant les patients grâce au signal sonore.

Il serait intéressant d'effectuer des enquêtes auprès des patients atteints de mucoviscidose sur les différents tests de marche qu'ils ont pu rencontrer au cours de leur vie afin d'identifier celui qu'ils trouvent le plus intéressant, divertissant, varié et motivant. Selon Selvadurai, dans un article trouvé sur la base de données PubMed, il existe des preuves que les enfants préfèrent les tests sur le terrain tels que les tests de navette plutôt que les évaluations formelles telles que les tests sur tapis roulant. [40]

De même, les perceptions des masseurs-kinésithérapeutes sur ces différents tests en fonction de leur expérience professionnelle pourraient être recueillies.

Enfin, la rédaction de ce mémoire m'a confortée dans mon choix d'être masseur-kinésithérapeute, en particulier dans le domaine de la kinésithérapie respiratoire, et notamment auprès des enfants.

Mon objectif est de les accompagner tout au long de l'évolution de leur pathologie et d'être présente le plus tôt possible pour les soutenir, ainsi que leurs parents, dans l'acceptation de leur maladie.

6. REFERENCES BIBLIOGRAPHIQUES

- [1] Bellis, G., Lemonnier, L., Sponga, M., Registre, M. S., De, F., & Bilan, L. M. (2013). *Registre Français de la Mucoviscidose. Bilan des données 2013*. www.registredelamuco.org
- [2] Mucoviscidose · Inserm, La science pour la santé. Retrieved November 25, 2023, from <https://www.inserm.fr/dossier/mucoviscidose/>
- [3] Radlović, N. (2012). Cystic Fibrosis. *Srp Arh Celok Lek*, 140(4), 244–249. <https://doi.org/10.2298/SARH1204244R>
- [4] Dickinson, K. M., & Collaco, J. M. *Cystic Fibrosis*. <https://doi.org/10.1542/pir.2019-0212>
- [5] Chamnan, P., Shine, B. S. F., Haworth, C. S., Bilton, D., Adler, A. I. (2010). *Diabetes as a Determinant of Mortality in Cystic Fibrosis*. <https://doi.org/10.2337/dc09-1215>
- [6] Krleža, J. L., Aralica, M., Tješić-Drinković, D., Crneković, K., Culej, J., Juroš, G. F., Horvat, V., Metzner, D., Jaram, D. P., Kitter, A. P., Smaić, F., Vojak, S. Š., Šimičević, L., & Verić, V. (2022). National Guidelines for the Performance of the Sweat Test in Diagnosis of Cystic Fibrosis on behalf of the Croatian Society of Medical Biochemistry and Laboratory Medicine and the Cystic Fibrosis Centre - Paediatrics and adults, University Hospital Centre Zagreb. *Biochemia Medica*, 32(1). <https://doi.org/10.11613/BM.2022.010501>
- [7] *Bilan 2022 du Registre Français de la Mucoviscidose - Filière Muco CFTR - mucoviscidose*. Retrieved November 25, 2023, from <https://muco-cftr.fr/index.php/fr/la-filiere/actualites/322-bilan-2022-du-registre-francais-de-la-mucoviscidose>
- [8] Dépistage de la mucoviscidose et conseil génétique | ameli.fr | Assuré. Retrieved November 26, 2023, from <https://www.ameli.fr/bouches-du-rhone/assure/sante/themes/mucoviscidose/depistage>
- [9] McBennett, K. A., Davis, P. B., & Konstan, M. W. (2022). Increasing life expectancy in cystic fibrosis: Advances and challenges. *Pediatric Pulmonology*, 57(Suppl 1), S5. <https://doi.org/10.1002/PPUL.25733>
- [10] Barrier properties of mucus. *Advanced Drug Delivery Reviews*, 61(2), 75–85. <https://doi.org/10.1016/J.ADDR.2008.09.008>
- [11] Maladie génétique. Retrieved April 25, 2024, from <https://mucoviscidose-25.websself.net/maladie-genetique?mobile=true>
- [12] Donaldson, S. H., & Boucher, R. C. (2006). Physiopathologie de la mucoviscidose. *Annales Nestlé (Ed. Française)*, 64(3), 101–109. <https://doi.org/10.1159/000099043>
- [13] McCarthy, V. A., & Harris, A. (2005). The CFTR gene and regulation of its expression. *Pediatric Pulmonology*, 40(1), 1–8. <https://doi.org/10.1002/PPUL.20199>
- [14] Qu'est-ce que la mucoviscidose ? - Définition et lexique de la maladie. Retrieved December 12, 2023, from <https://mucoviscidose.ludocare.com/2019/06/14/definition-mucoviscidose-lexique/>
- [15] Hubert, D. (2005). Cystic fibrosis. *EMC - Médecine*, 2(1), 34–41. <https://doi.org/10.1016/J.EMCMED.2004.09.004>

