



UNIVERSITÉ DE NANTES

Unité de Formation et de Recherche de Médecine et des Techniques Médicales

Année Universitaire 2017 - 2018

## **Mémoire**

pour l'obtention du

### **Certificat de Capacité en Orthophonie**

**Le comportement alimentaire, à deux ans, des  
enfants opérés d'une atrésie de l'oesophage**

Présenté par Mme PHILIPPE Clara

Née le 22/09/1994

**Président du Jury** : Madame Esnault Anne, orthophoniste, chargée de cours.

**Directrice du Mémoire** : Monsieur Flamant Cyril, professeur, praticien hospitalier.

**Co-directeur du mémoire** : Madame Truquet Isabelle, orthophoniste.

**Membre du jury** : Madame Christine Nuez, orthophoniste, chargée de cours.

« Par délibération du conseil en date du 7 Mars 1962, la Faculté a arrêté que les opinions émises dans les dissertations qui lui seront présentées doivent être considérées comme propres à leurs auteurs et qu'elle n'entend leur donner aucune approbation ni improbation »

### **Engagement de non plagiat**

Je, soussignée Madame PHILIPPE Clara, déclare être pleinement consciente que le plagiat de documents ou d'une partie d'un document publiés sur toutes ses formes de support, y compris l'Internet, constitue une violation des droits d'auteur ainsi qu'une fraude caractérisée. En conséquence, je m'engage à citer toutes les sources que j'ai utilisées pour écrire ce mémoire.

Fait à : Nantes

Le : 10 Septembre 2017

Clara PHILIPPE

## Remerciements

Je tiens tout d'abord à remercier le Professeur Flamant pour son implication dans la réalisation de ce mémoire et Isabelle Truquet, orthophoniste, que j'ai accompagnée aux consultations d'atrésie de l'œsophage, m'ayant permis de rencontrer des patients ainsi que leur famille.

Je souhaite remercier la FIMATHO et particulièrement le Docteur Michaud pour l'étude de mon projet et la mise en relation avec les médecins référents des atrésies dans l'ensemble des centres hospitaliers.

Ensuite, je veux remercier l'ensemble des médecins ayant participé à l'étude et surtout tous les parents qui ont répondu au questionnaire.

Je remercie Mme Olivier pour son aide précieuse et Thierry pour la relecture.

De plus, je souhaite faire honneur à ma famille qui a été d'un soutien sans faille pendant ces cinq années d'étude, mais aussi à la famille Cloarec : votre joie de vivre est un véritable exemple.

Je remercie aussi Aurélien qui m'accompagne chaque jour et me soutient dans tous mes projets dont fait partie ce mémoire.

Je souhaite aussi remercier Anaëlle et Marine, je suis fière d'avoir passé cinq années avec vous. Nos moments passés ensemble m'ont beaucoup aidée à aborder cette formation sereinement. Et merci à Dorotheé, tes bons conseils et tes perspectives m'ont été d'une grande aide.

Pour terminer, je veux remercier toutes les personnes qui m'ont accompagnée pendant l'élaboration de ce projet et durant ces cinq années de formation.

<b>Index des tableaux et des figures</b> .....	<b>i</b>
<b>Glossaire des abréviations</b> .....	<b>ii</b>
<b>Introduction</b> :.....	<b>1</b>
<b>Cadre théorique</b> :.....	<b>2</b>
<b>1. L'atrésie de l'œsophage</b> :.....	<b>2</b>
1.1 Définition :.....	2
1.2 Classification :.....	2
1.2.1 Fistule trachéo-oesophagienne :.....	2
1.3 Epidémiologie :.....	3
1.4 Conséquences de l'atrésie :.....	3
1.5 Diagnostic :.....	3
1.5.1 Diagnostic anténatal :.....	3
1.5.2 Diagnostic postnatal :.....	4
1.5.3 L'absence de diagnostic :.....	4
1.6 Traitements et prise en charge :.....	4
1.6.1 Dès la naissance :.....	4
1.6.2 Chirurgie :.....	4
Généralités :.....	4
Temps de la chirurgie :.....	5
Temps post opératoire :.....	5
1.6.3 Prise en charge :.....	6
1.7 Devenir des enfants opérés :.....	6
1.7.1 Complications digestives :.....	6
1.7.2 Complications respiratoires :.....	7
<b>2. L'alimentation</b> :.....	<b>7</b>
2.1 Généralités :.....	7
2.1.1 Facteurs interagissant avec l'alimentation :.....	8
2.1.2 Etapes du développement de l'alimentation :.....	8
2.2 L'oralité :.....	9
2.2.1 Aspects développementaux :.....	9
2.2.2 Aspects psychiques :.....	10
2.3 Les troubles de l'oralité alimentaire :.....	11
2.3.1 Dysoralité :.....	11
2.3.2 Origine :.....	11
2.3.3 Les signes :.....	11
2.3.4 Les facteurs favorisant l'apparition de troubles de l'oralité alimentaire :.....	12

