

II. Synthèse publiable du rapport final

Evaluation de la qualité de vie, de l'insertion et de la participation sociale d'une cohorte d'enfants victimes de traumatisme crânien sévère suivie prospectivement à 7 ans de l'accident

Mathilde Chevignard^{1,2,3}, **Leila Francillette**¹, **Laurence Watier**^{4,5,6}, **Marion Opatowski**^{4,5}, **Hugo Camarâ-Costa**^{1,7}, **Dominique Brugel**², **Hanna Toure**², **Anne Laurent-Vannier**², **Agata Krasny-Pacini**^{1,8}, **Eleonore Bayen**^{9,10}, **Virginie Dardier**¹¹, **Jean-Jacques Weiss**¹², **Maria De Agostini**⁷, **Mathilde Toussaint-Thorin**¹³, **Philippe Meyer**¹⁴, **Pascale Pradat-Diehl**^{1,9}

1. Sorbonne Université, Laboratoire d'Imagerie Biomédicale, LIB, 75006 Paris ; 2. Hôpitaux de Saint Maurice; Saint Maurice ; 3. Groupe de Recherche Clinique Handicap Cognitif et Réadaptation – Sorbonne Université ; 4. Inserm UMR 1181 (B2PHI), F-75015 Paris ; 5. Institut Pasteur, UMR 1181, B2PHI, F-75015 Paris ; 6. Univ. Versailles St Quentin, UMR 1181, B2PHI, F-78180 Montigny le Bretonneux ; 7. INSERM CESP Villejuif ; 8. Institut Universitaire Clémenceau, Strasbourg ; 9. Service de MPR, Groupe Hospitalier Pitié-Salpêtrière, Paris ; 10. LEDa-LEGOS, Université Paris Dauphine ; 11. Université Rennes 2 ; 12. ARTC-IDF ; 13. CHU de Reims ; Université de Reims – Champagne-Ardennes ; 14. Service d'anesthésie-réanimation, Hôpital Necker Enfants Malades, 75007 Paris ; Université Paris 5.

Contexte et objectifs du projet :

Le traumatisme crânien (TC) sévère, défini par un score à l'échelle de coma de Glasgow inférieur ou égal à 8, est relativement rare. Il occasionne des lésions cérébrales diffuses, à l'origine de séquelles variées, sévères et durables, dont les conséquences sont graves, d'autant plus que l'espérance de vie après la phase aiguë est normale. Les déficiences sont multiples et souvent associées entre elles : épilepsie, déficiences sensori-motrices, et surtout déficits cognitifs, comportementaux et psychologiques. Ces troubles sont associés à un rythme d'apprentissage plus lent que le rythme attendu. Le parcours scolaire et social des enfants victimes de TC sévère a donc tendance, à long terme, à s'éloigner de celui des enfants de leur tranche d'âge, les enfants présentant des déficits de plus en plus sévères (en comparaison avec leurs pairs et avec les exigences environnementales, notamment scolaires), ce d'autant plus que le TC était sévère et précoce. Les conséquences en termes de limitation d'activité, de restriction de participation sociale et de qualité de vie à long terme sont majeures, mais encore insuffisamment connues. Notre équipe avait participé à la réalisation d'une étude prospective longitudinale visant à évaluer la mortalité et la morbidité du TC sévère de l'enfant (**étude Traumatisme Grave de l'Enfant, TGE**, investigateur principal Philippe Meyer, Service de Réanimation Neurochirurgicale de l'Hôpital Necker Enfants Malades). Un total de 81 enfants avaient pu être inclus en 3 ans. Il s'agit d'une cohorte exceptionnelle par la rigueur de l'inclusion à la phase aiguë, par le nombre d'enfants TC sévères et par l'âge varié à l'inclusion (0 à 15 ans). Ces patients ont été évalués à la phase initiale, à 3 et 6 mois puis à 1 et 2 ans du TC, avec un suivi quasiment exhaustif à 2 ans (62 patients sur les 65 survivants).

L'objectif principal de cette étude était donc de réaliser le suivi à 7 ans des 65 enfants survivants afin d'étudier leur devenir en termes de participation sociale, de scolarité, d'insertion sociale et/ou professionnelle, de qualité de vie et de retentissement sur la vie familiale, en comparaison à un groupe de sujets témoins appariés, afin d'étudier quels facteurs influencent ce devenir (facteurs démographiques, liés à la sévérité du TC et aux conséquences du TC en termes de troubles moteurs, cognitifs et comportementaux, et facteurs environnementaux).

Les objectifs secondaires étaient d'étudier les déficits séquellaires de ces enfants et jeunes adultes à distance de leur TC sévère, afin d'évaluer l'évolution longitudinale des déficiences neurologiques, cognitives et comportementales dans le temps.

