



**Appel à projets de recherche  
en Sciences humaines et sociales  
dans le contexte des maladies rares**

Rapport final

**Farge – SHS3**

Ce document a pour objectif de restituer les travaux de recherche menés et leurs résultats, conformément à l'article 5 de la convention de subvention de recherche.

Ce rapport final pourra être mis en ligne par la Fondation Maladies Rares, sur un site accessible au public, à des fins de communication.

**Identification du Projet**

Titre du projet	Mise en place d'une e-plateforme collaborative pour identifier et caractériser les handicaps des patients atteints de maladies auto-immunes rares relevant de la thérapie cellulaire ou de biothérapies
NOM	Farge
Prénom	Dominique
Laboratoire	UMRS 1160
Adresse mail	dominique.farge-bancel@aphp.fr
N° convention	N°FONDATION_SHS3_20150603 N°AP-HP_HAO 15021_NI 15013_VAL 2015-466-1
Aide accordée	62 900 €
Organisme bénéficiaire	AP-HP
Date de signature	07/07/2016
Durée de la convention	24 mois

## Résumé des résultats de la recherche

L'analyse des récits et témoignages des co-chercheurs atteints de sclérodémie ou de lupus a permis de mettre en évidence les éléments suivants :

1- L'ensemble des récits des co-chercheurs fait état d'une forme d'errance diagnostique et thérapeutique qui va de quelques semaines à plusieurs années. La difficulté ainsi éprouvée à trouver rapidement les compétences et les traitements médicaux adaptés entraîne des préjudices sur différents plans : au niveau médical, la maladie continue à progresser ; au niveau psychique, l'incertitude dans laquelle se trouvent les patients est génératrice d'angoisse ; en termes de qualité de vie et de rapports sociaux, les différents symptômes sont physiquement incapacitants et sont susceptibles de provoquer dans l'entourage personnel comme dans le milieu professionnel des réactions nuisant à l'estime de soi.

**Préconisations** : poursuivre les efforts de diffusion des informations auprès des acteurs concernés (personnels soignants, organismes sociaux et de santé) qui permettraient un diagnostic et une prise en charge plus rapides ainsi qu'une meilleure appréciation des contraintes et empêchements liés à ces maladies.

2- Le diagnostic de la maladie et sa prise en charge dans un Centre de Référence Maladies Rares marquent une sortie de l'errance thérapeutique et la possibilité pour les co-chercheurs de se mobiliser positivement face à la maladie. À ce stade, ils se disent bien informés, en confiance, bénéficiant le plus souvent d'une prise en charge (à l'hôpital Saint-Louis pour les patients atteints de sclérodémie) qui les aide à affronter les difficultés.

3- La période de la greffe, tant dans sa préparation que dans sa mise en œuvre et ses suites à court ou moyen terme, est un moment crucial pour les co-chercheurs. Elle cristallise les espoirs et les attentes quant à une évolution positive du cours de la maladie et au retour à une meilleure qualité de vie. Par ailleurs, au-delà des contraintes imposées par le soin, cette période peut être vécue comme particulièrement difficile en raison de la durée d'hospitalisation qu'impose l'opération et de l'isolement qu'elle provoque par rapport à l'entourage familial lorsque le domicile des patients est éloigné de l'hôpital. D'où le besoin d'ouverture sur l'extérieur, de contacts et de relations dont font état nombre d'entre eux.

**Préconisations** : envisager et mettre en place des actions pour rompre l'isolement des patients : soutien aux proches, notamment pour permettre leur présence soutenue et régulière, en les aidant à surmonter les obstacles économiques, professionnelles et personnelles (aides financières, droit du travail, gestion du stress...); mise à disposition des patients de moyens de communication avec l'extérieur (tablettes ?) pendant l'hospitalisation.

4- C'est surtout après la greffe, ou lorsqu'un traitement médical semble ajusté que les co-chercheurs mentionnent une reconfiguration de leur vie qui les amène à s'adapter à leur nouvelle « condition physique » et à rechercher un nouvel équilibre de vie. Ils font état alors d'importantes difficultés à faire reconnaître les contraintes et limitations imposées par la maladie, qu'il s'agisse de l'obtention d'indemnités, d'adaptation de leur poste de travail, de formation, d'adaptation du logement, etc. Ils manquent d'informations, sont confrontés à la lourdeur des démarches administratives à accomplir et quelquefois à la méconnaissance et à l'inertie des organismes sociaux ou des milieux professionnels. Les associations n'ont jamais été mentionnées comme présentes dans cette étape de la vie des co-chercheurs, ce qui laisse supposer un manque d'information sur l'existence de ces associations ou sur le soutien qu'elles peuvent apporter.

**Préconisations** : la présence des associations et une meilleure diffusion de leurs activités contribueraient à améliorer la qualité de vie des patients. Améliorer la communication entre les différents acteurs impliqués : hôpital, administration, associations, personnes malades afin de produire de permettre la

circulation des informations ; envisager la co-construction de support d'information adaptés ; impliquer les patients (formation de « patient-expert ») dans ces actions.

5- Les récits des co-chercheurs font apparaître différentes étapes dans l'expérience vécue de la maladie, qui vont souvent dans le sens d'une accommodation les amenant à « vivre avec » la maladie et à développer des stratégies de « santé-dans-la-maladie ». La difficulté est souvent ressentie d'inscrire la maladie dans un parcours d'existence et de donner du sens à cette expérience, d'autant plus inédite qu'il s'agit de maladies rares. S'appuyant sur la recherche à laquelle ils ont participé et sur la production et le partage de récits auquel elle a donné lieu, de nombreux co-chercheurs expriment le désir, pour eux-mêmes et pour l'ensemble des patients, de pouvoir accéder à des récits d'expérience variés de malades qui pourraient les aider à rompre leur sentiment d'isolement, à mettre en commun leurs difficultés et leurs efforts, à subjectiver leur parcours. Ils font état également de leur souhait de mieux connaître et de partager des pratiques et des exercices (hygiène de vie, alimentation, respiration, méditation, etc.) complémentaires des soins proprement médicaux et permettant d'améliorer les conditions physiques et mentales de la vie au quotidien.

Préconisations : développer des espaces permettant de lire des témoignages et d'échanger sur des forums ; développer les espaces d'éducation thérapeutique.

Si l'on récapitule le sens et les finalités donnés par les co-chercheurs à leur participation à la recherche, on pourra mentionner les points suivants :

- rompre la solitude, l'isolement en partageant le récit de leurs expériences : trouver du même malgré les différences
- renforcer et partager les savoirs, les connaissances sur la maladie vécue de l'intérieur
- échanger des techniques et des pratiques visant à apaiser et à mieux supporter la douleur, à améliorer la qualité de la vie
- renforcer la formation des soignants concernant les maladies auto-immunes de manière à éviter les errances thérapeutiques des malades
- inciter les associations à élargir leurs actions d'information (tant auprès des malades que des organismes sociaux et professionnels) et à développer des activités de soutien et d'aide aux malades
- faire mieux reconnaître socialement et professionnellement les maladies auto-immunes et les empêchements et limitations qu'elles entraînent
- constituer un réseau d'information, de partage et d'échanges, sous la forme de plateformes collaboratives, de forums, etc.

## Synthèse du Projet

### Rappel des objectifs, des méthodes et des modalités d'inclusion

Merci de rappeler ici les objectifs, les méthodes employées et les modalités d'inclusion (critères et nombre), tels que décrits dans le projet de recherche sélectionné (cf. annexe 1 de la convention) – 2 pages

Gestionnaire	Assistance Publique – Hôpitaux de Paris
Titre	Mise en place d'une e-plateforme collaborative pour identifier et caractériser les handicaps des patients atteints de maladies auto-immunes rares relevant de la thérapie cellulaire ou de biothérapies.
Titre abrégé	E-FORM INNOV
Responsable scientifique/Investigateur coordonnateur	Dominique FARGE-BANCEL (PU-PH), Service de Médecine : Maladies Auto-Immunes et Pathologie Vasculaire AP-HP Hôpital Saint Louis 1 avenue Claude Vellefaux, 75010 Paris, Tél : 01-42-49-97-68
Nombre de centres	1
Nombre de sujets prévus	36 (18 patients atteints de Sclérodémie et 18 patients atteints de Lupus)
Population concernée	Patients atteints de sclérodémie systémique (SSc) ou de lupus systémique (LES) traités par thérapie cellulaire ou biothérapie (mais l'étude du traitement ou de toutes données relatives au traitement n'interviennent pas dans cette étude).
Critères de sélection de la population	<ul style="list-style-type: none"> <li>- patient atteint de SSc ou LES ;</li> <li>- patient déjà traité ou en cours de traitement par thérapie cellulaire ou biothérapie ;</li> <li>- patient majeur et motivé par le projet ;</li> <li>- français lu, écrit et parlé ;</li> <li>- consentement libre et éclairé, signé par le patient pour la participation à la plateforme de recherche collaborative ;</li> <li>- patient disposant d'une connexion internet à domicile.</li> </ul>
Objectifs	<p><b>Objectif principal:</b> produire des connaissances spécifiques sur des situations de handicap communes rencontrées au cours de deux MAI rares (SSc et LES) relevant de thérapies innovantes, en incluant les malades dans le processus de production de connaissances comme co-chercheurs, tout en prenant en compte leur expérience réelle vécue au-delà des connaissances médicales existantes afin d'identifier, de caractériser et d'aider les patients à surmonter les handicaps.</p> <p><b>Objectifs secondaires :</b> Démontrer la faisabilité et l'intérêt d'utilisation d'un espace virtuel, partagé et protégé, visant à résoudre les difficultés liées à l'éloignement géographique et les difficultés à se mouvoir, afin de :</p> <ol style="list-style-type: none"> <li>1. mieux comprendre certains aspects du parcours de vie et de soin des malades ;</li> <li>2. apporter à ces malades une opportunité de participer à une recherche reconnaissant leur expertise d'expérience dans la gestion quotidienne de leur maladie et de ses traitements ;</li> <li>3. améliorer la prise en charge et l'éducation thérapeutique par la meilleure compréhension des handicaps invisibles des personnes souffrant d'une MAI rare</li> </ol>

	<p>systemique.</p>
Critères d'évaluation	<p><b>Critère d'évaluation principal :</b> patients SSc et patients LES traités soit par thérapie cellulaire, soit par biothérapie souffrant de handicaps nécessitant des aménagements techniques spécifiques pour accéder à la plateforme (déficit moteur, ulcère des doigts, arthrites).</p> <p><b>Critères d'évaluation secondaires :</b></p> <ul style="list-style-type: none"> <li>- Patients ayant un accès à un ordinateur, à une connexion internet et à un navigateur internet.</li> <li>- Patients interactifs et compliant à la plateforme E-FORM INNOV.</li> <li>- Assiduité des patients mais également des Chercheurs en SHS à la plateforme E-FORM INNOV.</li> </ul>
Méthodologie	<p>La méthodologie de recherche intègre les patients eux-mêmes comme « co-chercheurs », à l'issue d'une formation brève spécifique à la recherche. Elle se distingue des recherches classiques conduites dans le domaine sous une forme observationnelle externe. Il s'agit bien au contraire, par le biais de la création d'une communauté virtuelle de 36 patients répartis sur l'ensemble du territoire et présentant l'une des deux maladies auto-immunes systémiques rares (SSc ou LS), de les inviter à transformer leur savoir expérientiel en connaissances organisées sur ce qu'ils vivent au quotidien, sur les stratégies qu'ils inventent et les solutions qu'ils trouvent pour faire face aux situations complexes de handicap. La personne avec laquelle on s'entretient au décours d'un récit (recherche biographique) est un sujet qui, en racontant son histoire, adopte une posture réflexive, se transforme et se développe tout en choisissant ses propres moyens de communication en fonction de son expérience, et aussi les thèmes illustrant son parcours de vie.</p>
Critères d'inclusion	<ul style="list-style-type: none"> <li>- patient atteint de sclérodermie ou de lupus systémique ;</li> <li>- patient traité par thérapie cellulaire ou biothérapie ;</li> <li>- patient majeur et motivé par le projet ;</li> <li>- patient sachant lire, parler et écrire le français;</li> <li>- consentement libre et éclairé, signé par le patient pour la participation à la plateforme de recherche collaborative qui sera volontaire, à titre bénévole, et durera 18 mois ;</li> <li>- patient disposant d'une connexion internet à domicile.</li> </ul>
Critères d'exclusion	<ul style="list-style-type: none"> <li>- patient non atteint de SSc ou de LES ;</li> <li>- patient non traité par thérapie cellulaire ou biothérapie ;</li> <li>- patient mineur ;</li> <li>- patient ne parlant pas et ne sachant pas lire et/ou écrire le français;</li> <li>- patient dans l'incapacité de remplir, dater et signer un consentement libre et éclairé pour la participation à la plateforme de recherche collaborative ;</li> <li>- patient ne disposant pas d'une connexion internet à domicile.</li> </ul>
Équipes	<p>Équipe 1 : Dominique Farge-Bancel (PU-PH, responsable équipe 1), Hélène Faivre (IDE), Elodie Lemadre (Coordinatrice d'Études Cliniques), Adrian Hij (PH), Zora Marjanovic (PH), Thierry Martin (PU-PH), Mickael MARTIN (CCA)</p> <p>Équipe 2 : Catherine Tourette-Turgis (chercheur en SHS, responsable équipe 2), Camila Aloisio Alvès (Community Manager), Jean-Claude Bourguignon (Chargé d'enseignement et de recherche)</p>

	<p>Équipe 3 : Christine Delory-Momberger(chercheur en SHS, responsable équipe 3), Anne Dizerbo (chercheur en SHS et coordinnatrice équipe 3), Silvia Rossi (chercheur en SHS), Martine Janner (chercheur en SHS), Maria da Conceição Passeggi (chercheur en SHS), Letitia Trifanescu (chercheur en SHS), consultants : Elizeu Clementino de Souza, Jean-Jacques Schaller, Christophe Blanchard,</p> <p>Équipe 4 : Marianne Rivière et Brigitte Lantz (AFL+)</p>
Source de financement	Fondation Maladies Rares

## Rappel du calendrier prévisionnel et description des étapes-clés

Calendrier Prévisionnel 2016 à 2018 :

**Première phase M0 à M6 : du 24/03/2016 au 23/09/2016 :** Familiariser chaque participant malade co-chercheur avec les outils numériques et avec l'équipe de recherche. Il sera invité à faire le récit de son parcours de vie au regard de sa santé, tel qu'il l'a vécu en disposant d'un guide de rédaction : "ce qui m'est arrivé, ce à quoi je dois faire face tous les jours, comment je m'y prends, en quoi l'expérience de ma maladie m'a transformé, ce que j'ai appris et comment je transpose les acquis de mon expérience en situation problématique à d'autres sphères de ma vie". Cette première étape permettra de reconnaître d'emblée l'importance des savoirs expérientiels.