2.3.5 La prise en charge des troubles de l'oralité : .....	12
2.4 Le comportement alimentaire de l'enfant à deux ans : .....	13
<b>3. L'alimentation des enfants AO : .....</b>	<b>13</b>
3.1 L'oralité chez les enfants AO : .....	13
3.2 Raisons de l'étude : .....	14
3.3 Hypothèses de l'étude : .....	15
<b>Méthodologie : .....</b>	<b>17</b>
<b>1. Population étudiée : .....</b>	<b>17</b>
1.1 Critères d'inclusion : .....	17
1.2 Critères d'exclusion .....	17
1.3 Constitution de la cohorte .....	17
1.4 Description de la population : .....	18
<b>2. Population « témoin » : .....</b>	<b>19</b>
<b>3. Outils : .....</b>	<b>19</b>
3.1 Le questionnaire en ligne : .....	19
3.1.1 Le QCAJE : .....	19
Choix du questionnaire : .....	20
Interprétation des scores : .....	20
3.1.2 Questions supplémentaires : .....	22
Information reçue pendant l'hospitalisation : .....	22
Prévention des TOA pendant l'hospitalisation : .....	22
Prise en charge des TOA après l'hospitalisation : .....	22
3.2 Informations recueillies : .....	23
<b>4. Procédure : .....</b>	<b>23</b>
4.1 Contact avec la cohorte .....	23
4.2 Taux de réponse : .....	24
4.3 Recueil des données .....	24
<b>5. Analyse statistique : .....</b>	<b>25</b>
5.1 Variables étudiées : .....	25
5.2 Analyse qualitative : .....	25
5.3 Analyse quantitative : .....	26
5.3 .1 Rappels sur les tests statistiques : .....	26
5.3.2 Analyse de la prévention, l'information et la prise en charge des troubles de l'oralité : .....	26
5.3.3 Analyse des facteurs périnataux : .....	26
Variables qualitatives binaires : .....	26
Variables quantitatives : .....	27
5.3.4 Analyse comparative des populations étudiées : .....	27

<b>6. Ethique :</b> .....	<b>28</b>
<b>7. Synthèse :</b> .....	<b>29</b>
<b>Résultats :</b> .....	<b>30</b>
<b>1. Données relevées :</b> .....	<b>30</b>
1.1 Données de naissance : .....	30
1.2 Données concernant l'atrésie de l'œsophage : .....	30
1.3 Données chirurgicales : .....	30
1.4 Données concernant l'équipement médical : .....	30
1.4.1 Equipement respiratoire : .....	30
1.4.2 Equipement digestif : .....	31
1.5 Données concernant l'alimentation : .....	31
<b>2. Analyse qualitative :</b> .....	<b>31</b>
2.1 Rappels pour l'analyse des résultats : .....	31
2.2 Le QCAJE : .....	31
2.2 Les questions supplémentaires.....	32
2.2.1 Actes préventifs pendant l'hospitalisation : .....	32
2.2.2 Information reçue pendant l'hospitalisation : .....	32
2.2.3 La prise en charge des TOA après l'hospitalisation .....	32
Qui propose le suivi ?.....	33
2.2.4 Différences de suivi et de PEC des TOA par villes : .....	33
<b>3. Analyse quantitative :</b> .....	<b>33</b>
3.1 Analyse de la prévention, l'information et la prise en charge des TOA : .....	33
3.1.1 Comparaisons pour les différents domaines du QCAJE : .....	33
3.1.2 Test d'indépendance : .....	33
3.2 Analyse des facteurs périnataux.....	34
3.2.1 Variables binaires .....	34
Néophobie .....	34
Sélectivité.....	34
Petit appétit .....	34
Faible intérêt.....	34
3.2.2 Variables quantitatives.....	35
3.3 Analyse des moyennes au QCAJE : .....	35
3.3.1 Comparaison des populations : .....	35
3.3.2 AOT – OPALINE (nés à terme).....	36
3.3.3 AOP – POLYNUCA (nés prématurément) .....	37
3.3.4 Synthèse : .....	37
<b>Discussion :</b> .....	<b>38</b>

<b>1. Synthèse des résultats :</b> .....	<b>38</b>
1.1 Rappel des hypothèses de l'étude : .....	38
1.2 Rappels des résultats obtenus : .....	38
1.3 Synthèse : .....	39
<b>2. Commentaire des résultats :</b> .....	<b>39</b>
2.1 Echantillon de l'étude : .....	39
2.2 L'information, la prévention et la prise en charge des TOA : .....	39
2.3 Les facteurs périnataux .....	41
2.3.1 Naissance : .....	41
2.3.2 Equipement médical : .....	41
2.3.3 L'atrésie de l'oesophage .....	42
2.3.4 L'alimentation : .....	43
2.4 Comparaison des scores du QCAJE des différents échantillons : .....	43
<b>3. Comparaison des résultats obtenus avec la publication de POLYNUCA :</b> .....	<b>44</b>
<b>4. Difficultés rencontrées :</b> .....	<b>45</b>
4.1 Constitution de la cohorte .....	45
4.2 Contact avec les parents : .....	45
<b>5. Critiques méthodologiques :</b> .....	<b>45</b>
5.1 Effet « mémoire » : .....	45
5.2 Le questionnaire : .....	46
5.2.1 Le QCAJE .....	46
5.2.2 Les questions supplémentaires .....	46
5.3 Comparaison des populations : .....	47
5.4 Données relevées : .....	47
<b>6. Points forts de l'étude :</b> .....	<b>47</b>
6.1 Intérêts pour la pratique orthophonique .....	48
6.2 Perspectives de recherche .....	48
<b>Conclusion</b> .....	<b>50</b>