Méthodologie employée :

Concernant les patients inclus dans la cohorte TGE (n=65 survivants), nous avons fait tout notre possible pour les localiser et leur proposer de participer à cette étude de suivi à distance. Etant donné les objectifs de l'étude, un groupe contrôle de sujets appariés pour l'âge, le sexe et le niveau socio-économique, estimé par le niveau d'études des parents, a également été recruté, pour toutes les évaluations réalisées par questionnaire et interview, ainsi que pour certains des tests expérimentaux ou ne disposant pas de normes suffisantes. Les sujets contrôles n'ont pas rencontré le médecin ni eu d'examen neurologique.

Les patients ont été vus par une psychologue spécialisée en neuropsychologie et par un médecin de médecine physique et de réadaptation pour les évaluations, comportant un examen neurologique et un entretien évaluant les traitements et soins passés et en cours, le déroulement de la scolarité, l'insertion sociale et professionnelle, permettant de remplir des échelles évaluant le niveau de handicap global (Glasgow Outcome Scale Extended, pediatric version ; GOS-E Peds) et le niveau d'aide nécessaire et de supervision au quotidien (Care and Need Scale ; CANS, et Pediatric CANS).

Les patients et leurs parents (selon l'âge) ont rempli des auto- et/ou hétéro-questionnaires standardisés évaluant la participation sociale (Child and Adolescent Scale of Participation ; CASP), la qualité de vie (échelle générique et échelle multidimensionnelle de fatigue du PedsQL), le comportement et le fonctionnement exécutif dans la vie quotidienne (Child Behavior Checklist ; CBCL et Behavior Rating Inventory of Executive Functions ; BRIEF, respectivement).

Ils ont également réalisé un bilan neuropsychologique complet évaluant l'efficacité intellectuelle (à l'aide des échelles de Wechsler adaptées à leur âge), et des domaines fondamentaux, réputés être altérés dans le cadre du « handicap invisible » très fréquent après TC de l'enfant : la mémoire (batteries adaptées à l'âge, CMS – Echelle de Mémoire pour Enfants et Echelle Clinique de Mémoire– MEM IV), l'attention et les fonctions exécutives [test des Six Parties pour les patients de moins de 16 ans, Test des commissions pour les patients de 16 ans et plus, et trois subtests du Test of Attentional Performance (TAP), une batterie informatisée évaluant l'attention et les fonctions exécutives : Attention divisée, flexibilité et inhibition], ainsi que la cognition sociale (reconnaissance d'émotions faciales et subtest Théorie de l'Esprit de la batterie NEPSY II).

Des tâches expérimentales de mémoire prospective et une évaluation novatrice des aspects pragmatiques du langage (compréhension, narration) et de la compréhension implicite des actes de langage ont également été spécifiquement développées dans le cadre de cette étude, pour évaluer ces domaines très importants au quotidien, fréquemment perturbés et faisant l'objet de plaintes des patients et de leurs familles, et contribuant largement au manque d'autonomie et à aux difficultés d'insertion et de relations sociales de ces patients.

Enfin, la qualité de vie et le « fardeau » des aidants a été évalué.

Nous avons, parallèlement à la l'élaboration de l'étude, réalisé un travail préparatoire de traduction et de validation française de certaines échelles (BRIEF, CANS, P-CANS, CASP, GOS-E Peds).

Synthèse des principaux résultats obtenus :

A un délai moyen de 7,6 ans (DS=1,5) de leur TC sévère, 39 des 65 survivants inclus dans la cohorte TGE (66% de garçons), ont accepté de participer à l'étude (60%).

Un tiers du groupe était adulte (≥ 18 ans) et au moins un des parents avait son Bac dans 36% des cas.

L'âge moyen de survenue du TC était de 7,6 ans (DS=4,72), l'âge moyen au moment de l'évaluation était de 15,3 ans (DS=4,46, 7,2-22,2).

Le score de coma de Glasgow initial médian était de 6 et la durée moyenne du coma de 6 jours (DS=4,8). Aucune différence significative n'a été mise en évidence entre les répondants et les non-répondants concernant l'ensemble des données démographiques, de sévérité initiale du TC (y compris les complications), l'efficacité intellectuelle mesurée à 3, 12 et 24 mois. Nous avons pu recruter 38 sujets contrôles appariés de manière individuelle à chaque patient.

Sur le plan médical et neurologique, 5 patients (14%) avaient toujours une hémiparésie, et 5 (14%) avaient un syndrome cérébelleux. Un patient avait une paraplégie traumatique associée à son TC sévère. Deux se déplaçaient en fauteuil roulant (dont le patient paraplégique).

Trois patients (9%) avaient des déficits hormonaux nécessitant un traitement substitutif et 4 (12%) prenaient un traitement anti-épileptique pour une épilepsie post-traumatique (dont une épilepsie pharmaco-résistante qui a nécessité par la suite une chirurgie de l'épilepsie).