**Deuxième phase M6 à M12 : du 24/03/2016 au 23/09/2016 :** Conduire une co-analyse des matériaux recueillis en utilisant la technique d'analyse des récits de vie qui sera enseignée aux malades co-chercheurs. Les thèmes de l'analyse tendront à répondre à la question de recherche centrale : "Quelles sont les activités que les malades ayant une maladie rare doivent conduire pour gérer au mieux les situations de handicap rencontrées dans leur parcours de vie, comment ils le font et comment ils pensent qu'ils pourraient mieux le faire sous certaines conditions ? Quels sont les invariants des situations de handicap communs à tous les participants de la recherche ? Quelles sont les catégories de handicap et les classes de situations dans lesquelles les handicaps nécessitent la mise en place de stratégies ? Quels sont ces types de stratégies ? Qu'est ce qui pourrait être amélioré ? Quel est le vécu du handicap par les malades, les facettes, les composantes et les réaménagements à mettre en place dans l'accompagnement, le soin et la prise en charge ?"

**Troisième phase M12 à M18: du 23/09/2016 au 24/03/2017 :** Discuter les résultats des analyses et les valider avec les co-chercheurs, tout en invitant tous les acteurs de la plateforme à rédiger un plan de communication et de publications. Le document rédigé par les équipes de recherche sera discuté, complété, révisé par les co-chercheurs pour limiter le biais du regard interprétatif externe et surtout compléter ce qui n'a pas été vu par les chercheurs et faire des liens entre les catégories et les items sous forme de raisonnement scientifique négocié entre les chercheurs, les malades co-chercheurs et tous les acteurs de la plateforme.

**Quatrième phase M18 à M24: du 24/03/2017 au 22/09/2017 :** Rédiger ensemble des recommandations en termes d'ingénierie sous forme de "leçons apprises" pour les institutions de recherche, les associations et les instances de décision en santé qui désirent construire des partenariats de production de connaissances avec des patients sur des thèmes relevant de l'expérience singulière pour améliorer les connaissances des communautés de patients, ceux qui les soignent, la recherche médicale et les instances de décision en santé.

**Cinquième phase M18 à M24: du 24/03/2017 22/09/2017 : Analyse.**

### Description des étapes-clés (conformément au projet soumis)

1 <sup>ère</sup> étape	M0-M6	A	Formation réciproque de l'équipe médicale et chercheurs en SHS		
			Recrutement des participants		
			Réunions participants de la plateforme		
			Présentation du projet et mobilisation des patients ( <b>lettre patient et dépliant</b> )		
					Recueil du consentement (NIFC) des participants et Recueil Coordonnées et pseudonyme des participants
		B	Formation des co-chercheurs à la Recherche dans salle dédié ou en individuel		
		C	Familiarisation des participants aux outils informatiques de la plateforme + installation de Skype et Dropbox avec CM		
			Constitution de l'espace virtuel de travail en ligne sous Dropbox		
Lancement de la plateforme E-FORM INNOV : réunion des participants en ligne ou physique					
Travaux de production de connaissances, recueil de données					
2 <sup>ème</sup> étape	M6-M12	Co-analyse des données recueillies			
3 <sup>ème</sup> étape	M12-M18	Discussion des résultats et validation par Co-Chercheurs			
4 <sup>ème</sup> étape	M18-M24	Rédaction des recommandations post analyse			

## **Calendrier effectif pour la recherche de 2016 à 2018**

Signature Convention APHP/Fondation Maladies Rares et démarrage du projet : le 7/07/2016

**Première phase M0 à M6 : du 07/07/2016 au 31/12/2016** : Familiariser chaque participant malade co-chercheur avec les outils numériques et avec l'équipe de recherche. Il sera invité à faire le récit de son parcours de vie au regard de sa santé, tel qu'il l'a vécu en disposant d'un guide de rédaction : "ce qui m'est arrivé, ce à quoi je dois faire face tous les jours, comment je m'y prends, en quoi l'expérience de ma maladie m'a transformé, ce que j'ai appris et comment je transpose les acquis de mon expérience en situation problématique à d'autres sphères de ma vie". Cette première étape permettra de reconnaître d'emblée l'importance des savoirs expérientiels.

**Deuxième phase M6 à M12 : du 01/01/2017 au 30/05/2017** : Conduire une co-analyse des matériaux recueillis en utilisant la technique d'analyse des récits de vie qui sera enseignée aux malades co-chercheurs. Les thèmes de l'analyse tendront à répondre à la question de recherche centrale : "Quelles sont les activités que les malades ayant une maladie rare doivent conduire pour gérer au mieux les situations de handicap rencontrées dans leur parcours de vie, comment ils le font et comment ils pensent qu'ils pourraient mieux le faire sous certaines conditions ? Quels sont les invariants des situations de handicap communs à tous les participants de la recherche ? Quelles sont les catégories de handicap et les classes de situations dans lesquelles les handicaps nécessitent la mise en place de stratégies ? Quels sont ces types de stratégies ? Qu'est ce qui pourrait être amélioré ? Quel est le vécu du handicap par les malades, les facettes, les composantes et les réaménagements à mettre en place dans l'accompagnement, le soin et la prise en charge ?"

**Troisième phase M12 à M18 : du 01/07/2017 au 31/12/2017** : Discuter les résultats des analyses et les valider avec les co-chercheurs, tout en invitant tous les acteurs de la plateforme à rédiger un plan de communication et de publications. Le document rédigé par les équipes de recherche sera discuté, complété, révisé par les co-chercheurs pour limiter le biais du regard interprétatif externe et surtout compléter ce qui n'a pas été vu par les chercheurs et faire des liens entre les catégories et les items sous forme de raisonnement scientifique négocié entre les chercheurs, les malades co-chercheurs et tous les acteurs de la plateforme.

Soumission du **rapport d'étapes à mi-parcours** à la Fondation Maladies Rares : le 07/07/2017.

**Quatrième phase M18 à M24 : du 01/01/2018 au 30/06/2018** : Rédiger ensemble des recommandations en termes d'ingénierie sous forme de "leçons apprises" pour les institutions de recherche, les associations et les instances de décision en santé qui désirent construire des partenariats de production de connaissances avec des patients sur des thèmes relevant de l'expérience singulière pour améliorer les connaissances des communautés de patients, ceux qui les soignent, la recherche médicale et les instances de décision en santé.

**Cinquième phase M18 à M24 : du 01/01/2018 au 30/06/2018** : Analys

## Restitution scientifique

### Méthodologie

#### I. Inclusion et recueil des données

- 1) Cette recherche visait à intégrer les malades eux-mêmes comme « co-chercheurs », à l'issue d'une formation brève spécifique à la recherche.

Un total de 28 patients atteints de Sclérodémie Systémique (SSc) ou de Lupus Érythémateux (LES) traités sous biothérapie ou thérapie cellulaire était attendu sur cette plate-forme virtuelle collaborative comprenant des chercheurs en Sciences Humaines et Sociales (SHS), du personnel médical et paramédical et des associations de patients tels que l'AFL+ et l'ASF.

Dans un premier temps, les co-chercheurs atteints de SSc ou de LES traités sous biothérapie ou thérapie cellulaire, remplissant les **critères d'éligibilité** et d'inclusion (cf. *infra*), ont été informés de cette recherche. Ceux qui le souhaitaient y ont été inclus (après signature d'une notice d'information et d'un consentement) pour décrire et analyser, à l'occasion de la production de récits sur leur expérience, ce qu'ils font, comment ils le font et comment ils se transforment et produisent des éléments d'analyse de leur expérience. Cette analyse du parcours de vie s'inscrit dans les perspectives théoriques de la recherche biographique en éducation et dans les premières recherches initiées en SHS portant sur l'identification et la caractérisation des activités conduites par des personnes malades « au service du maintien de soi en vie ».

Les récits retraçant le parcours des co-chercheurs ont été centrés sur quatre thèmes abordés successivement :

- la manière dont les problèmes de santé ont démarré
- les ressources utilisées pour les affronter
- les apprentissages réalisés
- ce qui pourrait être transmis à d'autres de l'expérience

- 2) La deuxième dimension de ce projet de recherche portait sur **la mobilisation de l'intelligence collective** dans le processus de la production de connaissances (travaux de production de connaissances et recueil de données).

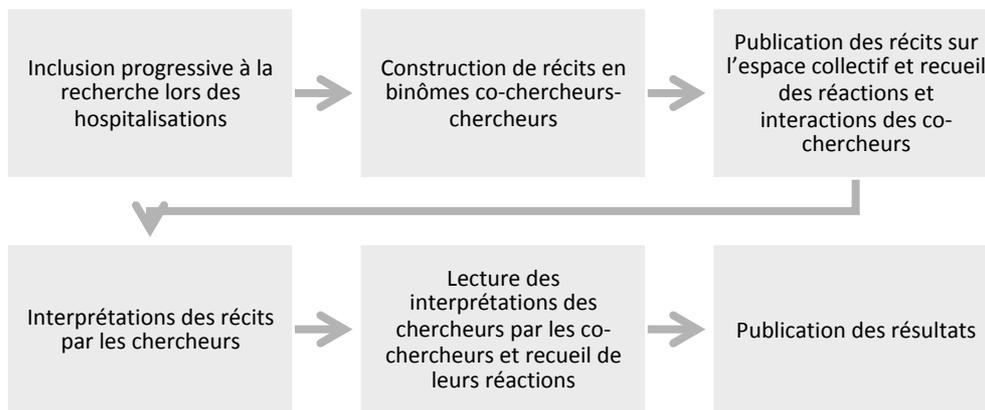
À cet effet, une plateforme collaborative Dropbox a été proposée sur laquelle les malades pouvaient se rendre et disposer d'un ensemble d'outils numériques visant à faciliter les interactions entre eux et avec les chercheurs en SHS et le Gestionnaire de communauté « *community manager* » (CM). La plateforme collaborative Dropbox visait à construire du lien social en favorisant les liens entre les patients et les chercheurs pour former une communauté. Elle devait permettre que, de passeurs d'expérience, les co-chercheurs puissent se positionner en patients-experts.

La plate-forme a été organisée en trois espaces :

- un espace confidentiel par binôme chercheur/co-chercheur où sont travaillés les récits
- un espace collectif où sont partagées les productions
- un espace collaboratif de travail pour les chercheurs

#### II. Étapes de la recherche :

La recherche s'est déclinée en plusieurs étapes décrites dans le schéma ci-dessous :



### III. Analyses des données

La grille de Heinz<sup>1</sup>, adaptée en France par Christine Delory-Momberger (2014), qui croise les théories de l'expérience et celles de l'action a été retenue. Elle nous conduit à observer, pour comprendre comment les co-chercheurs vivent et éprouvent leur maladie :

- **les formes du discours** dans le récit du co-chercheur qui permet d'évaluer son degré de mise en réflexivité par rapport à son expérience
- **les schémas d'action et les systèmes d'acteurs** qui montrent comment le co-chercheur se positionne dans son récit et comment il positionne les autres acteurs : quand est-il en position de subir, d'agir ? quel rôle occupent les autres ? Que place-t-il en position d'obstacle ?
- **les thèmes récurrents** qui organisent l'action et le ressenti du co-chercheur et qui représentent des clefs d'interprétation de son vécu.
- **la gestion biographique** de ces thèmes qui met en évidence comment les narrateurs apprécie, négocie et ajustent leur action à la réalité socio-individuelle.