## Index des tableaux et des figures

### Tableaux :

<i>Tableau 1 : Items et dimensions du QCAJE</i> .....	21
<i>Tableau 2 : Type d'équipement médical respiratoire et sa durée</i> .....	30
<i>Tableau 3 : Type d'équipement médical digestif et sa durée</i> .....	31
<i>Tableau 4 : Scores moyens aux différentes dimensions du QCAJE des enfants AO</i> .....	32
<i>Tableau 5 : Caractéristiques des échantillons AOT et AOP</i> .....	36
<i>Tableau 6 : Comparaison des scores moyens aux domaines du QCAJE pour les échantillons AOT et OPALINE</i> .....	36
<i>Tableau 7 : Comparaison des scores moyens aux domaines du QCAJE pour les échantillons AOP et POLYNUCA</i> .....	37

### Figures :

<i>Figure 1 : Dispersion de l'échantillon par centre hospitalier</i> .....	18
<i>Figure 2 : Modèle des difficultés de comportement alimentaire de l'enfant (traduit de : Rigal et al., 2012)</i> .....	22

## **Glossaire des abréviations**

AO : Atrésie de l'Oesophage

AOP : Atrésie de l'Oesophage nés Prématurément

AOT : Atrésie de l'Oesophage nés à Terme

CH : Centre Hospitalier

CRACMO : Centre de Référence des Affections Congénitales et Malformatives de l'oesophage

DS : Déviation Standard

FIMATHO : Filière des Malformations Abdomino-Thoraciques

FTO : Fistule Trachéo-Oesophagienne

HAS : Haute Autorité de Santé

OMS : Organisation Mondiale de la Santé

OPALINE : Observatoire des Préférences ALimentaires du Nourrisson et de l'Enfant

PEC : Prise En Charge

PNDS : Plan National De Soins

QCAJE : Questionnaire de Comportement Alimentaire du Jeune Enfant

RGO : Reflux Gastro Oesophagien

SA : Semaines d'Aménorrhée

SNG : Sonde Naso-Gastrique

TCA : trouble du comportement alimentaire

TOA : Trouble de l'oralité alimentaire

## **Introduction :**

L'atrésie de l'œsophage est une pathologie malformative congénitale qui provoque une interruption de la continuité de l'œsophage avec ou sans fistule trachéo-oesophagienne (Renard & Prévot, 1964), (Spitz, 2007). Cette pathologie nécessite une chirurgie dès les premiers jours de vie et les techniques chirurgicales permettent un taux de survie proche des 95 % (R. Sfeir et al., 2015). L'augmentation du taux de survie post opératoire implique que de nombreux patients vivent avec les conséquences de cette malformation : en particulier les difficultés d'alimentation (Baird et al., 2015), (Garabedian et al., 2014), (Gottrand et al., 2008).

Des études pilotes se sont intéressées au comportement alimentaire des enfants opérés d'une atrésie de l'œsophage et les auteurs ont constaté la présence de différents types de difficultés : lenteur, refus d'alimentation, toux, vomissement, (Baird et al., 2015), dysphagie (Mahoney & Rossen, 2016), (Lepeytre et al., 2013) altération qualitative et quantitative des repas (Conforti et al., 2015). L'ensemble de ces difficultés a une influence importante sur les repas, mais aussi sur la qualité de la relation parents-enfant (Ramsay & Birnbaum, 2013). Cependant, les études ne se sont pas intéressées aux thématiques suivantes : l'appétit, la néophobie ou la sélectivité liés à la nourriture.

La présente étude s'intéresse au comportement alimentaire à deux ans des enfants opérés d'une atrésie de l'œsophage et en particulier, en ce qui concerne quatre domaines : la néophobie, la sélectivité, l'intérêt pour la nourriture et l'appétit. Un questionnaire composé du QCAJE (Questionnaire du Comportement Alimentaire du Jeune Enfant) ainsi que de questions concernant la prise en charge orthophonique des troubles de l'oralité a été rempli par 83 parents composant la cohorte. Les réponses obtenues ont été confrontées à des données relevées dans les comptes-rendus d'hospitalisation afin de déterminer si un lien d'association existait avec le comportement alimentaire.

L'objectif de cette étude est d'améliorer la connaissance, en terme d'oralité, à propos des patients opérés d'une atrésie de l'œsophage afin de pouvoir leur prodiguer des soins adaptés à leurs besoins.

## **Cadre théorique :**

### **1. L'atrésie de l'œsophage :**

#### 1.1 Définition :

L'atrésie de l'œsophage (AO) est une pathologie malformative congénitale caractérisée par une interruption totale de la continuité de l'œsophage. La rupture de continuité forme deux « culs-de-sac » ou poches séparées par une distance (« défaut ») qui varie selon le type d'atrésie. La salive et les aliments avalés ne peuvent pas atteindre l'estomac et s'accumulent au niveau du cul-de-sac supérieur. L'atrésie est très souvent associée à une fistule trachéo-oesophagienne qui entraîne un risque élevé de fausse route. (Prévot & Renard, 1964), (Spitz, 2007), (Lecoufle, 2017)

#### 1.2 Classification :

Il existe différentes formes d'atrésies de l'œsophage qui ont été décrites dans de nombreuses classifications (Annexe 1). Ladd, Voght et Gross ont créé trois classifications complémentaires. Les classifications distinguent les atrésies selon les critères suivants : la présence ou non de fistule(s) et la localisation de celle(s)-ci.