- [16] Polverino, E., Goeminne, P. C., McDonnell, M. J., Aliberti, S., Marshall, S. E., Loebinger, M. R., Murriss, M., Cantón, R., Torres, A., Dimakou, K., de Soyza, A., Hill, A. T., Haworth, C. S., Vendrell, M., Ringshausen, F. C., Subotic, D., Wilson, R., Vilaró, J., Stallberg, B., ... Chalmers, J. D. (2017). European Respiratory Society guidelines for the management of adult bronchiectasis. *European Respiratory Journal*, 50(3). <https://doi.org/10.1183/13993003.00629-2017>
- [17] Debray, D., Mas, E., Munck, A., Gérardin, M., & 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. [https://doi.org/10.1016/S0929-693X\(17\)30058-1](https://doi.org/10.1016/S0929-693X(17)30058-1)
- [18] Reproduction – Association Muco. Retrieved December 12, 2023, from <https://www.muco.be/fr/cest-quoi-la-muco/impact-sur-le-corps/reproduction/>
- [19] Protocole National de Diagnostic et de Soins (PNDS) Mucoviscidose Centre de référence Mucoviscidose. (2017).
- [20] Mucoviscidose : causes, symptômes, traitement - Institut Pasteur. Retrieved December 15, 2023, from <https://www.pasteur.fr/fr/centre-medical/fiches-maladies/mucoviscidose>
- [21] Kinésithérapie, Vaincre la Mucoviscidose. Retrieved Decembre 16, 2023, from <https://www.vaincrelamuco.org/vivre-avec/la-mucoviscidose/symptomes-respiratoires/>
- [22] L'encombrement bronchique dû à une hypersécrétion de mucus. Retrieved January 7, 2024, from <https://mucusbronchique.physioassist.com/>
- [23] Reyhler, G., & Fouré, H. Kinésithérapie et mucoviscidose – Physiotherapy and cystic fibrosis. *La Lettre Du Pneumologue* •, 1.
- [24] Giannakoulakos, S., Gioulvanidou, M., Kouidi, E., Peftoulidou, P., Kyrvasili, S. S., Savvidou, P., Deligiannis, A., Tsanakas, J., & Hatziagorou, E. (2022). *Physical Activity and Quality of Life among Patients with Cystic Fibrosis*. <https://doi.org/10.3390/children9111665>
- [25] De Jong, W., van der Schans, C. P., Mannes, G. P. M., van Aalderen, W. M. C., Grevink, R. G., & Koëter, G. H. (1997). Relationship between dyspnoea, pulmonary function and exercise capacity in patients with cystic fibrosis. *Respiratory Medicine*, 91(1), 41–46. [https://doi.org/10.1016/S0954-6111\(97\)90135-9](https://doi.org/10.1016/S0954-6111(97)90135-9)
- [26] Mucha, F. C., Gonçalves Wamosy, R. M., Scalco, J. C., Almeida, A. C. da S., Itaborahy, B. D. H., Cardoso, J., Mayer, A. F., & Santos Schivinski, C. I. (2023). Comparison of the modified shuttle walk test in children with cystic fibrosis and healthy controls. *Physiotherapy Research International : The Journal for Researchers and Clinicians in Physical Therapy*, 29(1). <https://doi.org/10.1002/PRI.2052>
- [27] Del Corral, T., Gómez Sánchez, Á., & López-de-Uralde-Villanueva, I. (2020). Test-retest reliability, minimal detectable change and minimal clinically important differences in modified shuttle walk test in children and adolescents with cystic fibrosis. *Journal of Cystic Fibrosis : Official Journal of the European Cystic Fibrosis Society*, 19(3), 442–448. <https://doi.org/10.1016/J.JCF.2019.10.007>
- [28] Bradley, J., Howard, J., Wallace, E., & Elborn, S. (2000). Reliability, repeatability, and sensitivity of the modified shuttle test in adult cystic fibrosis. *Chest*, 117(6), 1666–1671. <https://doi.org/10.1378/CHEST.117.6.1666>