L'analyse de la gestion biographique s'est articulée autour de quatre grands axes de production de connaissance qui visent à dégager **les savoirs et les stratégies** dans :

- la relation à soi et à la maladie
- la relation à la société
- la relation aux proches et à l'entourage
- la relation aux soignants et au soin

### IV. Évaluation du dispositif et des effets de la recherche

- Le dispositif a été évalué en observant le type d'interactions sur la plate-forme : entre co-chercheurs et chercheurs, entre co-chercheurs, entre chercheurs.
- Les effets de la recherche ont été évalués à partir d'un entretien non directif et de l'échelle de mesure de l'estime de soi de Rosenberg en 10 items, traduit et validé en français<sup>2</sup>, proposé aux co-chercheurs à la fin de la recherche.

<sup>1</sup> DELORY-MOMBERGER, C. (2014). *De la recherche biographique en éducation. Fondements, méthodes, pratiques*, Paris, Téraèdre, coll. « Autobiographie et éducation ».

<sup>2</sup> (" Rosenberg's Self-Esteem Scale": Rosenberg, Morris (1965), *Society and the Adolescent Self-Image*. Traduction française : Évelyne F. Vallières et Robert J. Vallerand, publié en 1990 dans l'*International Journal of Psychology*

## Résultats

Décrire ici les étapes-clés réalisées et les résultats obtenus – 6 pages

### I. Étapes réalisées :

#### 1) **Partie administrative du projet** : *entièrement effectuée par l'équipe 1.*

- soumission hors appel d'offres le 31/03/2015
- réponse aux experts (28/08/2015)
- Réception 1<sup>ère</sup> tranche de financement : 30/06/2016
- soumission et acceptation des autorités réglementaires (CNIL, CCTIRS et CPP) : du 23/11/2015 (CPP, CCTIRS) au 17/05/2016 (CNIL).
- Contrats de collaboration :
  - o AP-HP avec EXPERICE : du 09/06/2016 au 13/10/2016 (4mois) (signature)
  - o AP-HP avec UPMC : du 09/06/2016 au 15/12/2016 (6mois) (signature)
- Acceptation convention entre AP-HP et Fondation Maladies Rares : 07/07/2016 : date de début du projet.

Au total 6 mois nécessaires pour valider les contrats préalables et indispensables au démarrage de l'inclusion des patients et du travail clinique. A ce jour, cette tâche est entièrement validée.

- 07/07/2017 : soumission du rapport d'étapes à mi-parcours à la Fondation Maladies Rares
- 14 et 22/09/2017 : renvoi rapport d'étapes à mi-parcours à la Fondation Maladies Rares : fichier financier à modifier.
- 09/03/2018 : soumission fiche de synthèse du projet à la Fondation Maladies Rares
- 18/10/2017 : acceptation du rapport d'étapes à mi-parcours
- 04/12/2017 : notification des fonds de la 2<sup>ème</sup> tranche de financement arrivés à l'APHP Saint Louis.

#### 2) **Constitution de l'espace virtuel** de travail en ligne sous Dropbox et alimentation de l'espace avec les informations concernant le déroulé de la Recherche et **lancement de la plateforme E-FORM INNOV** : réunion des participants en ligne ou physique

#### 3) **Recrutement des patients** co-chercheurs dans ce projet :

Cette partie concernant le recrutement a été effectuée par l'équipe 1 en lien avec le gestionnaire de communauté (Camila Aloisio Alves).

30 patients sont inclus dans cette Recherche dont :

- 18 patients atteints de Sclérodémie Systémique (SSc)
- 10 patients atteints de Lupus Systémique (LES)
- 2 patients atteints de Lupus Systémique (LES) ayant retiré leur consentement pendant l'étape de recrutement
- L'inclusion des co-chercheurs dans la recherche a été complétée fin décembre 2016 pour les patients SSc et fin mars 2017 pour les patients LES.

Malgré tout le déploiement des équipes Médicales, de Recherche Clinique, de Sciences Humaines et Sociales et des Associations de patients, cet objectif initial d'inclure 18 patients LES ne pourra pas être atteint. L'équipe 1, constatant les difficultés pour l'AFL+ (équipe 4) à effectuer la mobilisation attendue des patients lupiques, a pu contacter, via le Dr Lantz, l'hôpital Necker (Dr Hummel, néphrologue) qui a permis le recrutement de 4 patients et sera donc associée au projet. Après réflexion et accord avec les équipes 2 et 3 (SHS) et considérant que : a) la Recherche est plus qualitative que quantitative, b) l'importance de commencer le travail d'analyse en parallèle pour tous les patients simultanément, c) le principe de réalité face aux difficultés de recrutement des patients LES pour un même temps passé *in fine* par les chercheurs en SHS, a estimé que le passage

de 18 à 12 patients LES inclus ne devrait pas amoindrir la qualité des résultats finaux. La difficulté de recruter des patients LES est actée et sera discutée dans l'analyse des résultats et les perspectives.

#### 4) Réunions réalisées

- 26 réunions de comité de pilotage (conférences audios)
- 15 réunion des équipes SHS
- 3 réunions techniques (conférences audios) : absence du *community manager* P. Helle de la plateforme (le 29/06/2016), équipe 1 : Pr Martin, Pr Farge et Elodie Lemadre (le 20/07/2016), pour réponse au CCTIRS (le 27/01/2016)
- 5 réunions : Elodie Lemadre avec la DRCI (du 23/10/2015, 26/01/2016, 12/02/2016, 08/03/2016, 05/04/2016)
- 5 réunions avec l'informatique de l'AP-HP Saint Louis (du 09/11/2015, 14/12/2015, 11/02/2016, 15/02/2016, 11/03/2016).
- 2 Réunion recrutement patients autres centres
- 4 réunions avancement projet (conférences audios)

#### 5) Récapitulatif des étapes-clés de la recherche :

1 <sup>ère</sup> étape : <b>Familiariser chaque participant avec les outils numériques de la recherche</b>	A	Constitution de l'équipe des chercheurs	M0-M6 04/16-10/16
		Présentation du projet et mobilisation des patients (lettre patient et dépliant) Recueil du consentement (NIFC) des participants et Recueil Coordonnées et pseudonyme des participants	M0-M6 06/16-04/17
	B	Formation des co-chercheurs à la Recherche dans salle dédiée ou en individuel	M0-M6 06/16-04/17
	C	Constitution de l'espace virtuel de travail en ligne sous Dropbox	M6-M12 08/16
2 <sup>ème</sup> étape : <b>Recueillir les données</b>		Lancement de la plateforme E-FORM INNOV : information aux co-chercheurs par mail individuel du démarrage Travaux de production de connaissances, recueil de données	M6-M12 12/16-12/17
3 <sup>ème</sup> étape : <b>Analyser les données</b>	A	Co-analyse des données recueillies	M18-M24 02/18-04/18
	B	Discussion des résultats et validation par co-chercheurs	M18-M24 04/18-06/18
4 <sup>ème</sup> étape : <b>Recommandations</b>		Rédaction des recommandations post analyse	M18-M24 05/18-06/18

## II. Résultats

### 1) Participation des co-chercheurs aux différentes étapes

- **Écriture des récits** : Sur 28 co-chercheurs inclus, 25 ont entièrement produit leurs récits - deux co-chercheurs (un atteint de la sclérodémie systémique et l'autre du lupus) n'ont plus répondu aux appels des co-chercheurs et un autre atteint de la sclérodémie systémique est décédé au cours de la phase d'écriture. 15 récits produits par des patients atteints de sclérodémie ont été recueillis et 10 récits par des patients atteints de lupus.
- **Modalité de participation à la recherche** : Toutes les données n'ont pas été produites sur la plateforme. Seuls 9 récits ont été totalement produits via Dropbox sur les 26. Les autres récits ont été construits grâce à des entretiens téléphoniques ou en présence pour certains co-chercheurs suivis à l'hôpital Saint-Louis, lors de leurs hospitalisations. Par ailleurs, même lorsque les récits avaient été construits sur Dropbox ou par téléphone, les chercheurs ont rencontré certains co-chercheurs lors de leurs hospitalisations quand cela était possible (7 co-chercheurs atteints de sclérodémie systémique ont été rencontrés par leur binôme chercheur à l'hôpital Saint-Louis). Par ailleurs, il est à noter qu'aucun des co-chercheurs n'a interagit avec les autres sur la plateforme.
- **Échelle de mesure de Rosenberg** : 18 questionnaires ont pu être remplis, la plupart au téléphone ou à l'hôpital, au cours d'une des hospitalisations des co-chercheurs. L'estime de soi par l'échelle de Rosenberg a été choisie en fonction de caractéristiques comme la simplicité des questions et l'accessibilité du langage qu'elle présente. Il s'agit d'un questionnaire composé de 10 phrases énonçant chacune un avis ou une affirmation relative à un aspect de l'estime de soi (annexe 1).

Pour chaque affirmation, les co-chercheurs devraient attribuer une échelle de points entre 1 à 4 : 1 correspondant à « tout à fait en désaccord », 2 à « plutôt en désaccord », 3 à « plutôt en accord » et 4 à « tout à fait en accord ». Au final, en fonction du cumul des réponses apportées, le questionnaire présente un score allant de 10 à 40 points. Chaque tranche du score obtenu indique un degré d'estime de soi, un résultat inférieur à 25 supposant une estime de soi très faible et un résultat supérieur à 39 une estime de soi très forte.

### Tableau de synthèse des modalités de participation à la recherche :

Pseudonymes	Étapes de la recherche		
	Construction complète du récit	Moyen de construction du récit	Réponse au questionnaire d'évaluation de l'estime de soi et score
Merlin	Oui	Dropbox	Oui
Sarah	Oui	Dropbox + Mail anonymisé	Refus
Emma 84	Oui	Mail anonymisé	Oui
Nani	Oui	Dropbox	Refus
Ninjaathanor	Oui	Mail anonymisé	Oui
Marie	Oui	Mail + Entretien à l'hôpital	Oui
Whitney	Non	Dropbox + Mail anonymisé	Refus
Natinette	Oui	Dropbox	Oui
Columbia	Non	Entretien téléphonique + Mail anonymisé	Pas de réponse
Bernadette	Oui	Dropbox + Entretien à l'hôpital	Oui

Numidia	Oui	Dropbox	Oui
Angélique	Oui	Mail anonymisé	Oui
Adrièle	Oui	Mail anonymisé + Entretien à l'hôpital	Oui
Katy	Oui	Dropbox	Oui
Fame	Oui	Dropbox + Entretien à l'hôpital	Oui
Jymi	Non	Mail anonymisé	Décédé
Manu	Oui	Dropbox	Oui
Sophian	Oui	Dropbox	Oui
Alamo	Oui	Entretien téléphonique	Oui
Max	Oui	Dropbox + Entretien à l'hôpital	Décédé
Ombeline	Oui	Dropbox + Entretien à l'hôpital	Non. Pas de réponse
Quentin	Oui	Dropbox + Entretien à l'hôpital	Non. Pas de réponse
Sandra	Oui	Dropbox	Oui
Louise	Oui	Dropbox + Skype	Oui
Chahida	Oui	Dropbox	Refus
Aline	Oui	Mail anonymisé	Non
Ferdinette	Oui	Dropbox + Mail anonymisé	Oui
Sophie	Oui	Dropbox	Non

## 2) Connaissances produites dans les récits

Les connaissances produites ont pu être regroupées dans les thématiques suivantes :

Focus	Avant le diagnostic	Après le diagnostic	Avant la greffe	La greffe et ses étapes	Après la greffe
Faits liés à la maladie					
Vécu/Ressentis					

- **Faits liés à la maladie pour les co-chercheurs atteints de sclérodémie systémique :**

- Avant le diagnostic :

L'ensemble des récits met en évidence une errance thérapeutique qui peut aller de quelques semaines à plusieurs années jusqu'au diagnostic de la maladie. Cette errance peut correspondre à l'administration de traitements inappropriés et à des difficultés à trouver les compétences médicales adaptées. Le diagnostic est presque toujours finalement posé dans un centre spécialisé. Ces constats font ressortir le manque d'information et de formation des soignants non spécialisés et de certains spécialistes (dermatologues, etc.).

- Après le diagnostic :

Une fois le diagnostic posé, une grande partie des co-chercheurs a d'abord reçu un traitement ou une succession de traitements spécifiques qui n'a pas apporté satisfaction avant de se voir proposer une greffe, sauf lorsque leur état de santé ne le permet pas. Ils font état d'un certain nombre de tactiques et de pratiques alternatives pour s'accommoder des symptômes de la maladie et en particulier apaiser ou

supporter les douleurs : techniques de respiration, méditation, « gérer le mental pour motiver et supporter les traitements, savoir bien manger pour avoir de la force et incorporer de petits gestes pour se protéger, comme porter des gants, écharpe, etc » (Emma)...

- La greffe :

La greffe constitue une étape importante du traitement pour les co-chercheurs. Elle constitue une épreuve relatée comme très difficile qui nécessite des soins douloureux pendant quelques mois et un isolement des co-chercheurs (pendant la chimiothérapie, l'aplasie...) dans des espaces fermés et stérilisés.

- Après la greffe :

Pour une partie des co-chercheurs, l'amélioration de la santé grâce à la greffe marque le début d'une nouvelle vie avec la possibilité d'envisager des projets. Pour d'autres, elle n'est pas suffisante. Dans ce cas, ils bénéficient parfois d'une allogreffe.