##### *1.2.1 Fistule trachéo-oesophagienne :*

Une fistule est un « canal pathologique mettant en communication deux viscères (fistule interne) de manière anormale » (Kernbaum, 1991). Dans ce cas précis, il s'agit d'une communication entre la trachée et la partie supérieure ou inférieure de l'œsophage. (Mcheik, 2006)

D'après Sfeir et al. (2015), la forme d'AO la plus répandue est l'atrésie avec fistule oeso-trachéale du cul-de-sac inférieur (Type III) qui représente entre 86 % et 88 % (Sfeir et al., 2015) des AO. Dans l'atrésie de type III, l'œsophage proximal (supérieur) se termine au niveau de la vertèbre D3-D4 alors que la partie inférieure est abouchée à la trachée par ce qu'on nomme la fistule oeso-trachéale. (Mcheik, 2006). Ce mémoire, utilisera la classification de Ladd (Ladd, 1947).

### 1.3 Epidémiologie :

L'AO est la pathologie de l'œsophage la plus fréquente (90 %). Cependant, elle reste une pathologie rare : la prévalence française est estimée entre 1/2500 à 1/4000 naissances vivantes par an (PNDS, 2008). Les garçons sont légèrement plus concernés que les filles par l'atrésie avec un sex-ratio à 1,35 (Sfeir, 2013).

Dans la moitié des cas, les atrésies sont associées à d'autres malformations : cardiovasculaires, squelettiques, urinaire, digestive... (Sfeir et al., 2013) (Annexe 2). De plus, 7 à 8 % des enfants porteurs d'atrésie présentent le syndrome VACTERL dans lequel on retrouve au moins trois des malformations suivantes : Vertèbres (V), Anorectale (A), Cardiaque (C), atrésie de l'œsophage avec fistule trachéo-oesophagienne (TE), Rein (R), extrémités (L pour *Limb*) (Mcheik, 2006).

### 1.4 Conséquences de l'atrésie :

Dès leur naissance, les nourrissons ont la capacité de déglutir (salive, lait). La discontinuité oesophagienne congénitale empêche le transport de la salive ou de tout autre aliment jusqu'à l'estomac rendant l'alimentation impossible. En effet, le liquide stagne dans le cul-de-sac oesophagien supérieur et peut créer des fausses routes secondaires par débordement ou par la fistule trachéo-oesophagienne. Le risque immédiat pour le nourrisson est la pneumopathie d'inhalation : la salive est donc aspirée par sonde dès le diagnostic posé. (Lecoufle, 2017).

### 1.5 Diagnostic :

#### *1.5.1 Diagnostic anténatal* :

D'après Garabedian et al., (2014), moins de 50 % des AO bénéficient d'un diagnostic anténatal. Les signes de la présence d'une atrésie sont : l'hydramnios (le fœtus ne peut déglutir le liquide amniotique qui s'accumule dans la poche utérine (Conforti, 2015)), un estomac petit ou absent (Laugier et al, 2009). Le diagnostic anténatal permet de rechercher la présence éventuelle d'autres malformations, mais aussi d'anticiper la naissance en prévoyant l'accouchement à proximité d'un centre de référence.

### *1.5.2 Diagnostic postnatal :*

D'après Gold et al. (2006), le diagnostic est posé en salle de naissance grâce à l'introduction d'une sonde dans l'œsophage pour vérifier la présence ou non d'une interruption de l'œsophage. Si la sonde bute, il s'agit probablement d'une AO et un examen radiologique permet alors de confirmer le diagnostic clinique. Le diagnostic doit être réalisé le plus rapidement possible pour poser une sonde permettant d'aspirer la salive afin de protéger les poumons des fausses routes.

Dans certains cas, le diagnostic est posé plus tardivement par l'observation d'une hypersialorrhée, car le nourrisson n'est pas en capacité de déglutir sa salive (le réflexe de déglutition est activé, mais la malformation ne permet pas la déglutition) (Conforti, 2015).

### *1.5.3 L'absence de diagnostic :*

D'après Gold (2006) et Laugier (2009), l'absence de diagnostic précoce aurait pour conséquences l'impossibilité d'alimentation et l'inondation trachéo-bronchique (à cause des nombreuses fausses routes salivaires) avec un risque élevé de pneumopathie d'inhalation.

## 1.6 Traitements et prise en charge :

### *1.6.1 Dès la naissance :*

Dès le diagnostic, l'enfant doit être transféré dans une unité médico-chirurgicale néonatale avec la mise en place d'une aspiration pharyngée intermittente ou permanente (l'intubation trachéale n'est pas systématique). Ensuite, la radiographie permet de confirmer le diagnostic, de préciser la longueur du défaut et la présence d'une FTO (Gold et al., 2006).

### *1.6.2 Chirurgie :*

#### Généralités :

Dans 80 à 85 % des cas, l'enfant est opéré le premier jour de vie (Lecoufle, 2017). L'intervention chirurgicale est indispensable pour rétablir la continuité de l'œsophage grâce à une anastomose de l'œsophage avec correction des fistules éventuelles. L'anastomose est une « mise en communication artificielle de conduits tels que le tube digestif », dans ce cas, il

s'agit d'une mise en communication des deux culs-de-sac oesophagiens (Dictionnaire de Médecine, Kerbaum 1991)

Le taux de survie de la chirurgie est situé entre 90 % et 94 % (Sfeir et al., 2015) et atteint les 100 % quand il n'y a pas d'anomalie associée à l'AO (Garabedian et al., 2014). Ce taux est étroitement lié au poids de naissance et à la présence d'une malformation cardiaque (Spitz, 2007). Certains auteurs évoquent aussi que la santé du poumon et la possibilité d'une suture primitive appartiennent aux facteurs de bon pronostic. (Gold et al., 2006).