- [29] Coelho, C. C., Aquino, E. D. S., de Almeida, D. C., Oliveira, G. C., Pinto, R. D. C., Rezende, I. M. O., & Passos, C. (2007). Comparative analysis and reproducibility of the modified shuttle walk test in normal children and in children with cystic fibrosis. *Jornal Brasileiro de Pneumologia : Publicacao Oficial Da Sociedade Brasileira de Pneumologia e Tisiologia*, 33(2), 168–174. <https://doi.org/10.1590/S1806-37132007000200011>
- [30] Urquhart, D. S., & Saynor, Z. L. (2018). Exercise testing in cystic fibrosis: Who and why? *Paediatric Respiratory Reviews*, 27, 28–32. <https://doi.org/10.1016/J.PRRV.2018.01.004>
- [31] Vendrusculo, F. M., Heinzmann-Filho, J. P., Campos, N. E., Gheller, M. F., de Almeida, I. S., & Donadio, M. V. F. (2019). Prediction of peak oxygen uptake using the modified shuttle test in children and adolescents with cystic fibrosis. *Pediatric Pulmonology*, 54(4), 386–392. <https://doi.org/10.1002/PPUL.24237>
- [32] Agarwala, P., & Salzman, S. H. (2020). Six-Minute Walk Test: Clinical Role, Technique, Coding, and Reimbursement. *Chest*, 157(3), 603–611. <https://doi.org/10.1016/J.CHEST.2019.10.014>
- [33] Corda, J., E. Holland, A., Berry, C. du, Westrupp, N., & Cox, N. S. (2023). Validation of the 25 level modified shuttle test in children with cystic fibrosis. *Pediatric Pulmonology*, 58(8), 2240–2248. <https://doi.org/10.1002/PPUL.26452>
- [34] Singh, S. J., Morgan, M. D. L., Scott, S., Walters, D., & Hardman, A. E. (1992). Development of a shuttle walking test of disability in patients with chronic airways obstruction. *Thorax*, 47(12), 1019–1024. <https://doi.org/10.1136/THX.47.12.1019>
- [35] Léger, L. A., Mercier, D., Gadoury, C., & Lambert, J. (1988). The multistage 20 metre shuttle run test for aerobic fitness. *Journal of Sports Sciences*, 6(2), 93–101. <https://doi.org/10.1080/02640418808729800>
- [36] Saglam, M., Vardar-Yagli, N., Savci, S., Inal-Ince, D., Aribas, Z., Bosnak-Guclu, M., Arıkan, H., Calik-Kutukcu, E., & Gunes-Yalcin, E. (2016). Six minute walk test versus incremental shuttle walk test in cystic fibrosis. *Pediatrics International : Official Journal of the Japan Pediatric Society*, 58(9), 887–893. <https://doi.org/10.1111/PED.12919>
- [37] Mokkink, L. B., Terwee, C. B., Patrick, D. L., Alonso, J., Stratford, P. W., Knol, D. L., Bouter, L. M., & de Vet, H. C. W. (2010). The COSMIN study reached international consensus on taxonomy, terminology, and definitions of measurement properties for health-related patient-reported outcomes. *Journal of Clinical Epidemiology*, 63(7), 737–745. <https://doi.org/10.1016/J.JCLINEPI.2010.02.006>
- [38] Kimberlin, C. L., & Winterstein, A. G. (2008). Validity and reliability of measurement instruments used in research. *American Journal of Health-System Pharmacy : AJHP : Official Journal of the American Society of Health-System Pharmacists*, 65(23), 2276–2284. <https://doi.org/10.2146/AJHP070364>
- [39] Andrade Lima, C., Dornelas de Andrade, A., Campos, S. L., Brandão, D. C., Mourato, I. P., & Britto, M. C. A. de. (2018). Six-minute walk test as a determinant of the functional capacity of children and adolescents with cystic fibrosis: A systematic review. *Respiratory Medicine*, 137, 83–88. <https://doi.org/10.1016/J.RMED.2018.02.016>
- [40] Selvadurai, H. C., Cooper, P. J., Meyers, N., Blimkie, C. J., Smith, L., Mellis, C. M., & van Asperen, P. P. (2003). Validation of shuttle tests in children with cystic fibrosis. *Pediatric Pulmonology*, 35(2), 133–138. <https://doi.org/10.1002/PPUL.10197>

- [41] Pallot, A., & Rostagno, S. (2021). QAREL : traduction française de l'échelle de qualité méthodologique pour les études diagnostiques de fiabilité. *Kinésithérapie, La Revue*, 21(235), 8–9. <https://doi.org/10.1016/J.KINE.2019.12.048>
- [42] Rostagno, S., & Pallot, A. (2021). QUADAS-2 : traduction française de l'échelle de qualité méthodologique pour les études diagnostiques de validité. *Kinésithérapie, La Revue*, 21(235), 10–12. <https://doi.org/10.1016/J.KINE.2019.12.049>
- [43] Leite, L. R., Queiroz, K. C. V., da Silva, F. H., Coelho, C. C., Donadio, M. V. F., & Aquino, E. da S. (2021). Clinical use of the modified shuttle test in children with cystic fibrosis: Is one test sufficient? *Pediatric Pulmonology*, 56(6), 1550–1557. <https://doi.org/10.1002/PPUL.25348>
- [44] Bradley, J., Howard, J., Wallace, E., & Elborn, S. (2000). Validity of a modified shuttle test in adult cystic fibrosis. *Thorax*, 54(5), 437–439. <https://doi.org/10.1136/THX.54.5.437>
- [45] Pallot, A., & Rostagno, S. (2019). *ARTICLE IN PRESS AMSTAR-2 : French translation of the methodological quality scale for systematic literature review.* <https://doi.org/10.1016/j.kine.2019.12.050>

7. ANNEXES

Annexe 1 : Mode de transmission de la mucoviscidose

Annexe 2 : Evolution du nombre de patients atteints de mucoviscidose depuis 1992

Annexe 3 : Conséquences de l'hypersécrétion de mucus au niveau des bronches

Annexe 4 : Schéma du test de marche de six minutes

Annexe 5 : Schéma du test de navette modifié

Annexe 6 : Echelle QAREL

Annexe 7 : Echelle QUADAS-2

Annexe 8 : Explication de l'exclusion des articles

Annexe 9 : Echelles QAREL des études incluses

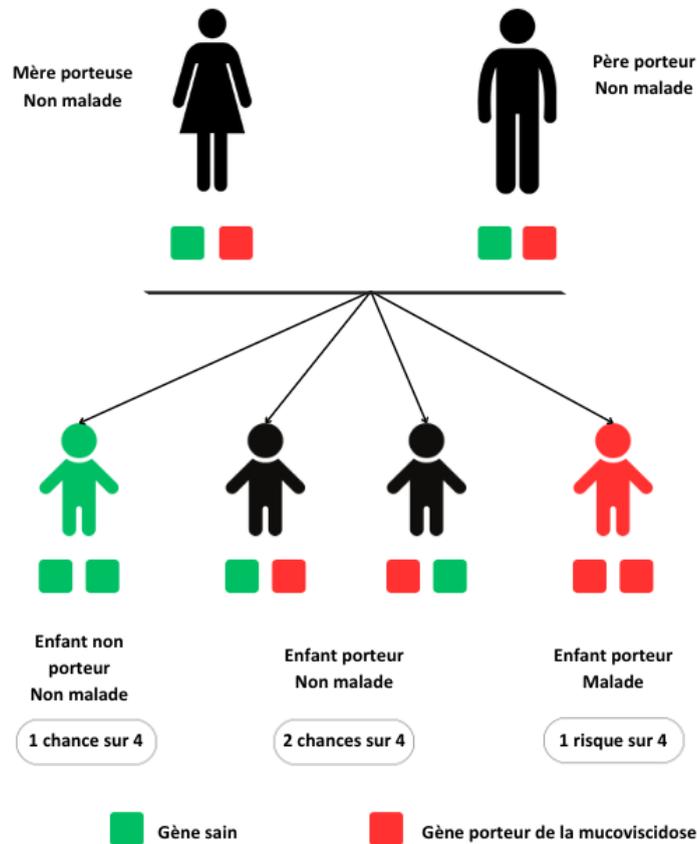
Annexe 10 : Echelles QUADAS-2 des études incluses