Certains co-chercheurs peuvent de nouveau avoir une vie professionnelle. D'autres pas. Dans tous les cas, semble commencer après la greffe une autre forme d'errance, de démarches et de difficultés : auprès des services administratifs du social et de la santé pour obtenir des compensations financières à leur impossibilité de travailler, des indemnités ou allocations, des remboursements de soin ou de déplacements ; et s'ils travaillent, dans leur milieu d'activité professionnelle, pour obtenir des aménagements des temps de travail, des possibilités de reconversion professionnelle, etc.

### **Vécu et ressenti :**

- Avant le diagnostic

Avant le diagnostic, devant les premiers symptômes, les co-chercheurs semblent partagés entre l'inquiétude et l'envie de continuer comme si de rien n'était. Ils entrent pour certains dans un processus d'accommodation aux premiers symptômes qui se poursuivra au fil des étapes de la maladie. Pour presque tous, la maladie rare n'est pas dans leur horizon d'attente. Ils font face au regard de la famille, des collègues qui bien souvent ont tendance à minimiser. Une forme de soupçon peut être présente concernant la bonne foi et la sincérité du sujet. On note globalement que, pendant cette période, l'interprétation qu'ils font de leurs symptômes s'inscrit dans un récit global qui reste celui qu'ils tramaient jusque-là mais se décline beaucoup dans l'impossibilité, l'impuissance à continuer à faire ce qu'ils étaient capables de faire avant la maladie, dans un récit marqué par les limitations ou l'empêchement de l'action. On pourrait dire que durant cette période ils continuent à « se raconter la même histoire d'eux-mêmes » et qu'ils essaient de « vivre la même vie » en éprouvant négativement tout ce qu'ils ne peuvent plus y faire.

- Après le diagnostic

Après le diagnostic, nombre de co-chercheurs expriment de la peur. Ils comprennent la gravité de la maladie. Ils reçoivent alors davantage de soutien, s'appuient sur les proches et entrent dans une quête de sens qui va prendre différentes formes pour les uns et les autres : message de la vie, épreuve de la foi, obstacle de la vie, occasion d'apprentissage de soi et de la vie, non-sens... Ils se préparent à affronter la maladie. Dans les récits, certains se positionnent en combattants, d'autres en acteurs plus passifs, suivant les résultats donnés par le traitement au moment où ils écrivent et suivant le sens qu'ils donnent (ou non) à la maladie dans leur existence, leur histoire, leurs rapports aux autres et au monde.

- La greffe

Le moment de la greffe est souvent raconté comme un moment d'épreuve : les co-chercheurs font référence à la douleur physique, mais aussi à un sentiment de solitude important. L'éloignement de leur

lieu de vie de l'hôpital où est effectuée la greffe en semble souvent responsable. Ils ne peuvent pas toujours être soutenus par leurs proches dans un moment particulièrement difficile.

- Après la greffe

Après la greffe, pour certains co-chercheurs, s'exprime une forme de retour à la « normale ». Après un moment de récupération physique, ils formulent à nouveau des projets, envisagent de reprendre leur travail, éventuellement avec un aménagement, ou une conversion professionnelle, ils font à nouveau état de leur rôle de parent, de leur vie sociale, etc. Suivant les symptômes encore présents, ils vont développer des tactiques pour minimiser l'impact de la maladie sur leur vie. C'est une période de réaménagements de la vie antérieure pour l'ajuster à leur état de santé et pour trouver un nouvel équilibre de vie.

Dans cette période, ceux pour qui la greffe a été efficace éprouvent de la reconnaissance et du soulagement à pouvoir reprendre des activités. Ils se positionnent comme des combattants qui ont gagné contre la maladie. Pour les autres, les sentiments de peur, d'inutilité dominent. Ils expriment aussi parfois un sentiment d'injustice dans le traitement qui leur est fait socialement et administrativement en tant que malades.

• **Faits liés à la maladie pour les co-chercheurs atteints de lupus :**

Pour les co-chercheurs atteints de lupus, la situation quant aux faits et au vécu est similaire jusqu'au moment du diagnostic. Cela correspond à une phase pendant laquelle les médecins ajustent le traitement qui leur permet ensuite le plus souvent de retrouver une vie proche de l'« ordinaire » ou qui n'empêche pas leurs études ou leur vie professionnelle. Cependant la maladie est toujours là, conduisant chez beaucoup de co-chercheurs à des réorientations biographiques venant infléchir ou modifier le rapport de sens à leur existence, à eux-mêmes et à leur entourage. Par ailleurs, dans la mesure où les symptômes de la maladie ne sont pas toujours visibles ou peuvent être masqués ou minorés par les malades eux-mêmes, ceux-ci doivent souvent affronter dans leur milieu professionnel la difficulté de faire reconnaître les contraintes et limitations que leur impose la maladie en termes de fatigabilité, de rythme de travail, de temps consacré aux soins, etc.

• **Ressources et apprentissages réalisés par les co-chercheurs**

Il se dégage des données recueillies un certain nombre de ressources utilisées et d'apprentissages réalisés par les co-chercheurs pour vivre avec leur maladie. Ceux-ci sont de l'ordre du mental (apprentissage de la patience, du courage, d'une attitude positive et d'un ancrage dans le présent), de la gestion des émotions et de la douleur (respiration, sophrologie, autohypnose, méditation, relativiser), du soin du corps (écoute des symptômes, respect des limites, pratique du sport, alimentation, relaxation, traitement).

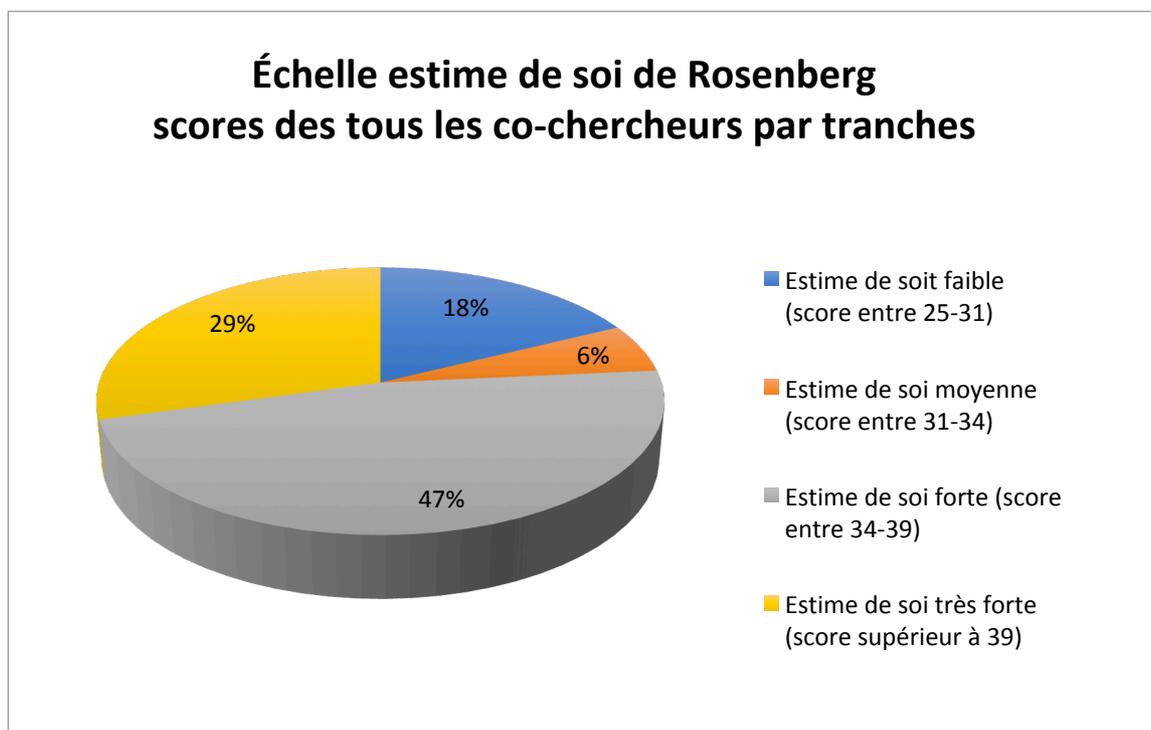
Mais les apprentissages concernent aussi l'espace interrelationnel (prendre du recul, s'appuyer sur des valeurs telles que la tolérance, la patience, l'humilité, mais aussi s'affirmer) et professionnel quand la maladie amène à une reconversion ou à un bilan de compétences permettant de se découvrir.

Les apprentissages tournés vers la maladie sont variables : certains co-chercheurs considèrent qu'ils doivent en avoir la meilleure connaissance possible (reconnaissance des symptômes, évolution possible de la maladie), d'autres au contraire ne le souhaitent pas ou choisissent soigneusement leur source d'information (plusieurs co-chercheurs mentionnent leur méfiance vis-à-vis d'Internet et une conscience de la singularité de leur cas).

Un nombre important de co-chercheurs mentionnent aussi l'appui qu'ils trouvent dans des formes de spiritualité et le développement de cette dimension spirituelle dans le cours de la maladie.

### 3) Résultats de l'échelle de Rosenberg

17 co-chercheurs ont accepté de passer le test, 4 ont refusé, 5 n'ont pas répondu aux invitations par mail ou téléphone, 2 sont décédés avant la passation. Les résultats obtenus présentent des limitations au niveau statistique, l'échantillon n'étant pas représentatif de la population atteinte de la sclérodémie et du lupus. Les résultats sont présentés en termes de pourcentage à partir des scores finaux. Les scores les plus élevés correspondent à une estime de soi qui se situe entre forte (47%) et très forte (29%).



Les scores indiquent, pour les co-chercheurs atteints de la sclérodémie comme pour ceux atteints du lupus, que les questions qui renforcent une facette positive de l'estime de soi (questions 1, 2, 4, 6, 7) obtiennent les scores les plus élevés. Le phénomène s'inverse pour les questions qui évoquent des aspects plutôt négatifs de l'estime de soi (questions 3, 5, 8, 9, 10). On peut en déduire que, globalement, les co-chercheurs développent une bonne estime d'eux-mêmes. Cependant, des variations de réponses pour chaque co-chercheur mettent en évidence une fluctuation de l'estime de soi, probablement due aux empêchements provoqués par la maladie. Il est possible d'émettre l'hypothèse d'une corrélation entre l'état de santé du co-chercheur et son score : les scores les plus bas concernent des co-chercheurs dont l'état de santé est particulièrement dégradé. Il faudrait cependant un échantillon plus important et des entretiens plus approfondis pour la vérifier.

### 4) Résultats des entretiens concernant les apports de la recherche

Tous les co-chercheurs ont accepté l'invitation des chercheurs à s'entretenir avec eux sur l'intérêt de leur participation à la recherche. Ils se disent tous satisfaits de leur participation à la recherche.

Ils attribuent différents sens à cette participation :

- rompre la solitude, l'isolement en partageant le récit de leurs expériences : trouver du commun dans l'expérience de la maladie malgré ses spécificités pour chaque patient
- renforcer et partager les savoirs, les connaissances sur la maladie vécue de l'intérieur en rendant sensible la capacité de transformation face à la maladie

- échanger des techniques et des pratiques visant à apaiser et à mieux supporter la douleur, à améliorer la qualité de la vie
- renforcer la formation des soignants concernant les maladies auto-immunes de manière à éviter les errances thérapeutiques des malades
- faire mieux reconnaître socialement et professionnellement les maladies auto-immunes et les empêchements et limitations qu’elles entraînent
- constituer un réseau d’information, de partage et d’échanges, sous la forme d’une plateforme collaborative

## Interprétation

### Interprétation des résultats et discussion – 4 pages

#### 1) Interprétation et discussion concernant la participation des co-chercheurs aux différentes étapes

L'observation du tableau présentant les modalités de participation à la recherche met en évidence que les données produites par les co-chercheurs n'ont pas toutes pris appui sur le même média. 9 des 28 inclus n'ont pas utilisé la plate-forme collaborative mise en place sur Dropbox pour construire leurs récits. Par ailleurs, aucun des co-chercheurs n'a, malgré les incitations des chercheurs en SHS, posté de commentaires ou de message à l'intention de l'un de leurs pairs. À partir des entretiens réalisés avec les co-chercheurs à la fin de la recherche, on peut attribuer cette inutilisation de la plate-forme à des problèmes techniques (non maîtrise de l'outil informatique, absence de possibilité de connexion, manque de matériel), à un manque de pertinence de l'outil choisi (qui rend difficiles les interactions), à des motifs médicaux (difficulté d'utilisation des doigts) ou à des besoins humains (besoin d'un contact direct pour instaurer une relation de confiance). Pour toutes ces raisons, l'utilisation d'une plate-forme numérique sur Dropbox, envisagée au départ comme une zone d'intersection et de partage, une « communauté virtuelle » favorisant une circulation des savoirs (Dupagne, 2011)<sup>3</sup>, un espace de partage et de construction de savoirs *in situ* (Mazereau, 2016)<sup>4</sup>, ne semble pas encore concluante pour les pathologies concernées.

#### 2) Interprétation et discussion des connaissances produites dans les récits

Après le diagnostic, dont les récits montrent qu'il tarde souvent à être posé et qui fait suite à une errance difficile dans le système de santé, les co-chercheurs commencent à construire un nouveau récit d'eux-mêmes, dans lequel la maladie est présente durablement et domine. Ils entrent alors dans un *processus d'accommodation* :

« Ce processus d'accommodation se présente alors comme un long périple dans lequel les personnes apprennent à vivre avec l'incapacité physique et à ajuster leur vie en conséquence. Pour ce faire, elles doivent développer une nouvelle compréhension de la réalité qui consiste à intellectualiser l'existence de la maladie chronique dans leur vie mais également à s'engager dans une quête de sens. » (Ellefsen & Cara, 2015)<sup>5</sup>.