Enfin, Garabedian et al (2014) décrivent différents facteurs de bon pronostic : AO de type III, poids de naissance supérieur à 1,5 Kg et absence de malformations associées.

#### Temps de la chirurgie :

La chirurgie est réalisée dans les heures qui suivent la naissance lorsque le défaut n'est pas trop important et une sonde nasogastrique est posée pendant cette chirurgie.

Dans les cas d'atrésie à long défaut (10 %), il faudra attendre la croissance de l'enfant pour intervenir. Pendant cette période d'attente, une intervention chirurgicale permet de poser une gastrostomie pour alimenter l'enfant et la sonde d'aspiration est maintenue en permanence pour protéger l'état pulmonaire. (Laugier et al., 2009 ; Gold, 2006)

#### Temps post opératoire :

Deux jours après la chirurgie, l'enfant est alimenté par la sonde nasogastrique. L'aspiration pharyngée est arrêtée au quatrième jour post opératoire et une alimentation au biberon est proposée au huitième jour post opératoire si les résultats du contrôle radiologique l'autorisent (Laugier et al., 2009 ; Gold, 2006). Le temps d'hospitalisation moyen d'un enfant opéré le premier jour de vie d'une AO à défaut court est de deux à trois semaines, mais peut varier en fonction des complications ou malformations associées (Lecoufle, 2017).

### *1.6.3 Prise en charge :*

Un calendrier de suivi a été établi pour les enfants opérés d'une AO afin de surveiller leur évolution médicale, psychologique, motrice.... Mais aussi prendre en charge les éventuelles complications post opératoires ou liées à la pathologie (Annexe 3)

Le suivi à long terme est essentiel, car bien que le taux de survie et le pronostic soient bons, des complications à distance nécessitant une surveillance pluridisciplinaire sont fréquemment observées (RGO, dysphagie, retard de croissance, difficultés respiratoires ...) (Garabedian et al., 2014).

Le suivi médical et chirurgical recommandé par l'HAS est respecté dans l'ensemble des centres français destinés à accueillir les enfants avec atrésie (Lepeytre et al., 2013). Cependant, les recommandations concernant le suivi paramédical (dont le suivi orthophonique) ne sont pas respectées. En effet, seulement deux des trente-huit centres français sont pourvus d'orthophonistes.

## 1.7 Devenir des enfants opérés :

Dans leur étude de 2008, Gottrand et al s'intéressent au devenir des enfants opérés d'une AO. Ils constatent que, malgré le bon pronostic suite à la chirurgie réparatrice de l'œsophage, le taux de complications à long terme est important. La fréquence de ces complications à distance de la chirurgie justifie une prise en charge à long terme des patients.

### *1.7.1 Complications digestives :*

Une anomalie de la motricité œsophagienne (dyskinésie œsophagienne), s'ajoutant à la présence éventuelle d'une sténose de l'anastomose, est observée chez la plupart des patients opérés. En effet, on note une contraction moins importante et un apéristaltisme au niveau de l'anastomose, et de ce fait, l'œsophage se remplirait par gravité (Rintala, 2009). Cette dysmotilité œsophagienne peut provoquer une arrivée brutale des aliments dans l'intestin (« Dumping syndrome ») ou un blocage des aliments dans l'œsophage (impaction alimentaire).

Une dysphagie (Faure & Righini Grunder, 2017) et des troubles de l'alimentation chez les enfants opérés d'une AO (Conforti et al., 2015 ; Mahoney et al., 2016) sont fréquemment observés chez les patients opérés d'une AO.

Enfin, un reflux gastro-oesophagien (RGO) correspondant à « la remontée du contenu gastrique dans l'oesophage » est retrouvé dans 25 à 75% des cas (contre 32% chez les nourrissons de moins de 1 an, 10 % chez les moins de 18 ans) (Gottrand, 2009).

### *1.7.2 Complications respiratoires :*

Une trachéomalacie qui est « une anomalie structurale des cartilages trachéaux entraînant un collapsus des parois et une obstruction des voies aériennes » est retrouvée dans 70 à 82 % des cas d'AO. (Sudre-Levillain et al., 2001). Elle peut être responsable d'apnées réflexes (pendant ou après le repas) ainsi que d'infections bronchiques.

De plus, la fistule trachéo-oesophagienne peut récidiver provoquant une toux, des fausses routes, des cyanoses lors des repas et, à terme, des pneumopathies répétées (Gottrand, 2008)

Malgré ces complications, la qualité de vie semble équivalente à la population générale chez la plupart des patients opérés. Et ce sont les symptômes causés par les difficultés pulmonaires, la dyskinésie oesophagienne ainsi que les troubles alimentaires qui seraient susceptibles de diminuer la qualité de vie (Rintala et al., 2009). Il semble donc important de s'intéresser à l'alimentation des enfants opérés d'une atrésie de l'oesophage.

## **2. L'alimentation :**

### 2.1 Généralités :

L'alimentation est un acte physiologique et dynamique qui dépend de la structure anatomique ainsi que de la fonction de déglutition. Abadie (2004) explique que les deux principaux acteurs d'une alimentation réussie sont : la sphère oro-digestive anatomiquement saine ainsi que des capacités affectives et neurologiques permettant son fonctionnement.

De plus, l'acte alimentaire a une importance capitale, car il permet l'apport nutritif nécessaire à la croissance de l'enfant et son bon déroulement permet la protection des voies respiratoires (Stevenson et al., 1991).