Annexe 11 : Diagrammes de Bland-Altman

Annexe 12 : Equations de régression linéaire

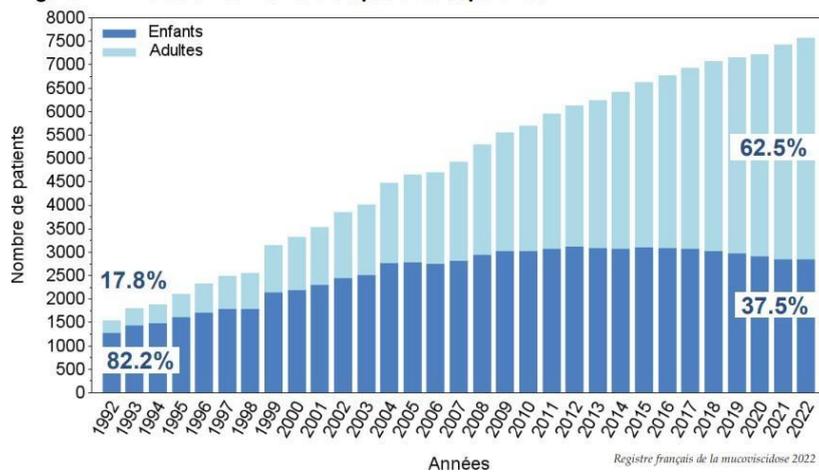
Annexe 13 : Grade de recommandations de l'HAS

Annexe 1 : Mode de transmission de la mucoviscidose

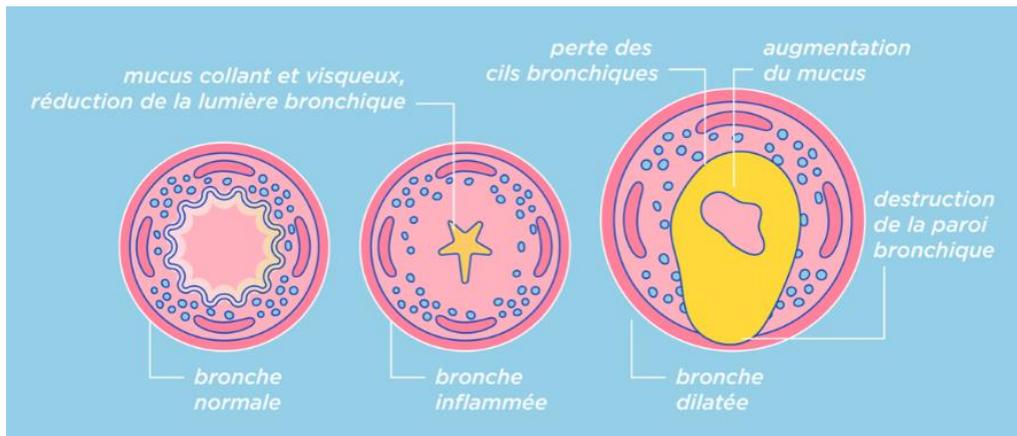


Annexe 2 : Evolution du nombre de patients atteints de mucoviscidose depuis 1992

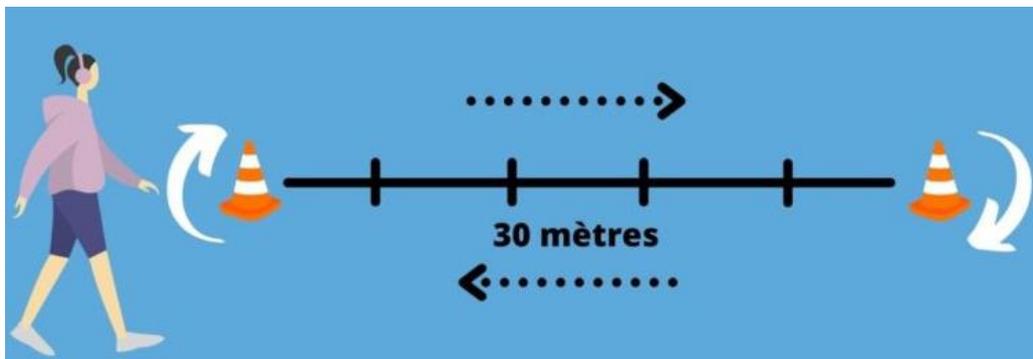
Figure 1.1. Evolution du nombre de patients depuis 1992