Pour certains, ils entrent aussi alors dans une *heuristique d'accommodation* qui les amène à intégrer la maladie dans leur existence, éventuellement en lui attribuant une signification :

« Pour s'accommoder à la souffrance interminable du soi vécue dans le corps malade, les participants font appel à une heuristique d'accommodation, soit une méthode expérientielle de recherche et de découverte. Un contrôle de l'esprit se met en place afin de diminuer l'emprise de la maladie sur leur vie. [...] L'utilisation du recadrage leur offre une autre perspective de leur situation. En se centrant sur leurs capacités plutôt que sur leurs incapacités ou en apprenant à trouver des aspects positifs à leur situation, les participants réussissent à conserver un sentiment de contrôle sur la maladie. Enfin, certains participants en viennent à intégrer la maladie au soi et dans leur vie » (*Ibidem*).

<sup>3</sup> DUPAGNE, D. « E-santé ». *Communications*, 2011/1, n° 88, p. 59-65, Paris : Le Seuil.

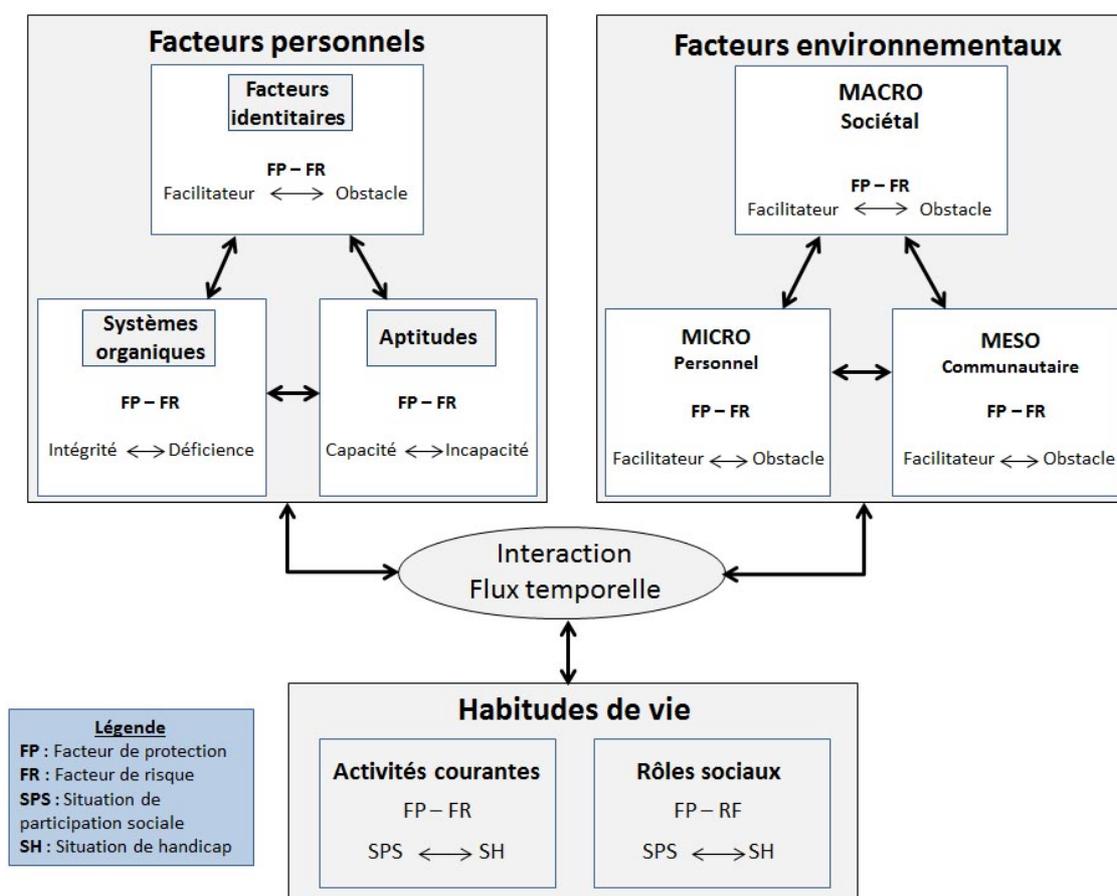
<sup>4</sup> MAZERAU, P. « L'élargissement de la coopération aux usagers et professionnels non spécialisés : une nécessité dans l'accompagnement des parcours des personnes en situation de handicap », *Forum* 2016/2, n° 148, p. 60-65.

<sup>5</sup> Ellefsen, E. & Cara, C. (2015). L'expérience de santé-dans-la-maladie : une rencontre entre la souffrance et le pouvoir d'exister pour des adultes vivant avec la sclérodémie systémique. *Recherche en soins infirmiers*, n° 121, p. 52-63, p. 59. DOI 10.3917/rsi.121.0052)

C'est une période de réaménagements de la vie antérieure pour l'ajuster à leur état de santé et pour trouver un nouvel équilibre de vie correspondant à un état de *santé-dans-la-maladie* :

« Pour vivre la *santé-dans-la-maladie*, les personnes doivent avoir le sentiment d'exercer un contrôle sur leur vie. [...] Cette prise de pouvoir fait appel à une *mobilisation de soi* où les participants disent demeurer actifs face à la maladie et se donner les moyens pour améliorer leur bien-être et leur qualité de vie. [...] Une *restructuration du soi* s'avère aussi nécessaire pour être en mesure de se réapproprier le pouvoir sur leur santé et leur vie » (*Ibidem*).

Par ailleurs, la recherche met en évidence, entrant en cela en écho avec le modèle du « processus de production du handicap » MDH/PPH proposé par Fougeyrollas (2010), comment la prise en charge actuelle des malades chroniques atteints de sclérodémie et de lupus contribue à les mettre en situation de handicap :



En effet, si l'atteinte des systèmes organiques par la maladie altère plus ou moins certaines aptitudes des co-chercheurs rencontrés selon les moments de leur parcours et selon leurs caractéristiques identitaires, il apparaît dans les récits qu'ils ont construit qu'un certain nombre de facteurs environnementaux se constituent en obstacle au maintien de leurs habitudes de vie et notamment à leur participation sociale. En effet, ils rencontrent, notamment après l'ajustement de leur traitement, de considérables difficultés à adapter leur vie aux effets et conséquences de la maladie. Qu'il s'agisse de l'obtention d'indemnités, d'adaptation du poste de travail, de formation, d'adaptations du logement, etc., ils manquent d'informations et d'accompagnement, mais sont également régulièrement confrontés à un système socio-sanitaire qui connaît mal les caractéristiques de leur maladie.

Il est à aussi noter qu'ils ne mentionnent jamais les associations comme présentes dans cette étape de leur vie, ce qui laisse supposer un manque d'information sur l'existence de ces associations ou sur le soutien qu'elles peuvent apporter.

### 3) Estime de soi des co-chercheurs

Ce test, qui initialement était accompagné de plusieurs autres, s'est mis en place au cœur d'une recherche développée selon une approche qualitative. Il a été mis en œuvre à la fin de la recherche alors que deux passations (une au début de la recherche et une à la fin) auraient permis une comparaison permettant de mesurer l'effet de la recherche sur les co-chercheurs. Mais l'inclusion échelonnée des co-chercheurs a rendu impossible une prise de contact collective qui les aurait introduits dans une dynamique d'interactions rassurantes. Il a d'abord été nécessaire pour chaque chercheur d'instaurer un climat de confiance avec son binôme co-chercheur. La passation de tests au début d'une recherche qui voulait inscrire les co-chercheurs dans une perspectives les rendant actifs dans la production de connaissance, aurait rendu ce processus difficile.

Au vu de la connaissance des co-chercheurs développée par les chercheurs en SHS, il a finalement été décidé de ne faire passer qu'un seul test, à la fin de la recherche, le plus court et le plus accessible : le test (ou « échelle ») d'estime de soi de Rosenberg (1965), un outil de référence parmi les plus utilisés pour mesurer l'estime de soi.

L'analyse statistique des résultats de ce test est rendue difficile par le petit nombre de participants : d'une part le nombre de co-chercheurs inclus a été réduit par rapport au projet d'origine, d'autre part, certains participants ont refusé de répondre, considérant ce test comme un instrument intrusif allant à l'encontre de ce qui avait été mis en place dans la recherche. Les indices concernant la qualité de vie, le bien-être, le sentiment de solitude étant largement présents dans les données recueillies, l'équipe de SHS n'a pas jugé pertinent d'insister sur la passation de tests qui auraient nui à la qualité de relation instaurée dans le cadre de la recherche.

### 4) Entretiens sur l'apport de la recherche

Au-delà de nous renseigner sur les motivations des co-chercheurs à participer à cette recherche, les données nous renseignent sur un mouvement opéré par la production des récits.

Ditisheim (citée par Abels-Eber en ...) souligne, entre autres, quatre fonctions du récit, qui s'inscrivent dans le processus herméneutique d'éducation de soi qui passe par la lecture ou l'écoute du récit d'un autre en puisant dans ses propres expériences biographique (processus *hétérobiographique*) généré par la recherche :

- une fonction **cathartique** de libération des affects qui permet de prendre de la distance par rapport à ce qui a été exprimé dans un mouvement de connaissance de soi et de reconnaissance par ceux qui reçoivent le récit ;
- une fonction **structurante** puisque l'élaboration d'un récit implique une mise en forme et en sens des événements qui contribue au développement d'une cohérence et d'une cohésion identitaire ;
- une fonction **cognitive** par la confrontation avec d'autres qui permet de mieux se comprendre mais aussi de développer une analyse de son parcours, de construire un savoir à partir de son expérience ;

- une fonction **énergétique** par la valorisation de la personne qui permet de développer une conscience sociale critique.

Les motifs et les apports invoqués quant à la participation à la recherche rejoignent ces quatre fonctions et sont les signes du développement d'un sentiment de pouvoir agir sur sa vie et sur sa situation qui donne du sens à cette participation.

La position de co-chercheur qui invitait à prendre une part active à la production de connaissances permettait de reconnaître leur savoir expérientiel comme essentiel pour compléter les savoirs émanant des recherches médicales (E. Jouet, L. Flora & O. Las Vergnas, 2010)<sup>6</sup>. Cette position valorisante leur a permis de développer une plus grande confiance en eux et un sentiment d'utilité qui favorise une meilleure estime de soi.

---

<sup>6</sup> JOUET, E., FLORA, L., LAS VERGNAS, O. (2010). Construction et reconnaissance des savoirs expérientiels des patients. *Pratiques de formation – Analyse*, 58-59, p. 13-94.

## Écarts observés et justifications

Décrire et justifier les écarts observés par rapport au projet de recherche sélectionné – 2 pages

### Les écarts observés sont liés aux :

- Retards liés à la mise en place du projet concernant les retours par les Chercheurs en Sciences Humaines et Sociales (SHS) sur la validation des documents de Recherche (protocole, Notice d'Information et consentement
- ...) suite à la réadaptation du protocole pour la soumission aux CPP et à la CNIL d'une Recherche Non Interventionnelle.
- Retards administratifs significatifs concernant les contrats de collaboration :
  - o entre l'APHP et l'UPMC : envoi du contrat par la DRCI le 15/04/2017, révision du contrat du 15/04/2017 au 17/06/2017 par Elodie Lemadre (Coordinatrice d'Etudes Cliniques, équipe 1) envoi du contrat définitif à la DRCI (Mme Hoffart-Jourdain), DGRTT (UPMC) pour révision le 17/06/2016, version révisée par DGRTT le 28/06/2016, contrat en relecture auprès de la DRCI du 27/06/2016 au 09/12/2016 avec échanges multiples entre équipe 1 et la DRCI, signature finale du contrat le 15/12/2016, soit 6 mois au lieu des 6 semaines escomptées.
  - o Entre l'APHP et EXPERICE : envoi du contrat par la DRCI le 15/04/2016, révision du contrat du 15/04/2016 au 17/06/2016 par Elodie Lemadre (Coordinatrice d'Etudes Cliniques, équipe 1), envoi du contrat définitif par Mme Cécile Hoffart Jourdain (Chef de Projets DRCI) au SAIC (EXPERICE) pour révision le 17/06/2016, version révisée par SAIC le 27/06/2016, contrat en relecture auprès de la DRCI du 27/06/2016 au 13/10/2016, signature finale du contrat le 13/10/2016.

*Ces complications administratives ont entraîné des difficultés pour les chercheurs en SHS car ils ne pouvaient pas commencer le projet sans contrat et les patients avaient déjà été recrutés pour une grande majorité d'entre eux.*

- Retards liés au recrutement des patients :
  - o Sur les 18 patients atteints de Sclérodémie Systémique prévus, 18 patients ont été recrutés
  - o Sur les 18 patients atteints de Lupus prévus, 12 patients ont pu être recrutés malgré les efforts prodigués par l'équipe 1 et l'équipe 4 pour le recrutement.
- Absence de passation de tous les tests de mesure du bien-être des patients :
  - o Les modalités progressives d'inclusion ont empêché un lancement de recherche collectif qui aurait permis d'instaurer plus rapidement un climat de confiance sans lequel il est difficile de faire passer les tests
  - o Refus de plusieurs patients de répondre aux questions du seul test retenu (le plus court et le plus accessible), considéré comme intrusif
  - o Impossibilité pour certains patients trop en souffrance de passer le test.