Le niveau de soins toujours en cours à distance était élevé (35,3% orthophonie, 26,4% ergothérapie, 17,6% kinésithérapie, 36,1% suivi psychologique et/ou psychiatrique).

Le niveau global de handicap évalué par le GOS-E Peds était le suivant : Bonne récupération niveau supérieur (10%) ; niveau inférieur (44%) ; handicap modéré niveau supérieur (15%), niveau inférieur (10%) ; handicap sévère niveau supérieur (13%), niveau inférieur (8%).

Concernant l'évaluation neuropsychologique, l'efficacité intellectuelle était très hétérogène, mais se situait en moyenne une déviation standard en deçà des valeurs attendues et différait significativement de celle des sujets contrôles (86.4; DS=18 versus 97.2; DS =11.2 ; p=0.016).

De plus, les analyses multivariées ont montré qu'elle était principalement influencée par le niveau d'études parental (p=0,031), avec un effet marginal de la durée du coma (reflétant la sévérité du TC ; p=0,079), sans effet de l'âge de survenue ou de l'existence d'épisodes initiaux d'hypertension intra-crânienne ou d'hypo-perfusion cérébrale, indiquant que l'environnement familial semble avoir un rôle majeur dans la récupération après un TC survenu dans l'enfance (ce qui est régulièrement montré dans les études de la littérature).

Concernant les autres fonctions neuropsychologiques, les patients présentaient des déficits significatifs dans les domaines de la mémoire (avec un indice de mémoire générale se situant un peu plus d'une déviation standard en-deçà des valeurs attendues, et tout à fait superposable à celui qui avait été obtenu à l'évaluation de la mémoire réalisée avec la même échelle à 3 mois du TC. Les progrès observés à 1 et 2 ans du TC avaient donc totalement régressé (et nous pensons qu'ils étaient au moins en partie liés à l'effet test-retest).

Les patients présentaient également des troubles significatifs relativement sévères de l'attention et des fonctions exécutives (et pour ce dernier domaine, les difficultés étaient nettes tant dans les tests dits « classiques », que dans le questionnaire BRIEF, évaluant le fonctionnement exécutif au quotidien).

Les analyses concernant les tâches expérimentales écologiques de mémoire prospective (une plainte fréquente des patients au quotidien) ont été finalisées et ont conduit à une publication (Krasny-Pacini et al. 2016). Les patients avaient des difficultés de mémoire prospective comparativement aux contrôles dans deux des trois tâches, mais pas dans la tâche très motivante.

Concernant la pragmatique du langage et la communication, les données sont encore en cours d'analyse (Virginie Dardier). Les données recueillies auprès de 18 patients et leurs contrôles appariés soulignent les difficultés des patients à comprendre les énoncés indirects (demandes et sarcasmes). Ils ont notamment des difficultés à prendre en compte les indices contextuels (pour les demandes) et à analyser les indices prosodiques (pour les sarcasmes). De plus, les patients

présentent plus de difficultés à fournir des connaissances métapragmatiques adaptées (ils produisent moins de justifications centrales pour les deux types d'énoncés étudiés).

Enfin, **les difficultés comportementales et/ou exécutives au quotidien** (*BRIEF* et *CBCL*) étaient très fréquentes, avec des troubles très significatifs dans ces domaines par rapport aux sujets contrôles.

Concernant la scolarité, la qualité de vie et la participation sociale, seuls 62% (79% si l'on prenait en compte ceux qui avaient été orientés en EREA et avaient obtenu un CAP) des patients suivaient un cursus d'éducation ordinaire (contre 100% des contrôles).

Dans l'ensemble, l'auto-évaluation de la qualité de vie était moins bonne chez les patients que chez les sujets contrôles (Scores PedsQL 71,1 ; versus 83,9 ; $p=0.0026$). Peu de facteurs contribuaient à la qualité de vie de manière significative (niveau de dépendance mesuré par le CANS ou le P-CANS et niveau global de handicap pour l'hétéro-évaluation, et fonctionnement familial pour l'auto-évaluation). Des analyses sont toujours en cours à ce sujet.

Les scores de l'échelle multidimensionnelle de fatigue étaient également significativement plus faibles chez les patients que chez les sujets contrôles, tant pour l'auto-évaluation (scores 61,1, versus 77,4; $p=0.0005$), que pour l'hétéro-évaluation par les parents (scores 67,8 ; versus 87,6 ; $p=0.0036$). Les scores les plus faibles étaient retrouvés pour les niveaux de fatigue cognitive, et ce encore plus dans l'auto- que dans l'hétéro-évaluation (patient 53,7 versus 78,5; $p=0.0003$; parent 64,4 versus 87,5; $p=0.0005$), montrant de bonnes capacités d'auto-évaluation pour les patients dans ce domaine représentant une gêne importante au quotidien, persistant à long terme. Peu de facteurs étaient significativement liés à la fatigue, principalement liés à la sévérité du TC, ainsi qu'à un âge plus élevé au moment du TC. Des analyses sont toujours en cours à ce sujet.