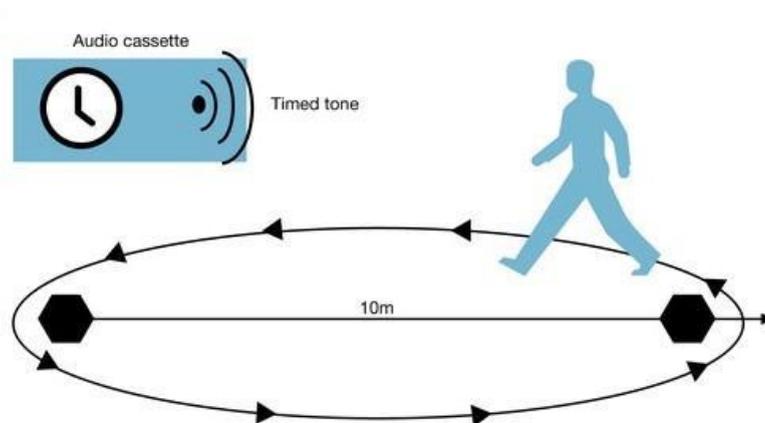
Annexe 3 : Conséquences de l'hypersécrétion de mucus au niveau des bronches



Annexe 4 : Schéma du test de marche de six minutes



Annexe 5 : Schéma du test de navette modifié



Annexe 6 : Echelle QAREL

Quality Assessment of diagnostic Reliability (QAREL)

| Items | oui | non | incertain | NA |
|---|--------------------------|--------------------------|--------------------------|--------------------------|
| 1. Le test a-t-il été évalué avec un échantillon de sujets représentatifs (de la population sur laquelle les auteurs ont l'intention d'appliquer les résultats) ? | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | |
| 2. Le test a-t-il été évalué par des évaluateurs représentatifs (de ceux sur qui les auteurs ont l'intention d'appliquer les résultats) ? | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | |
| 3. Les évaluateurs étaient-ils en aveugle par rapport aux résultats des autres évaluateurs au cours de l'étude ? | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| 4. Les évaluateurs étaient-ils en aveugle par rapport à leur propre résultat évalué précédemment ? | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| 5. Les évaluateurs étaient-ils en aveugle du gold standard de la variable évaluée ? | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| 6. Les évaluateurs étaient-ils en aveugle par rapport à une quelconque information clinique fournie intentionnellement dans la procédure du test ou dans le cadre du protocole de l'étude ? | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| 7. Les évaluateurs étaient-ils en aveugle par rapport à d'éventuels indices qui ne faisaient pas partie du test ? | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | |
| 8. L'ordre d'évaluation a-t-il varié ? | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| 9. L'intervalle de temps entre les mesures répétées était-il compatible avec la stabilité (ou stabilité théorique) de la variable mesurée ? | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | |
| 10. Le test a-t-il été appliqué correctement et interprété de manière appropriée ? | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | |
| 11. Est-ce qu'une mesure statistique de l'accord entre les évaluateurs a été utilisée ? | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | |

Source (traduction libre): Lucas NP, Macaskill P, Irwig I, Bogduk N. The development of a quality appraisal tool for studies of diagnostic reliability. *Journal of Clinical Epidemiology*, 2010; 63: 854-861.

Annexe 7 : Echelle QUADAS-2

QUADAS-2

Phase 1 : Posez la question clinique :

| |
|---|
| Patients (contexte, motif de consultation, tableau clinique, tests précédemment réalisés) : |
| Test(s) évalué(s) : |
| Test de référence et condition cible : |

Phase 2 : Dessinez le diagramme de flux de l'étude primaire

Phase 3 : Risque de biais and jugement sur l'applicabilité
 La QUADAS-2 est organisée en 4 domaines qui sont chacun évalués en terme de risque de biais et d'applicabilité clinique de la question de recherche (telle que définie plus haut). Chaque domaine comprend une série de questions qui permettent de porter un jugement sur le risque de biais et l'applicabilité clinique.

| | |
|---|---|
| DOMAINE 1 : SELECTION DES PATIENTS | |
| A. Risque de biais | |
| Décrivez la méthode de sélection des patients : | |
| ❖ Un échantillon de patients a-t-il été recruté de manière aléatoire ? | Oui/Non/Incertain |
| ❖ Un schéma d'étude type cas-témoin a-t-il été évité ? | Oui/Non/Incertain |
| ❖ L'étude a-t-elle évité des exclusions inappropriées ? | Oui/Non/Incertain |
| La sélection des patients a-t-elle pu introduire un biais ? | RISQUE : FAIBLE/ELEVÉ/INCERTAIN |
| B. Préoccupations sur l'applicabilité | |
| Décrivez les patients inclus (...) : | |
| Il y a-t-il un risque que les patients sélectionnés ne correspondent pas à la question de recherche ? | PREOCCUPATION : FAIBLE/ELEVEE/INCERTAINE |
| DOMAINE 2 : TEST EVALUE | |
| Si plus d'un test est évalué, veuillez répondre à ces questions pour chaque test | |
| A. Risque de biais | |
| Décrivez le test évalué, comment il a été réalisé et interprété : | |
| ❖ Les résultats du test évalué ont-ils été interprétés sans avoir connaissance des résultats du test de référence ? | Oui/Non/Incertain |
| ❖ Si un seuil de décision a été utilisé, a-t-il été spécifié ? | Oui/Non/Incertain |
| La réalisation ou l'interprétation du test a-t-elle pu introduire un biais ? | RISQUE : FAIBLE/ELEVÉ/INCERTAIN |
| B. Préoccupations sur l'applicabilité | |
| Il y a-t-il une préoccupation quant au fait que le test évalué, dans sa réalisation, interprétation, diffère de la question de recherche ? | |
| PREOCCUPATION : FAIBLE/ELEVEE/INCERTAINE | |