### Solutions mises en œuvre

Pour chaque écart identifié ci-dessus, quelles solutions ont été mises en œuvre ? 2 pages

Le tableau ci-dessous rassemble les solutions mises en œuvre au long de ces mois d'exécution de la recherche par rapport au contexte d'où elles ont émergé et aux difficultés et écarts qui ont été rencontrés.

Contexte	Difficultés et écarts	Solutions mises en œuvre
Retards liés à la mise en place du projet concernant les retours sur la validation des documents par les Chercheurs en Sciences Humaines et Sociales (SHS) suite à la réadaptation du protocole pour la soumission aux CPP et à la CNIL d'une Recherche Non Interventionnelle.	Difficultés de disponibilités de certains membres des équipes 2, 3 et 4 et lenteurs dans les retours concrets aux questions posées par l'équipe 1.	Validation des documents par un représentant désigné de chaque équipe présent régulièrement aux réunions de comité de pilotage. Les membres de l'équipe 1 (D. Farge, H. Faivre (IDE) et E. Lemadre) ont œuvré chaque semaine auprès de leurs homologues respectifs pour obtenir un engagement plus rapide et concret des membres des équipes 2, 3 et 4 le dossier.
Contrats de collaboration	Difficultés sur les retours des contrats à faire valider et signer par l'administration qui fait face à des procédures internes et des délais de traitement indépendants de la mise en œuvre des documents soumis	Aucune solution n'a pu être mise en œuvre car il n'est pas possible d'intervenir sur les délais administratifs et ceci a fait prendre 6 mois de retard à l'ensemble du projet.
La plupart des co-chercheurs n'ont pas l'habitude d'utiliser la Dropbox et les modalités de communication qu'il induit qui <i>in fine</i> empêchent parfois que les interactions avec les chercheurs de référence puissent se faire de manière fluide.	Difficultés de maîtrise par les co-chercheurs des outils mis à disposition sur la plate-forme Dropbox	Plusieurs contacts téléphoniques effectués par la gestionnaire de communauté ont été nécessaires pour guider les co-chercheurs. Face à des blocages persistants pour certains, il a parfois été proposé des échanges par email avec adresse mail anonymisée créée dans le cadre de cette recherche avec le pseudonyme choisi par le malade. Pour certains cas, la gestionnaire de communauté maintient un lien entre le co-chercheur et le chercheur pour alerter quand il y a des échanges par email et dropbox. Cette solution a cependant permis à certains binômes de communiquer plus facilement.
Peu de patients atteints de lupus bénéficiant à Strasbourg d'un traitement biothérapeutique et l'équipe biomédicale,	Difficultés : Entrée tardive dans la recherche de certains malades atteints de lupus qui ont été inclus au cours des mois	Accompagnement par téléphone et email de ces nouveaux malades par la gestionnaire de communauté pour les entraîner à maîtriser les outils. Adaptation du calendrier de construction du récit selon les dates de

<p>en collaboration avec les représentants de la Fondation Maladies Rares, a dû solliciter les autres centres de références (Toulouse et Paris) pour engager davantage de malades concernés par ce type de traitement à participer à la recherche.</p>	<p>de mars et d'avril. Ils ont rejoint d'autres co-chercheurs ayant parfois déjà avancé sur les deux premières phases d'écriture.</p>	<p>leurs entrées.</p>
<p>L'état de santé de certains co-chercheurs, l'avancée de la maladie, les hospitalisations fréquentes et la gestion émotionnelle de la maladie</p>	<p>Difficultés : Fatigue et impossibilité d'utiliser les doigts pour se communiquer avec les co-chercheurs à travers la plateforme de la recherche. De plus, le travail de construction du récit exige des moments de réflexion sur sa propre vie, un revécu de certains passages et expériences vécus, d'épreuves et de difficultés.</p>	<p>Adaptation à la temporalité des co-chercheurs du calendrier de la recherche pour la construction du récit envisagé au départ. Visites par la gestionnaire de communauté à une malade située à Paris pour l'aider à s'intégrer à la recherche. Visites aux malades à l'occasion de leurs hospitalisations à l'Hôpital Saint-Louis par la gestionnaire de communauté et le chercheur de référence afin de construire le récit ou le compléter en face-à-face.</p>
<p>L'état de santé et les outils retenus ont rendu la plate-forme Dropbox peu opérationnelle</p>	<p>Faire interagir les co-chercheurs sur la plate-forme</p>	<p>Incitations individuelles à émettre des commentaires et entrer en relation avec les autres co-chercheurs Création d'une liste mail de diffusion pour simplifier les échanges et favoriser les interactions</p>
<p>L'échelonnement de l'inclusion des co-chercheurs</p>	<p>Difficulté d'instaurer un climat de confiance avec les co-chercheurs permettant la passation des tests en début de recherche</p>	<p>Choix de différer la passation</p>
<p>L'état de santé de certains co-chercheurs, l'avancée de la maladie, les hospitalisations fréquentes et la gestion émotionnelle de la maladie</p>	<p>Impossibilité de certains co-chercheurs de répondre aux tests de mesure du bien-être</p>	<p>Faire des entretiens permettant d'évaluer la satisfaction sur la participation à la recherche et les apports pour les co-chercheurs</p>
<p>L'inscription des co-chercheurs dans une perspective les rendant actifs dans la production de connaissance</p>	<p>Refus de certains co-chercheurs de répondre au test de mesure du bien-être</p>	<p>Ne faire passer qu'un seul test, le plus court et le plus compréhensible Faire des entretiens permettant d'évaluer la satisfaction sur la participation à la recherche et les apports pour les co-chercheurs</p>

### Report de Calendrier

Merci de lister les différents reports de calendrier – 1 page

Le retour des patients co-chercheurs sur le projet E-FORM INNOV a été très positif et, en sus du rapport, nous allons publier un article et espérons pouvoir, avec la Fondation Maladies Rares, construire, dans la continuité de ce projet, la communication sur les résultats acquis. Pour ce faire, un pont entre E-FORM INNOV (plateforme France) et SPIN (plateforme francophone Canadien) est en construction. Nous sommes en contact avec l'équipe Canadienne, pour apporter la spécificité acquise grâce à E-FORM INNOV. Ceci sera, nous l'espérons, un développement extrêmement positif et une valorisation supplémentaire, à l'International, du travail effectué par l'équipe E-FORM INNOV afin d'améliorer la qualité de vie des patients atteints de Sclérodémie et de Lupus Systémique en collaboration avec les Chercheurs en Sciences Humaines et Sociales en FRANCE et au CANADA. Tous les acquis d'E-FORM INNOV et les perspectives seront présentés lors de la 2<sup>ème</sup> journée MATHEC ([www.mathec.com](http://www.mathec.com)) qui se déroulera le 18 Janvier 2019, à laquelle nous vous convions déjà.

Pour préparer cette journée, 3 des personnes de l'équipe E-FORM INNOV (E. Lemadre, A.Dizerbo et D. Farge) devons se rendre à l'Université McGill à Montréal pour travailler pendant 3 jours avec nos homologues canadiens entre Septembre et Décembre 2018 sur le développement d'E-FORM INNOV sur le lien E-FORM INNOV / SPIN. Nous n'avons pas la date exacte de cette rencontre et souhaiterions pouvoir attendre début Septembre 2018 pour finaliser l'achat des billets d'avion correspondants. Afin de régulariser ces dernières dépenses (environ 4000€), fondamentale pour la valorisation des résultats du travail effectué, nous vous demandons un délai supplémentaire jusqu'à début Septembre 2018 pour la remise du rapport financier final consolidé par notre Institution. Bien sûr, nous allons vous adresser dans les temps, la semaine prochaine, le rapport scientifique et si vous le souhaitez, le rapport financier non complété avec une demande spécifique de pouvoir attendre début Septembre 2018 avant d'engager avec certitudes et aux bonnes dates les derniers fonds restants.

### Report de Budget

Merci de lister les différents reports du budget – 1 page

#### Actuellement, nous avons dépensés :

- Dépenses de personnel : équipe 1 : 15517,33€ (sur 18 000€ initialement prévu)
- Dépenses d'équipement : 1658,67€ (sur 2000€ initialement prévu)
- Aucun frais de fonctionnement (sur 2000€ initialement prévu)
- Aucun Frais de mission (sur 5000€ prévu)
- Dépenses Frais de prestation : 39960€ (sur 40500€ initialement prévu)

#### Il reste sur le budget :

	Budget en €
reste frais dépenses personnel de l'équipe 1	2482,67
reste frais dépenses équipement de l'équipe 1	341,33
reste Plateforme Web (4 abonnements Dropbox 18€/mois/abonnement)	2000
Frais de mission	1400
Frais de prestation	540
<b>TOTAL restant</b>	<b>6764</b>

Nous souhaitons un report budgétaire pour début Septembre 2018 afin de pouvoir valider et budgétiser le déplacement de 3 personnes à l'Université McGill à Montréal pour travailler pendant 3 jours avec nos

homologues canadiens entre Septembre et Décembre 2018. Nous prévoyons un coût budgétaire d'environ 5000€ pour ce déplacement à prendre sur l'ensemble du budget restant.

**Communications et publications, valorisation**

Merci de lister l'ensemble des actions de valorisation programmées ou réalisées, accompagnées des références et d'une copie des publications (articles, poster, etc.) – 2 pages

**Poster :**

D. Farge-Bancel, H. Faivre, E. Lemadre, Z. Marjanovic, T. Martin, M. Martin, A. Hij, C. Tourette-Turgis, J-C. Bourguignon, C. Delory-Momberger, A. Dizerbo, A. Mutuale, C. Aloiso Alves, E. Clementino de Souza, J-J Schaller, C. Blanchard, M. da Conceição Passeggi, M. Riviere, B. Lantz. Mise en place d'une e-plateforme collaborative pour identifier et caractériser les handicaps des patients atteints de maladies auto-immunes rares relevant de la thérapie cellulaire ou de biothérapies. Colloque « Recherche en Sciences Humaines et Sociales dans les maladies rares ». Paris, 20 octobre 2016.

**Communication orale :**

C. Aloiso Alves, J-C. Bourguignon, H. Faivre, C. Delory-Momberger, M. Janner, E. Lemadre, Z. Marjanovic, A. Hij, T. Martin, M. Riviere, B. Lantz, C. Tourette-Turgis, L. Trifanescu, A. Dizerbo\*, D. Farge-Bancel\*. « Enjeux de la production de savoirs avec des personnes en situation de maladie chronique : E-FORM INNOV ». Colloque international « Décloisonner le suivi et le soin des personnes en situation de handicap et/ou atteintes de pathologies chroniques : les parcours de vie coordonnés ». Rouen, 12 et 13 juin 2017.

19 janvier 2018 : Communication orale. Equipe MATHEC (soit l'équipe 1 de cette Recherche) : « E-Form-Innov », une plateforme collaborative pour les patients chercheurs : Anne Dizerbo\* (équipe 2 et 3, Université des patients UPMC, EXPERICE), Élodie Lemadre (équipe 1, UF 04, Médecine Interne Maladies Auto-immunes et pathologie vasculaire, Hôpital St Louis, Université Denis Diderot, CRMR Ile de France (site constitutif))

en lien avec l'ASF et AFL+ avec le soutien de la Fondation Maladies Rares

**Publication :**

Aloisio Alves, C., Dizerbo, A., Faivre, H., Farge, D. (2018). « Enjeux de la production de savoirs avec des personnes en situation de maladie chronique : E-form Innov ». In N. Guirimand, A. Leplège, P. Mazereau (dir.) *Les nouveaux enjeux du secteur social et médico-social : decloisonner/ coordonner les parcours de vie et de soins*. Paris : Champ social.

**Intérêt social**

**Merci de décrire le bénéfice de la recherche pour les malades, la capacité du projet à influencer sur la santé à l'échelle de la population cible et les actions de santé publique envisagées – 2 pages**

Alors que la plus grande partie des co-chercheurs fait état d'un sentiment de déshérence sociale et d'isolement, la recherche, dont la finalité est entre autres de rendre visible leur expérience, a permis de les valoriser et de valoriser leurs savoirs. Elle a aussi permis de les accompagner dans la construction d'un sentiment d'appartenance à une communauté (communauté d'expérience de la maladie, communauté de recherche).

Les co-chercheurs font état d'un sentiment de fierté lié à un sentiment d'utilité sociale que la maladie rend plus difficile à développer. La recherche est aussi l'occasion d'un moment de bilan sur leur parcours dont se dégagent des projets pour l'avenir : investissement associatif et/ou militant, formation professionnelle...

Par ailleurs les données produites dans le cadre de la recherche ont permis de mutualiser des pratiques et techniques mises en œuvre dans la gestion quotidienne de la maladie susceptibles de contribuer à l'amélioration de la qualité de vie des co-chercheurs.