D'après Puech & Vergeau (2004), le comportement alimentaire de l'enfant se développe en lien avec son développement neurologique, sensori-moteur et psychoaffectif entre la 10<sup>ème</sup> semaine de grossesse et la sixième année de vie (réflexes archaïques -> actes volontaires -> automatismes).

### *2.1.1 Facteurs interagissant avec l'alimentation :*

L'alimentation est soumise à des influences interpersonnelles et culturelles :

- ➔ Facteurs parentaux ou familiaux : état de santé, éducation, personnalité, état émotionnel, support familial, économie
- ➔ Facteurs liés à l'enfant : structure anatomique, physiologie, développement psychomoteur, tempérament, statut nutritionnel, statut sanitaire
- ➔ Autres facteurs : culture, rencontre avec les aliments, professionnels rencontrés.

Tous ces facteurs sont en interaction constante et influencent le développement alimentaire de l'enfant. (Stevenson et al., 1991)

### *2.1.2 Etapes du développement de l'alimentation :*

L'alimentation du nouveau-né évolue en parallèle de ses capacités motrices et fonctionnelles, mais aussi en fonction de ses besoins nutritionnels, selon les étapes suivantes :

- Alimentation lactée exclusive : L'OMS recommande de ne présenter qu'une alimentation lactée jusqu'aux 4 mois révolus de l'enfant (Rudolph & Link, 2002), période pendant laquelle l'enfant ne dispose que des mouvements linguaux antéropostérieurs.
- Diversification alimentaire : entre le 4<sup>ème</sup> et le 6<sup>ème</sup> mois, lorsque les apports nutritionnels du lait ne suffisent plus à répondre aux besoins de l'enfant. La diversification alimentaire est étroitement liée aux capacités motrices et structurelles de l'enfant. En effet, à l'âge de 4 mois, l'apparition des mouvements latéraux de la langue permet la manipulation du bolus (Rudolph & Link, 2002).
- Passage à la cuillère (4 – 6 mois)
- Semi-liquide et mixé : début du malaxage entre 6 et 9 mois (Puech et al., 2004)

- Solide mou puis solide dur : 18 – 24 mois, les mouvements rotatifs de la mandibule et les mouvements linguaux latéraux permettent le broyage efficace du bolus.

## 2.2 L'oralité :

L'oralité est une notion qui a d'abord été utilisée par la psychanalyse. Aujourd'hui, elle est définie comme correspondant à « l'ensemble des fonctions orales, dévolues à la bouche » (Abadie, 2004). La respiration, la relation, la nutrition (déglutition et mastication) ainsi que l'expression (mimique et phonation) sont les fonctions orales qui ont un rôle capital dans la vie de l'enfant (Thibault, 2007). L'oralité met en jeu des structures sensori-motrices, neurologiques internes, digestives et centrales. Elle recouvre à la fois les capacités alimentaires (oralité alimentaire) et langagières (oralité verbale).

L'alimentation est donc une des fonctions que recouvre l'oralité : on parle d'oralité alimentaire. Les autres fonctions de la bouche telles que le langage (oralité verbale) ne seront pas traitées dans ce mémoire.

### 2.2.1 *Aspects développementaux* :

L'oralité alimentaire se développe en deux étapes : l'oralité primaire puis l'oralité secondaire.

Les compétences orales se développent dès les premières semaines de vie intra-utérine. En effet, à partir de la 8<sup>ème</sup> semaine de grossesse, le fœtus est capable de sucer et d'avaler. (Conforti et al., 2015) Le schème succion-déglutition réflexe va se renforcer tout au long de la grossesse, en effet, le fœtus déglutit jusqu'à 0,5 litre de liquide amniotique par jour en fin de grossesse. A la naissance le nourrisson est donc capable de déglutir le lait maternel de manière fonctionnelle (Abadie & Couly, 2013).

Cette période correspond à l'oralité primaire dite réflexe, automatique et involontaire contrôlée par le tronc cérébral (Abadie & Couly, 2013).

A l'âge de 5 - 6 mois, les capacités en jeu dans l'alimentation se corticalisent (la déglutition n'est plus seulement réflexe et l'enfant commence à contrôler son déclenchement grâce au cortex frontal), la phase orale devient volontaire et relève des capacités praxiques de l'enfant, ce qui marque l'entrée dans l'oralité secondaire (Abadie, 2004). Du point de vue

anatomique, l'apparition des premières dents (à partir de 6 mois), la descente du larynx, l'augmentation de la taille de la cavité buccale et l'absence de contact entre le voile du palais et l'épiglotte offrent plus de liberté intrabuccale à l'enfant et lui demande aussi plus de contrôle (Thibault, 2007).

Le schème moteur de succion sera ensuite remplacé par celui de la mastication avec l'apparition des mouvements linguaux latéraux. La mastication sera mature lorsque l'enfant aura 4 ans (Abadie & Couly, 2013).

Conforti et al. (2015) décrivent une « fenêtre » ou « période critique » qui correspond aux deux premières années de vie pendant lesquelles les habiletés alimentaires de l'enfant se construisent. Une absence d'alimentation et/ou des stimuli négatifs pendant cette période pourraient donc altérer la mise en place des habiletés alimentaires. Ainsi, « un manque d'expérience alimentaire au cours de la période critique du développement entraîne une grande difficulté à maîtriser les compétences alimentaires » (Rudolph & Link, 2002)

### *2.2.2 Aspects psychiques :*

L'oralité primaire correspond à la période pendant laquelle l'enfant traite des informations sensorielles en alternant entre le plaisir et le déplaisir. Il investit la « sphère oro-digestive comme un lieu de plaisir, découverte sensorielle et progressivement d'échanges ». Certaines expériences négatives (RGO, chirurgie, sonde...) peuvent nuire à l'investissement de cette zone.