Annexe 8 : Explication de l'exclusion des articles

| Première sélection | Deuxième sélection | Troisième sélection | Quatrième sélection |
|---|---|---|---|
| 25 articles exclus car ils ne faisaient pas référence au MSWT | | | 1 exclu car l'intégralité de l'article n'était pas disponible |
| 37 articles exclus car ils ne faisaient pas référence à la mucoviscidose | 5 articles exclus car ils étaient présents à la fois sur PubMed et sur Cochrane | 19 exclus car les patients n'étaient pas stables cliniquement ou utilisaient le mauvais schéma d'études | 2 exclus car ils n'évoquaient pas la fiabilité et la validité |
| 411 exclus car ils ne faisaient pas référence au MSWT et à la mucoviscidose | | | |

Annexe 9 : Echelles QAREL des études incluses

✓ **Article 1 : Del Corral et al.**

5/10

Quality Assessment of diagnostic Reliability (QAREL)

| Items | oui | non | incertain | NA |
|---|-------------------------------------|-------------------------------------|-------------------------------------|-------------------------------------|
| 1. Le test a-t-il été évalué avec un échantillon de sujets représentatifs (de la population sur laquelle les auteurs ont l'intention d'appliquer les résultats) ? | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | |
| 2. Le test a-t-il été évalué par des évaluateurs représentatifs (de ceux sur qui les auteurs ont l'intention d'appliquer les résultats) ? | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | |
| 3. Les évaluateurs étaient-ils en aveugle par rapport aux résultats des autres évaluateurs au cours de l'étude ? | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| 4. Les évaluateurs étaient-ils en aveugle par rapport à leur propre résultat évalué précédemment ? | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| 5. Les évaluateurs étaient-ils en aveugle du gold standard de la variable évaluée ? | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input checked="" type="checkbox"/> |
| 6. Les évaluateurs étaient-ils en aveugle par rapport à une quelconque information clinique fournit intentionnellement dans la procédure du test ou dans le cadre du protocole de l'étude ? | <input type="checkbox"/> | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| 7. Les évaluateurs étaient-ils en aveugle par rapport à d'éventuels indices qui ne faisaient pas partie du test ? | <input type="checkbox"/> | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | |
| 8. L'ordre d'évaluation a-t-il varié ? | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| 9. L'intervalle de temps entre les mesures répétées était-il compatible avec la stabilité (ou stabilité théorique) de la variable mesurée ? | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | |
| 10. Le test a-t-il été appliqué correctement et interprété de manière approprié ? | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | |
| 11. Est-ce qu'une mesure statistique de l'accord entre les évaluateurs a été utilisée ? | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | |

Source (traduction libre): Lucas NP, Macaskill P, Irwig I, Bogduk N. The development of a quality appraisal tool for studies of diagnostic reliability. *Journal of Clinical Epidemiology*, 2010; 63: 854-861.

Quality Assessment of diagnostic Reliability (QAREL)

| Items | oui | non | incertain | NA |
|---|-------------------------------------|-------------------------------------|--------------------------|--------------------------|
| 1. Le test a-t-il été évalué avec un échantillon de sujets représentatifs (de la population sur laquelle les auteurs ont l'intention d'appliquer les résultats) ? | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | |
| 2. Le test a-t-il été évalué par des évaluateurs représentatifs (de ceux sur qui les auteurs ont l'intention d'appliquer les résultats) ? | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | |
| 3. Les évaluateurs étaient-ils en aveugle par rapport aux résultats des autres évaluateurs au cours de l'étude ? | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| 4. Les évaluateurs étaient-ils en aveugle par rapport à leur propre résultat évalué précédemment ? | <input type="checkbox"/> | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| 5. Les évaluateurs étaient-ils en aveugle du gold standard de la variable évaluée ? | <input type="checkbox"/> | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| 6. Les évaluateurs étaient-ils en aveugle par rapport à une quelconque information clinique fournit intentionnellement dans la procédure du test ou dans le cadre du protocole de l'étude ? | <input type="checkbox"/> | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| 7. Les évaluateurs étaient-ils en aveugle par rapport à d'éventuels indices qui ne faisaient pas partie du test ? | <input type="checkbox"/> | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | |
| 8. L'ordre d'évaluation a-t-il varié ? | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| 9. L'intervalle de temps entre les mesures répétées était-il compatible avec la stabilité (ou stabilité théorique) de la variable mesurée ? | <input type="checkbox"/> | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | |
| 10. Le test a-t-il été appliqué correctement et interprété de manière approprié ? | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | |
| 11. Est-ce qu'une mesure statistique de l'accord entre les évaluateurs a été utilisée ? | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | |

Source (traduction libre): Lucas NP, Macaskill P, Irwig I, Bogduk N. The development of a quality appraisal tool for studies of diagnostic reliability. *Journal of Clinical Epidemiology*, 2010; 63: 854-861.