Le projet pourrait contribuer à améliorer les actions de santé publique à partir des constats effectués :

1- L'ensemble des récits des co-chercheurs met en évidence une forme d'errance diagnostique qui va de quelques semaines à plusieurs années et leur porte manifestement préjudice sur différents plans : au niveau médical, la maladie progresse et une prise en charge précoce serait préférable ; en termes de qualité de vie, les différents symptômes sont physiquement incapacitants, génèrent de l'anxiété et nuisent à l'estime de soi. La prise en charge dans un centre de référence marque une sortie de l'errance qui permet aux co-chercheurs de se mobiliser positivement face à la maladie. Ils se disent alors bien informés, en confiance, bénéficiant le plus souvent d'une prise en charge qui les aide à mieux affronter les difficultés.

Préconisations : poursuivre les efforts de diffusions des informations qui permettraient un diagnostic et une orientation plus rapide vers les centres de référence.

2- La période de la greffe, à partir de sa préparation, est un moment très difficile pour les co-chercheurs. Au-delà des contraintes imposées par le soin, les patients font état de l'isolement provoqué par l'éloignement de l'hôpital de leur domicile et de leur famille ainsi que de leur besoin d'ouverture vers l'extérieur.

Préconisations : envisager et mettre en place des actions pour rompre l'isolement des patients : soutien aux proches, notamment pour permettre leur présence soutenue et régulière, en les aidant à surmonter les obstacles économiques, professionnelles et personnelles (aides financières, droit du travail, gestion du stress...); mise à disposition des patients de moyens de communication avec l'extérieur (tablettes ?) pendant l'hospitalisation.

3- C'est surtout après la greffe, ou lorsqu'un traitement médical semble ajusté, que les co-chercheurs mentionnent une reconfiguration de leur vie et cherche à l'adapter à leur nouvelle « condition physique ». Ils font état de considérables difficultés à adapter leur vie aux contraintes et limitations amenées par la maladie. Qu'il s'agisse de l'obtention d'indemnités, d'adaptation du poste de travail, de formation, d'adaptations du logement, etc., ils manquent d'informations et sont confrontés à de très lourdes difficultés administratives. Les associations n'ont jamais été mentionnées comme présentes dans cette étape de la vie des co-chercheurs, ce qui laisse supposer un manque d'information sur l'existence de ces associations ou sur le soutien qu'elles peuvent apporter.

Préconisations : envisager et mettre en place des actions pour rompre l'isolement des patients : soutien aux proches, notamment pour permettre leur présence soutenue et régulière, en les aidant à surmonter

les obstacles économiques, professionnelles et personnelles (aides financières, droit du travail, gestion du stress...); mise à disposition des patients de moyens de communication avec l'extérieur (tablettes ?) pendant l'hospitalisation.

4- Les récits des co-chercheurs font apparaître différentes étapes dans l'appropriation de la maladie, qui vont souvent dans le sens d'une accommodation. Mais ils ont des difficultés à donner du sens à cette expérience d'autant plus inédite qu'il s'agit de maladie rare. Tout au long de leur parcours, la possibilité d'accéder à des récits d'expérience variés de malades pourrait les aider à subjectiver leur parcours mais aussi à trouver plus vite des pratiques complémentaires qui permettent d'améliorer leur quotidien.

Préconisations : développer des espaces permettant de lire des témoignages et d'échanger sur des forums. Développer les espaces d'éducation thérapeutique.

5- Les récits des co-chercheurs aident à comprendre combien les difficultés qu'ils éprouvent, rendent d'autant plus pesant, voire impossible, l'exercice de certains métiers. Lorsque le statut de travailleur handicapé est enfin reconnu, quelque fois au prix de vexations liées au fait que les soignants qui composent les CDAPH ignorent ces maladies rares, les co-chercheurs trouvent difficilement un travail adapté. Il arrive que des employeurs peu scrupuleux les embauchent sans pour autant redéfinir des horaires de façon ajustée. Il devient compréhensible que les co-chercheurs qui se sont retrouvés dans cette situation, perdent confiance en eux. C'est pourquoi, l'enjeu qui consiste à diffuser les informations sur ces maladies rares, se situe également au plan social, professionnel, juridico-politique. Un patient qui travaillait avant de développer une maladie rare, ne perd pas ipso facto les compétences reconnues, qu'il avait acquises antérieurement, il se trouve seulement momentanément indisponible, ce qui ne signifie pas « invalide incompetent ».

### Suite envisagée

**Merci de décrire comment les résultats de la recherche seront mis en œuvre, ainsi que les nouveaux projets qui peuvent découler des résultats obtenus – 2 pages**

Les résultats de la recherche E-Form Innov permettent d'ouvrir des perspectives et d'envisager des projets pouvant se décliner à partir du point de vue des patients et à l'adresse des patients, des personnels soignants, des organismes sociaux qu'au regard de la recherche elle-même.

#### **Du côté des patients et des associations de malades :**

Le souhait et le besoin exprimés par la plupart des patients co-chercheurs d'une meilleure information sur la maladie et d'une communication entre les malades eux-mêmes sur le partage de leur expérience et sur leur propre « savoir » de la maladie sont propres à susciter la mise en place de dispositifs adaptés :

- Développement d'espaces de partage et d'information (plate-forme, page ?) à destination des malades
- Création d'« espaces de récits » où pourraient être déposés et s'échanger les témoignages et les récits des patients
- Mise en place d'une communication par les patients vers les patients basée sur l'idée de « patients experts »
- Mise en place de « programmes » d'éducation thérapeutique du patient dans le cadre spécifique des maladies auto-immunes/maladies rares

#### **Du côté des soignants et des systèmes de santé**

- Développement d'espaces de partage et d'information concernant les maladies auto-immunes à destination des professionnels de santé
- Mise en place de « programmes » d'éducation thérapeutique du patient dans le cadre spécifique des maladies auto-immunes/maladies rares
- Sensibilisation dans la formation des personnels soignants aux dimensions expérientielles de la maladie : des notions comme celles de « travail du malade », « activité de maintien de soi en vie », « santé-dans-la maladie » sont propres à renouveler le regard porté sur la « personne malade » et sur la « vie avec la maladie »

#### **Du côté des organismes sociaux et professionnels**

- Assurer une meilleure diffusion de l'information concernant les contraintes et limitations liées aux maladies auto-immunes auprès des organismes sociaux et des milieux professionnels

#### **Du côté de la recherche et d'une articulation entre recherche médicale, sciences humaines et sociales et patients**

- Poursuivre la recherche à partir de récits spontanés déposés sur une plate-forme et des questions posées par les malades sur cette plate-forme : observer les possibilités d'interactions entre des malades qui informeraient sur la qualité de vie des malades et sur les moyens de l'améliorer
- Recentrer et approfondir la recherche sur la qualité de vie, en comprenant mieux l'expérience vécue de la maladie et en repérant les activités et stratégies des patients pour lui faire face et mettre en œuvre d'autres « normes de vie ».
- Favoriser les recherches associant des équipes médicales, des équipes de sciences humaines et sociales, des patients « co-chercheurs », des associations de malades : apprécier la plus-value de ces recherches multidisciplinaires et multiactorielles dans l'accès à la complexité des « situations de maladie » dans leurs multiples enjeux (biomédicaux, expérientiels, sociaux, culturels, économiques, institutionnels) et dans la production de savoirs multifactoriels à leur propos.

### **Apports de la Fondation maladies rares**

Merci de décrire comment l'AAP de la Fondation a représenté une innovation dans votre activité de recherche ;  
Quelle a été la valeur ajoutée de l'accompagnement proposé par l'équipe de la Fondation – 1 page

Le système de plateforme existe dans d'autres domaines de la Santé mais pas dans les Maladies Rares et l'idée innovante a été de mettre en place une plateforme collaborative dans les Maladies Rares regroupant non seulement des experts d'horizons différentes et variées : Médicaux et paramédicaux dans les Maladies Auto-Immunes (MAI) Rares et la Thérapie Cellulaire, des chercheurs en Sciences Humaines et Sociales et des Associations de patients (ASF, AFL+) mais également des patients atteints de MAI rares, qui ont une participation active dans cette Recherche et deviennent co-acteurs, « co-chercheurs » de celle-ci. Des Educations Thérapeutiques du patient atteint de MAI rares existent afin d'aider médicalement le patient dans sa maladie mais il y avait un manquement sur le dévoilement du patient sur sa maladie, son handicap et sa qualité de vie au quotidien ainsi que sur les échanges et interactions sur ce qu'il ressent. Cette alliance innovante avec les chercheurs en SHS nous a permis d'avoir le retour de ces patients co-chercheurs sur ces éléments ci-dessus grâce à une interaction non médicale avec ces patients co-chercheurs, de les comprendre. L'analyse finale de cette Recherche et les résultats qui en découleront nous serviront pour un retour sur le médical et à tendre vers une mise en application de moyens en vue d'une amélioration de la qualité de vie des patients en fonction des résultats de cette Recherche.

L'AAP de la Fondation Maladies Rares nous a permis de mettre en œuvre cette Recherche Innovante grâce au financement de moyens techniques mais surtout de moyens humains nécessaires pour la réalisation de cette Recherche avec le déploiement de plusieurs chercheurs en SHS sur cette plateforme. De plus, l'équipe de l'AAP de la Fondation Maladies Rares (équipe composée de : Mme Audrey Tranchand, Mme Laura Benkemoun et Mme Diana Désir-Parseille) a été très réactive concernant les échanges administratifs, réglementaires et financiers du projet en lien avec la Coordinatrice d'Etudes Cliniques d'E-FORM INNOV ce qui nous a permis, malgré les écarts à la Recherche constatés, de finir cette Recherche dans les temps (24 mois) avec un enrichissement des connaissances acquises au cours de cette Recherche. Nous tenons à préciser ce point car nous sommes conscients que les délais administratifs et réglementaires peuvent parfois être allongés sans motifs concernant les Recherches et que d'avoir une équipe réactive et efficace en face peut changer beaucoup de choses.

**Budget**

Remplir le classeur annexe

**Cf annexe 2 de ce présent rapport**

## Description grand public

**Contexte, objectifs, résultats obtenus, intérêt social – 5 pages**

### Contexte :

Les maladies chroniques ont des points communs entre elles : une fois qu'elles émergent dans le parcours de vie d'un individu, celui-ci bascule. L'avènement d'une maladie chronique provoque des changements dans les routines habituelles, dans les relations interpersonnelles, dans les habitudes alimentaires et physiques, dans l'interaction avec les services de santé et dans la perception du corps et de ses manifestations physiques. Les nécessaires interactions entre les malades et les professionnels de santé, rendues plus fréquentes et étroites avec l'apparition de ces maladies, mettent en question l'organisation des services de santé et la façon de travailler des professionnels. Pour répondre aux besoins spécifiques parce que persistants des malades, les professionnels ont dû mobiliser de nouvelles compétences et attitudes afin de construire un soin mieux articulé entre les différentes spécialités et catégories professionnelles. Ce soin passe par une coopération des professionnels de santé avec les malades et leurs familles et repose sur un partage entre des savoirs issus de l'expérience de vivre avec la maladie chronique et des savoirs émanant des recherches médicales. Cela invite à développer des expériences innovantes.

La recherche E-FORM INNOV initie une coopération entre des malades, des chercheurs en sciences humaines et sociales et des professionnels de santé, dans le but de produire des connaissances spécifiques sur des situations communes de handicap liées à deux maladies auto-immunes (MAI) rares, le lupus et la sclérodémie, relevant de thérapies innovantes (thérapie cellulaire ou biothérapies).

La recherche E-FORM INNOV fait coopérer quatre équipes :

- une équipe médicale avec deux médecins temps plein une infirmière d'éducation thérapeutique, à l'hôpital Saint-Louis, AP-HP, labellisé en 2017 Centre de Références pour les Maladies Auto-immunes et auto inflammatoires systémiques rares de l'Île de France (site constitutif) (équipe 1)
- deux équipes de huit chercheurs et de quatre consultants en sciences humaines et sociales
- une équipe constituée de malades et de représentants d'associations de malades chroniques (équipe 4)

Participent à la recherche dans le processus de production de connaissances des malades, positionnés comme co-chercheurs, atteints de sclérodémie systémique ou de lupus érythémateux systémique. Ces deux maladies rares sont dites « systémiques » car elles peuvent affecter plusieurs organes et « auto-immunes » car le système immunitaire des personnes concernées reconnaît comme étranger leurs propres cellules. La sclérodémie se manifeste souvent d'abord par une modification de la peau : infiltration progressive de la peau par la fibrose avec souvent modification de la couleur de la peau (dépigmentation chez les sujets de race noire, hyperpigmentation chez les patients caucasiens) et le lupus par un érythème ou de éruptions en masque du visage (lupus = loup). Il existe plusieurs formes de sclérodémies qui varient selon le degré de sévérité et la vitesse d'évolution de la maladie. Comme dans le lupus systémique, ces symptômes de la maladie sont à l'origine de difficultés qui peuvent se cumuler, devenir lourdement handicapantes avec altération des organes vitaux qui conduisent à des difficultés à se déplacer, à se nourrir, à respirer. En cas d'atteinte viscérale grave ou rapidement progressive, au niveau des poumons, du cœur ou du rein, le pronostic vital peut être engagé avec risque de décès. Les co-chercheurs peuvent bénéficier, en raison de la sévérité de leurs symptômes et de l'absence de résultats après des traitements conventionnels, de traitements dits « innovants » qui visent à améliorer leur qualité

de vie et leur pronostic vital et fonctionnel : la biothérapie qui utilise des médicaments spécifiques et la thérapie cellulaire par la greffe de cellules souches.