L'oralité secondaire est la période pendant laquelle l'enfant découvre alors son pouvoir d'influence sur ses parents et son environnement lorsqu'il s'agit de manger. En effet, il provoque du plaisir chez ses parents lorsqu'il mange bien et un stress, une culpabilité, lorsqu'il refuse de manger.

L'alimentation permet d'abord de combler un des besoins vitaux (la faim) et devient peu à peu une distraction, un attrait, un mode relationnel avec son environnement. (Abadie, 2004)

## 2.3 Les troubles de l'oralité alimentaire :

### 2.3.1 *Dysoralité :*

Le terme de dysoralité recouvre « l'ensemble des difficultés alimentaires par voie orale ». Il peut s'agir de troubles par absence de comportement spontané d'alimentation, ou par refus d'alimentation, et de troubles qui affectent l'ensemble de l'évolution psychomotrice, langagière et affective de l'enfant (Thibault, 2007).

On note une fréquence importante de ces types de troubles chez les enfants entre 0 et 3 ans qui s'élève à 25 % (Dudebout, 2016). Les troubles de l'oralité représentent un enjeu important, car, au-delà de leur possible impact sur le développement et la croissance de l'enfant, car ils peuvent réduire les apports caloriques et avoir des conséquences psychologiques chez l'entourage (sentiment de culpabilité, anxiété, conflit...).

### 2.3.2 *Origine :*

L'origine, les signes ainsi que la sévérité des troubles de l'oralité sont variables d'un enfant à l'autre. Les principales causes évoquées par Abadie (2004), sont la présence d'une pathologie organique, d'une prématurité et/ou d'une alimentation artificielle. D'autres auteurs tendent à classer les troubles de l'oralité selon des causes organiques, neurologiques, et psychogènes. (Senez, 2015)

Thibault (2007) classe les TOA selon des causes organiques ou psychogènes :

- Causes organiques :
  - Secondaire à une pathologie digestive ou extra-digestive
  - Anomalies congénitales ou acquises de la déglutition
- Causes psychogènes : on retrouve des TOA post-traumatiques qui sont fréquemment liés à la prématurité, une réanimation néonatale, une nutrition artificielle prolongée, une anomalie du tube digestif...

### 2.3.3 *Les signes :*

D'après Michaud et al. (2008), les signes d'un trouble de l'oralité peuvent se classer en trois catégories :

- Les troubles praxiques : fausses routes, bavage, hypotonie, difficultés de succion, de passage à la cuillère, d'acquisition de la mastication.
- Les troubles sensoriels : hyper ou hyposensibilité (orofaciale, tactile, olfactive, visuelle), hypernauséux.
- Les troubles comportementaux : néophobie, manque d'intérêt pour la nourriture, peur d'avaler ou d'étouffer, anxiété au moment des repas, sélectivité alimentaire, faible appétit.

Ces listes ne sont pas exhaustives et d'après Elsa Bandelier (2015), orthophoniste, il faut aussi prendre en compte les manifestations « médicales » telles que les vomissements, le RGO, les infections, les allergies...

Ce mémoire s'intéresse particulièrement aux aspects comportementaux de l'oralité.

#### *2.3.4 Les facteurs favorisant l'apparition de troubles de l'oralité alimentaire :*

Certains éléments du parcours de vie de l'enfant semblent représenter des facteurs de risque d'apparition d'un trouble de l'oralité. Parmi ceux-ci, on note : l'absence d'alimentation orale et de stimulation bucco faciale, les stimuli désagréables ou douloureux de la sphère oropharyngée, la présence d'une sonde nasogastrique, une hospitalisation en période néonatale, le stress des parents vis-à-vis de l'alimentation... (Michaud, 2008). D'après l'étude de Dubebout et al. (2016), certains facteurs favoriseraient de manière significative l'apparition de TCA : les antécédents de pathologies néonatales, les modalités d'accouchement (césarienne), les antécédents familiaux en terme de TCA, les pathologies cardiaques ou digestives, la présence d'un RGO ou d'un traitement inhibiteur de la pompe à protons.

D'après Migraine et al. (2013), un faible poids de naissance augmenterait de 19 à 80 % le risque de difficultés alimentaires lors de la sortie de la maternité.

#### *2.3.5 La prise en charge des troubles de l'oralité :*

D'après Dubebout et al. (2016), Michaud et al. (2008) et Lecoufle (2017), la prise en soin des troubles de l'oralité doit être réalisée par une équipe pluridisciplinaire et s'articule à la fois autour de l'oralité et du soutien parental. L'équipe peut être constituée d'un pédiatre, psychologue ou psychiatre, nutritionniste, orthophoniste, psychomotricien...

#### 2.4 Le comportement alimentaire de l'enfant à deux ans :

D'après Rigal et al. (2012), les difficultés alimentaires apparaissent en général vers deux ans. Cette période correspond notamment au début de la néophobie alimentaire. Celle-ci est décrite comme la réticence à manger ou l'évitement de nouveaux aliments (Dovey, source primaire Birch & Fischer, 1998). Ce processus serait initialement présent chez tous les enfants, à moindre mesure, leur permettant de se protéger en évitant l'ingestion de produits nocifs ou toxiques de leur environnement. Les enfants peuvent alors rejeter les aliments qu'ils n'ont jamais goûtés.