✓ **Article 3 : Leite et al.**

4/10

Quality Assessment of diagnostic Reliability (QAREL)

| Items | oui | non | incertain | NA |
|---|-------------------------------------|-------------------------------------|-------------------------------------|-------------------------------------|
| 1. Le test a-t-il été évalué avec un échantillon de sujets représentatifs (de la population sur laquelle les auteurs ont l'intention d'appliquer les résultats) ? | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | |
| 2. Le test a-t-il été évalué par des évaluateurs représentatifs (de ceux sur qui les auteurs ont l'intention d'appliquer les résultats) ? | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | |
| 3. Les évaluateurs étaient-ils en aveugle par rapport aux résultats des autres évaluateurs au cours de l'étude ? | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| 4. Les évaluateurs étaient-ils en aveugle par rapport à leur propre résultat évalué précédemment ? | <input type="checkbox"/> | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| 5. Les évaluateurs étaient-ils en aveugle du gold standard de la variable évaluée ? | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input checked="" type="checkbox"/> |
| 6. Les évaluateurs étaient-ils en aveugle par rapport à une quelconque information clinique fournie intentionnellement dans la procédure du test ou dans le cadre du protocole de l'étude ? | <input type="checkbox"/> | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| 7. Les évaluateurs étaient-ils en aveugle par rapport à d'éventuels indices qui ne faisaient pas partie du test ? | <input type="checkbox"/> | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | |
| 8. L'ordre d'évaluation a-t-il varié ? | <input type="checkbox"/> | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| 9. L'intervalle de temps entre les mesures répétées était-il compatible avec la stabilité (ou stabilité théorique) de la variable mesurée ? | <input type="checkbox"/> | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | |
| 10. Le test a-t-il été appliqué correctement et interprété de manière appropriée ? | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | |
| 11. Est-ce qu'une mesure statistique de l'accord entre les évaluateurs a été utilisée ? | <input checked="" type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | |

Source (traduction libre): Lucas NP, Macaskill P, Irwig I, Bogduk N. The development of a quality appraisal tool for studies of diagnostic reliability. *Journal of Clinical Epidemiology*, 2010; 63: 854-861.

Annexe 10 : Echelles QUADAS-2 des études incluses

- ✓ **Article n°2 : Corda et al.**

<file:///C:/Users/ddroc/Downloads/QUADAS-2%20Bradley%20et%20al..pdf>

- ✓ **Article n°4 : Vendrusculo et al.**

<file:///C:/Users/ddroc/Downloads/QUADAS-2%20Corda%20et%20al..pdf>

- ✓ **Article n°5 : Bradley et al.**

<file:///C:/Users/ddroc/Downloads/QUADAS-2%20Vendrusculo%20et%20al..pdf>

Annexe 11 : Diagrammes de Bland-Altman

- ✓ **Figure n°1 de l'article Del Corral et al.**

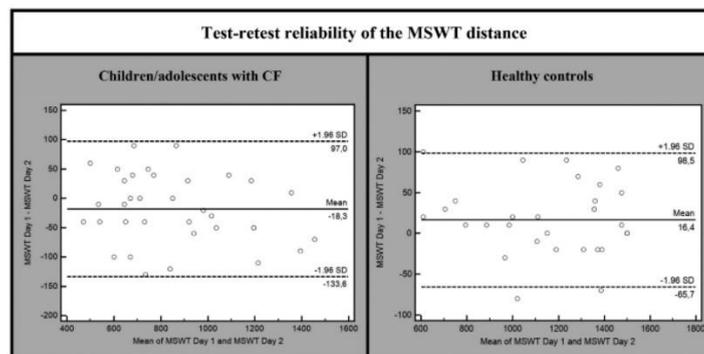


Fig. 1. Bland-Altman plots for the test-retest reliability of the MSWT distance as reported in meters. The mean difference is indicated by the solid horizontal line and the limits of agreement are demarcated by the dashed horizontal lines.

- ✓ **Figure n°3 de Corda et al.**

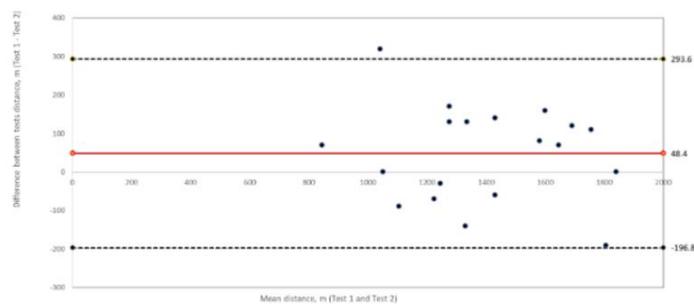
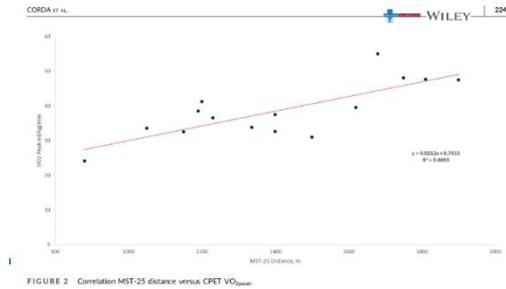


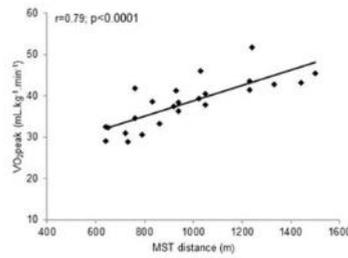
FIGURE 3 Bland Altman distance MST-25 between test 1 and 2.