L'évaluation de la participation sociale était relativement bonne, mais significativement plus faible que celle des contrôles, surtout dans l'hétéro-évaluation par les parents (scores CASP 86,4 versus 96,3 ; $p=0,0002$). Les domaines les plus altérés étaient les activités dans la communauté et les activités élaborées à l'extérieur, tandis que les routines quotidiennes et la participation scolaire semblaient moins altérées. Les facteurs influençant significativement la participation étaient principalement le fait d'être en institution et d'avoir un syndrome cérébelleux persistant (des facteurs liés à la sévérité des séquelles, et concernant un faible nombre de sujets). Des analyses sont toujours en cours à ce sujet.

Concernant l'autonomie et l'indépendance dans les activités simples et élaborées de la vie quotidienne, pour les 18 patients de plus de 16 ans, un tiers était indépendant ou nécessitait une aide ponctuelle pour les activités administratives élaborées (niveaux CANS 0 ou 1), contre 100% des sujets contrôles. Quant aux patients <16 ans, la plupart avaient besoin d'un encadrement significativement plus important que chez les contrôles (plus souvent verbal que physique) pour une grande partie des activités de la vie quotidienne.

Les analyses concernant l'évolution longitudinale de certains domaines dans le temps (mémoire, fonctions exécutives) et les analyses plus poussées des prédicteurs de certains domaines (fonctions exécutives, mémoire, participation sociale, qualité de vie, autonomie, niveau d'aide requis au quotidien, fatigue et notamment fatigue cognitive) sont en cours.

Concernant les aidants : l'état de santé déclaré (SF12) des parents était moins bon pour les parents-aidants que pour les parents-contrôles, en particulier dans la composante Santé Mentale Déclarée. Les corrélations entre les sous-scores de l'état de santé déclaré et le fardeau subjectif de l'aidant (Zarit) et fardeau objectif (p CANS/ CANS) sont en cours.

Enfin, 54% des aidants déclaraient un fardeau léger ($n=20$) et 24% un fardeau modéré ($n=9$), 22% un fardeau sévère ($n=8$). Les études de corrélations /facteurs prédictifs d'un niveau de fardeau subjectif élevé et les déficiences de l'enfant/jeune adulte sont en cours (Dr Eleonore Bayen).

Discussion et conclusion : Nous avons pu évaluer 60% des patients inclus dans la cohorte TGE à 7-8 ans de leur TC en comparaison avec un groupe de sujets contrôles appariés. Les résultats doivent encore être affinés, surtout concernant certaines analyses de régression et les analyses

longitudinales pour certaines fonctions. Ils montrent néanmoins d'ores et déjà la persistance d'un niveau de handicap et de dépendance relativement élevé à distance, et de plaintes encore importantes et invalidantes (au niveau exécutif, mnésique, comportemental, de la fatigue et de la qualité de vie), même si l'auto-évaluation de la participation sociale est un domaine qui semble relativement préservé par rapport aux autres.

Certains patients en âge de le faire ne sont pas parvenus à obtenir et à garder un emploi stable et ne sont pas capables de vivre seuls (ils sont encore jeunes), surtout du fait de la gestion des démarches administratives, de l'argent, et des activités les plus élaborées de la vie quotidienne. Leurs difficultés sont actuellement un frein à une vie autonome et indépendante.

Ces patients relèvent d'un accompagnement et d'un suivi à très long terme, au moins jusqu'au relais enfant-adulte, qui doit être bien anticipé du fait de leurs particularités par rapport aux patients victimes d'un TC à l'âge adulte. Ce suivi devrait être systématiquement proposé. Malheureusement ce n'est pas toujours le cas car les consultations de SSR ne sont pas (ou mal) financées et de nombreux centres de rééducation n'ont pas les moyens de proposer de tels suivis, complexes et très chronophages à long terme.

Cette étude a confirmé l'influence majeure des caractéristiques de l'environnement (mesurée par le niveau d'études des parents, mais aussi par d'autres marqueurs de composition familiale et de fonctionnement familial, dont l'influence doit encore être analysée en détail). Il est probable que les patients issus des milieux les moins favorisés devraient être suivis de manière plus rapprochée et qu'il faudrait plus facilement mettre en œuvre pour eux certains dispositifs (tels que des services de soins à domicile par exemple s'ils ont d'importants besoins en termes de rééducation et d'accompagnement spécialisé).

Une poursuite du suivi de cette cohorte plus à distance serait à envisager.