### **Objectifs :**

Le projet de recherche E-FORM/INNOV vise à produire des connaissances spécifiques sur des situations de handicap communes rencontrées au cours de deux MAI rares (SSc et LES) relevant de thérapies innovantes, en incluant les malades dans le processus de production de connaissances comme co-chercheurs, tout en prenant en compte leur expérience réelle vécue au-delà des connaissances médicales existantes afin d'identifier, de caractériser et d'aider les patients à surmonter les handicaps. Il conduit à analyser, décrire et comprendre comment chaque malade affronte les obstacles et les contraintes imposées par sa maladie, pour gérer les symptômes et trouver des adaptations dans la vie quotidienne et conduit à :

- mieux comprendre certains aspects du parcours de vie et de soin des malades ;
- apporter à ces malades une opportunité de participer à une recherche reconnaissant leur expertise d'expérience dans la gestion quotidienne de leur maladie et de ses traitements ;
- améliorer la prise en charge et l'éducation thérapeutique par la meilleure compréhension des handicaps invisibles des personnes souffrant d'une MAI rare systémique.

Cette recherche E-FORM/INNOV vise aussi à observer les effets des traitements innovants dont les co-chercheurs sont susceptibles de bénéficier sur l'amélioration de leur qualité de vie. Elle leur apporte une possibilité d'être reconnus dans l'expertise qu'ils développent pour gérer quotidiennement leur maladie et leurs traitements.

### **Description de la recherche :**

La recherche se développe au cœur d'une communauté virtuelle et protégée (e-plateforme collaborative : Dropbox), afin de permettre à des personnes rencontrant des difficultés de mobilité en raison de leur maladie de participer à la recherche. L'appellation de « co-chercheurs » correspond à une volonté de reconnaître leur expertise et leur rôle actif dans la construction de leur récit et l'interprétation de leurs vécus au long du travail accompagné par un chercheur de référence.

Cette recherche a débuté avec la phase d'inclusion des co-chercheurs : à l'Hôpital Saint Louis, centre de Coordination de l'étude et référence dans le traitement par thérapies innovantes en ce qui concerne les patients atteints de la sclérodémie en France pour les malades atteints de lupus, et dans d'autres hôpitaux. L'inclusion à la recherche s'est déroulée de manière progressive lors des hospitalisations des malades. Quand ils souhaitaient participer, après avoir pris connaissance des objectifs et de la méthode de recherche, une rencontre était organisée avec la gestionnaire de communauté et l'infirmière de référence du Service faisant partie du comité de pilotage. Une première formation aux outils numériques était alors délivrée aux patients co-chercheurs. Pour les autres co-chercheurs, le contact et la formation ont été effectués au téléphone.

Pendant que les inclusions à la recherche se faisaient progressivement, la gestionnaire de communauté et l'informaticien de référence ont conçu la plateforme de la recherche et une page web.

La phase de construction du récit de vie repose sur une coopération en binôme entre un chercheur en SHS de référence et un patient co-chercheur, sur un espace exclusif et privé de la plate-forme numérique ainsi construite, afin de respecter l'anonymat du patient et les règles de confidentialité qui s'imposent.

La construction du récit des co-chercheurs se déroule en quatre phases d'écriture. Les participants sont invités à retracer leur parcours de vie, à décrire et à analyser comment ils vivent et comment ils se transforment pour poursuivre leur développement personnel malgré la maladie. La première phase

concerne l'arrivée de la maladie, la seconde les ressources rencontrées, la troisième les apprentissages réalisés et la quatrième la transmission des connaissances et compétences acquises.

À la fin de chaque phase d'écriture, chaque co-chercheur peut choisir ce qu'il veut rendre public sur la plate-forme collaborative afin de partager son vécu avec les autres acteurs de la recherche. Conçue pour se dérouler de façon progressive, cette recherche aide peu à peu à comprendre comment les co-chercheurs reconfigurent leur vie avec la maladie. Elle met aussi en évidence les enjeux et les contraintes d'un travail coopératif.

### **Résultats :**

L'analyse des récits et témoignages des co-chercheurs atteints de sclérodémie ou de lupus a permis de mettre en évidence les éléments suivants :

1- L'ensemble des récits des co-chercheurs fait état d'une forme d'errance diagnostique et thérapeutique qui va de quelques semaines à plusieurs années. La difficulté ainsi éprouvée à trouver rapidement les compétences et les traitements médicaux adaptés entraîne des préjudices sur différents plans : au niveau médical, la maladie continue à progresser ; au niveau psychique, l'incertitude dans laquelle se trouvent les patients est génératrice d'angoisse ; en termes de qualité de vie et de rapports sociaux, les différents symptômes sont physiquement incapacitants et sont susceptibles de provoquer dans l'entourage personnel comme dans le milieu professionnel des réactions nuisant à l'estime de soi.

2- Le diagnostic de la maladie et sa prise en charge dans un Centre de Référence Maladies Rares marquent une sortie de l'errance thérapeutique et la possibilité pour les co-chercheurs de se mobiliser positivement face à la maladie. À ce stade, ils se disent bien informés, en confiance, bénéficiant le plus souvent d'une prise en charge (à l'hôpital Saint-Louis pour les patients atteints de sclérodémie) qui les aide à affronter les difficultés.

3- La période de la greffe, tant dans sa préparation que dans sa mise en œuvre et ses suites à court ou moyen terme, est un moment crucial pour les co-chercheurs. Elle cristallise les espoirs et les attentes quant à une évolution positive du cours de la maladie et au retour à une meilleure qualité de vie. Par ailleurs, au-delà des contraintes imposées par le soin, cette période peut être vécue comme particulièrement difficile en raison de la durée d'hospitalisation qu'impose l'opération et de l'isolement qu'elle provoque par rapport à l'entourage familial lorsque le domicile des patients est éloigné de l'hôpital. D'où le besoin d'ouverture sur l'extérieur, de contacts et de relations dont font état nombre d'entre eux.

4- C'est surtout après la greffe, ou lorsqu'un traitement médical semble ajusté que les co-chercheurs mentionnent une reconfiguration de leur vie qui les amène à s'adapter à leur nouvelle « condition physique » et à rechercher un nouvel équilibre de vie. Ils font état alors d'importantes difficultés à faire reconnaître les contraintes et limitations imposées par la maladie, qu'il s'agisse de l'obtention d'indemnités, d'adaptation de leur poste de travail, de formation, d'adaptation du logement, etc. Ils manquent d'informations, sont confrontés à la lourdeur des démarches administratives à accomplir et quelquefois à la méconnaissance et à l'inertie des organismes sociaux ou des milieux professionnels. Les associations n'ont jamais été mentionnées comme présentes dans cette étape de la vie des co-chercheurs, ce qui laisse supposer un manque d'information sur l'existence de ces associations ou sur le soutien qu'elles peuvent apporter.

5- Les récits des co-chercheurs font apparaître différentes étapes dans l'expérience vécue de la maladie, qui vont souvent dans le sens d'une accommodation les amenant à « vivre avec » la maladie et à

développer des stratégies de « santé-dans-la-maladie ». La difficulté est souvent ressentie d’inscrire la maladie dans un parcours d’existence et de donner du sens à cette expérience, d’autant plus inédite qu’il s’agit de maladies rares. S’appuyant sur la recherche à laquelle ils ont participé et sur la production et le partage de récits auquel elle a donné lieu, de nombreux co-chercheurs expriment le désir, pour eux-mêmes et pour l’ensemble des patients, de pouvoir accéder à des récits d’expérience variés de malades qui pourraient les aider à rompre leur sentiment d’isolement, à mettre en commun leurs difficultés et leurs efforts, à subjectiver leur parcours. Ils font état également de leur souhait de mieux connaître et de partager des pratiques et des exercices (hygiène de vie, alimentation, respiration, méditation, etc.) complémentaires des soins proprement médicaux et permettant d’améliorer les conditions physiques et mentales de la vie au quotidien.

Si l’on récapitule le sens et les finalités donnés par les co-chercheurs à leur participation à la recherche, il se dégage les points suivants :

- rompre la solitude, l’isolement en partageant le récit de leurs expériences : trouver du même malgré les différences
- renforcer et partager les savoirs, les connaissances sur la maladie vécue de l’intérieur
- échanger des techniques et des pratiques visant à apaiser et à mieux supporter la douleur, à améliorer la qualité de la vie
- renforcer la formation des soignants concernant les maladies auto-immunes de manière à éviter les errances thérapeutiques des malades
- inciter les associations à élargir leurs actions d’information (tant auprès des malades que des organismes sociaux et professionnels) et à développer des activités de soutien et d’aide aux malades
- faire mieux reconnaître socialement et professionnellement les maladies auto-immunes et les empêchements et limitations qu’elles entraînent
- constituer un réseau d’information, de partage et d’échanges, sous la forme de plateformes collaboratives, de forums, etc.

Il se dégage aussi des données recueillies un certain nombre de ressources utilisées et d’apprentissages réalisés par les co-chercheurs pour vivre avec leur maladie. Ceux-ci sont de l’ordre du mental (apprentissage de la patience, du courage, d’une attitude positive et d’un ancrage dans le présent), de la gestion des émotions et de la douleur (respiration, sophrologie, autohypnose, méditation, relativiser), du soin du corps (écoute des symptômes, respect des limites, pratique du sport, alimentation, relaxation, traitement).

Mais les apprentissages concernent aussi l’espace interrelationnel (prendre du recul, s’appuyer sur des valeurs telles que la tolérance, la patience, l’humilité, mais aussi s’affirmer) et professionnel quand la maladie amène à une reconversion ou à un bilan de compétences permettant de se découvrir.

Les apprentissages tournés vers la maladie sont variables : certains co-chercheurs considèrent qu’ils doivent en avoir la meilleure connaissance possible (reconnaissance des symptômes, évolution possible de la maladie), d’autres au contraire ne le souhaitent pas ou choisissent soigneusement leur source d’information (plusieurs co-chercheurs mentionnent leur méfiance vis-à-vis d’Internet et une conscience de la singularité de leur cas).

Un nombre important de co-chercheurs mentionnent aussi l’appui qu’ils trouvent dans des formes de spiritualité et le développement de cette dimension spirituelle dans le cours de la maladie.

#### **Intérêt social :**

Alors que la plus grande partie des co-chercheurs fait état d'un sentiment de déshérence sociale et d'isolement, la recherche, dont la finalité est entre autres de rendre visible leur expérience, a permis de les valoriser et de valoriser leurs savoirs. Elle a aussi permis de les accompagner dans la construction d'un sentiment d'appartenance à une communauté (communauté d'expérience de la maladie, communauté de recherche).

Les co-chercheurs font état d'un sentiment de fierté lié à un sentiment d'utilité sociale que la maladie rend plus difficile à développer. La recherche est aussi l'occasion d'un moment de bilan sur leur parcours dont se dégagent des projets pour l'avenir : investissement associatif et/ou militant, formation professionnelle...

Par ailleurs les données produites dans le cadre de la recherche ont permis de mutualiser des pratiques et techniques mises en œuvre dans la gestion quotidienne de la maladie susceptibles de contribuer à l'amélioration de la qualité de vie des co-chercheurs.

La recherche pourrait contribuer à améliorer les actions de santé publique à partir des constats effectués et des préconisations qui en découlent :

- poursuivre les efforts de diffusions des informations qui permettraient un diagnostic et une orientation plus rapide vers les centres de référence.
- envisager et mettre en place des actions pour rompre l'isolement des patients : soutien aux proches, notamment pour permettre leur présence soutenue et régulière, en les aidant à surmonter les obstacles économiques, professionnelles et personnelles (aides financières, droit du travail, gestion du stress...) ; mise à disposition des patients de moyens de communication avec l'extérieur (tablettes ?) pendant l'hospitalisation.
- envisager et mettre en place des actions pour rompre l'isolement des patients : soutien aux proches, notamment pour permettre leur présence soutenue et régulière, en les aidant à surmonter les obstacles économiques, professionnelles et personnelles (aides financières, droit du travail, gestion du stress...) ; mise à disposition des patients de moyens de communication avec l'extérieur (tablettes ?) pendant l'hospitalisation.
- mieux informer sur la présence et l'action des associations dont une meilleure diffusion de leurs activités contribuerait à améliorer la qualité de vie des patients.
- améliorer la communication entre les différents acteurs impliqués : hôpital, administration, associations, personnes malades afin de produire de permettre la circulation des informations ; envisager la co-construction de support d'information adaptés ; impliquer les patients (formation de « patient-expert ») dans ces actions.

## Annexe 1

Échelle de mesure de l'estime de soi de Rosenberg :

- 1. Je pense que je suis une personne de valeur, au moins égale à n'importe qui d'autre.
- 2. Je pense que je possède un certain nombre de belles qualités.
- 3. Tout bien considéré, je suis porté à me considérer comme un raté.
- 4. Je suis capable de faire les choses aussi bien que la majorité des gens.
- 5. Je sens peu de raisons d'être fier de moi.
- 6. J'ai une attitude positive vis à vis moi-même.
- 7. Dans l'ensemble, je suis satisfait de moi.
- 8. J'aimerais avoir plus de respect pour moi-même.
- 9. Parfois je me sens vraiment inutile.
- 10. Il m'arrive de penser que je suis un bon à rien.