Annexe 12 : Equations de régression linéaire

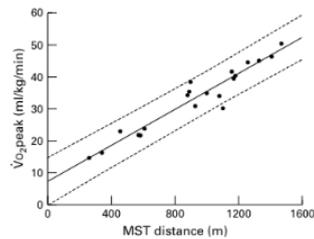
✓ Article n°2 : Corda et al.



✓ Article n°4 : Vendrusculo et al.



✓ Article n°5 : Bradley et al.



Annexe 13 : Grade de recommandations de l'HAS

| Grade des recommandations | Niveau de preuve scientifique fourni par la littérature |
|---|--|
| A Preuve scientifique établie | Niveau 1 - essais comparatifs randomisés de forte puissance ; - méta-analyse d'essais comparatifs randomisés ; - analyse de décision fondée sur des études bien menées. |
| B Présomption scientifique | Niveau 2 - essais comparatifs randomisés de faible puissance ; - études comparatives non randomisées bien menées ; - études de cohortes. |
| C Faible niveau de preuve scientifique | Niveau 3 - études cas-témoins. |
| | Niveau 4 - études comparatives comportant des biais importants ; - études rétrospectives ; - séries de cas ; - études épidémiologiques descriptives (transversale, longitudinale). |

Titre (en Français) : Fiabilité et validité du Modified Shuttle Walk Test lors de l'évaluation de la tolérance à l'effort chez les patients atteints de mucoviscidose : une revue de littérature.

Titre (en anglais) : Reliability and validity of the Modified Shuttle Walk Test when assessing exercise tolerance in patients with cystic fibrosis : a literature review.

Nombre de pages (avec les annexes) : 72 pages.

Directeur du Mémoire : Mr Herbet Antoine

Résumé (en français) (en minuscule) : Introduction : La mucoviscidose est une pathologie génétique dite autosomique récessive multisystémique touchant principalement les voies respiratoires et le système digestif. Il s'agit d'une des maladies génétiques les plus courantes. Au fil des années, l'espérance de vie à la naissance a considérablement augmenté grâce à l'amélioration des soins et à l'évolution de la santé. Chez les patients atteints de FK, la tolérance à l'effort permettrait de limiter la dégradation de la fonction respiratoire. Afin d'évaluer cette dernière, de nombreux tests de marche sont utilisés, dont la référence est le test d'effort cardio-pulmonaire (CPET). D'autres tests évaluent aussi la tolérance à l'effort, notamment le Modified Shuttle Walk Test. Objectif : L'objectif de notre étude était de réaliser une revue de littérature afin d'évaluer les propriétés métrologiques, notamment la fiabilité et la validité, du MSWT pour voir s'il peut être une bonne alternative au CPET. Méthode : Pour cela, les bases de données Cochrane, PubMed, DiTA ont été exploitées. Les études incluses ont été publiées entre 2000 et 2023 et elles abordent la fiabilité, la validité, ou les deux à la fois. Les risques de biais de ces études ont été évalués avec l'échelle QAREL pour la fiabilité et l'échelle de QUADAS-2 pour la validité. Résultats : Pour la fiabilité, des coefficients de corrélation intraclasse (ICC) élevés sont retrouvés. Pour la validité, on retrouve une bonne corrélation au niveau des coefficients de Pearson et de Spearman. Les échelles QAREL et QUADAS-2 ont évalué des biais modérés à propos de nos études. Discussion : Le MSWT possède une fiabilité et une validité satisfaisante. Il semble être une bonne alternative au gold standard. Cependant, les scores obtenus au niveau des échelles de biais ne sont pas suffisamment élevés, notamment au niveau de la mise en aveugle des participants et des examinateurs. Des recherches supplémentaires peuvent être effectuées avec un échantillon de population plus important pour que les résultats soient plus significatifs.

Résumé (en anglais) (en minuscule) : Introduction : Cystic fibrosis is a multisystem autosomal recessive genetic condition primarily affecting the respiratory and digestive systems. It is one of the most common genetic diseases. Over the years, life expectancy at birth has significantly increased thanks to improvements in care and advancements in health. For these patients, maintaining exercise tolerance can help prevent deterioration of their respiratory function. There is a gold standard for assessing this exercise tolerance, which is the cardio-pulmonary exercise test (CPET). Other tests also evaluate exercise tolerance, such as the Modified Shuttle Walk Test (MSWT). Objective : The objective of this study was to conduct a literature review to evaluate the metrological properties, particularly reliability and the validity of the MSWT on the cystic fibrosis population in order to see if it can be a good alternative to CPET. Method : The Cochrane, PubMed, and DiTA databases were accessed. The included studies were published between 2000 et 2023 and addressed reliability, validity or both. The risks of bias of these studies were evaluated using the QAREL scale for reliability and the QUADAS-2 scale for validity. Results : For reliability, high intraclass correlation coefficients are found. For validity, we find a good correlation at the level of the Pearson and Spearman coefficients. The QAREL and QUADAS-2 scales assessed moderate bias in our studies. Discussion : The MSWT demonstrates reliability and validity. It appears to be a good alternative to the gold standard. However, the risk of bias is significant, particularly in terms of blinding participants and examiners. Further research may be conducted, especially with a larger sample population, so that the results are more meaningful.

Mots clés (en français) (en minuscule) : mucoviscidose, modified shuttle walk test, fiabilité, validité, activité physique, tolérance à l'effort, propriétés métrologiques.

Mots clés (en anglais) (en minuscule) : cystic fibrosis, modified shuttle walk test, reliability, validity, physical activity, exercise tolerance, metrological properties.