De plus, les enfants nés prématurément ont plus de difficultés du comportement alimentaire à deux ans que les enfants nés à terme. (Migraine et al., 2013)

### **3. L'alimentation des enfants AO :**

#### 3.1 L'oralité chez les enfants AO :

D'après Rudolph & Link (2002), on observe des troubles sévères de l'alimentation chez 40 à 70 % des enfants nés prématurément ou souffrant d'une pathologie chronique dont fait partie l'atrésie de l'œsophage. En effet, les malformations anatomiques, rendant l'alimentation difficile ou inconfortable, peuvent entraîner des difficultés alimentaires même après la correction de la malformation initiale (la chirurgie modifie le schéma corporel et les orifices naturels sont l'objet de soins parfois invasifs).

D'après Ramsay et al. (2013), ces troubles alimentaires se manifestent par un ou plusieurs symptômes parmi les suivants : une dysphagie, un reflux gastro-œsophagien, des étouffements, le refus de manger, l'impaction alimentaire dans l'œsophage, une aversion orale, de longues heures de repas, des toux, des vomissements. Menzies et al. (2017) ajoutent que 72 % des enfants entre 0 et 2 ans opérés d'une AO ne mangent pas des textures adaptées à leur âge et leur développement (avec une introduction tardive des solides). Leduc (2012) et Vouters (2013), étudiantes en orthophonie, n'ont pas constaté de différence significative concernant l'âge auquel l'enfant commence à manger des morceaux. D'un point de vue qualitatif, elles ont conclu que les enfants opérés d'une AO faisaient face à de réelles difficultés lors du passage aux morceaux et lorsqu'il s'agissait de manger certaines textures.

Les difficultés alimentaires sont plus fréquentes au cours des deux premières années de vie chez les enfants opérés d'une atrésie de l'œsophage (Puntis et al., 1990). En effet, les événements négatifs (toux, vomissement, étouffement, impaction...) peuvent retarder l'acquisition des compétences et diminuer l'intérêt pour l'alimentation. (Menziez et al., 2017)

D'après Lecoufle (2017), plus le défaut entre les deux culs-de-sacs est important plus la chirurgie est réalisée tardivement, repoussant ainsi l'introduction de l'alimentation orale. Ce temps sans alimentation orale ainsi que les expériences orales négatives et dystimulantes majorent l'installation de troubles de l'oralité.

D'après Lecoufle (2012), les difficultés décrites apparaissant avant ou après la chirurgie peuvent être liées à l'anatomie de l'œsophage, à des raisons d'ordre médical, ou encore à l'anxiété parentale et appartiennent aux troubles de l'oralité alimentaire.

### 3.2 Raisons de l'étude :

La plupart des auteurs s'intéressent au devenir médical, digestif (notamment lié au reflux), respiratoire des enfants opérés d'une AO, mais les études concernant leur comportement alimentaire sont restreintes. En effet, plusieurs auteurs se sont penchés sur l'oralité alimentaire des enfants opérés d'une atrésie, mais aucune étude ne s'est intéressée à la sélectivité alimentaire, la néophobie ou l'intérêt pour la nourriture. L'extrême sélectivité alimentaire a été soulevée chez les enfants opérés d'une AO dans l'étude de Menziez (2017), mais tous ces enfants avaient une gastrostomie au moment de l'étude, leur alimentation principale était par voie entérale. Grâce au QCAJE, le comportement alimentaire, à 2 ans, est exploré afin de répondre à la problématique suivante : les enfants opérés d'une atrésie de l'œsophage ont-ils un comportement alimentaire différent de celui des enfants nés à terme et des enfants prématurés indemnes de toute pathologie ?

La prévention et la prise en charge des troubles de l'oralité chez les enfants opérés d'une pathologie digestive en période néonatale doivent être une priorité et commencer le plus précocement possible (Michaud, 2008). Or, la prévention, l'évaluation et la prise en charge des troubles de l'oralité font partie intégrante des compétences de l'orthophoniste. En effet, l'avenant 16 à la convention nationale a permis de créer officiellement un acte de bilan et de prise en charge pour cette pathologie. Les orthophonistes seront donc amenés à prendre

en charge de manière plus fréquente les troubles de l'oralité (Avenant n°16 à la convention nationale, 2017). Audrey Lecoufle, orthophoniste au centre de référence des malformations de l'œsophage (CRACMO) décrit l'importance de cet accompagnement. La prévention et la prise en charge des troubles de l'oralité sont indispensables, car les facteurs de risque d'apparition de ces troubles sont très nombreux et multifactoriels chez les patients opérés d'une AO. (Lecoufle, 2017)

Cependant, les recommandations en terme de suivi paramédical des enfants AO (dont l'orthophonie fait partie) ne sont pas respectées (Lepeytre et al., 2013). La finalité de ce mémoire est de permettre aux orthophonistes et aux autres professionnels de santé prenant en charge l'AO, d'améliorer leurs connaissances de cette pathologie dans l'intérêt des patients, de leurs parents.

### 3.3 Hypothèses de l'étude :

Les hypothèses (H) de l'étude sont les suivantes :

- H1 : Les enfants opérés d'une atrésie de l'œsophage auraient plus de difficultés de comportement alimentaire (à 2 ans) que les enfants nés à terme et les enfants prématurés indemnes de toute pathologie.
- H2 : Certains facteurs périnataux seraient associés au comportement alimentaire des enfants avec une AO.
  - Les enfants ayant un équipement médical pendant une durée prolongée seraient plus affectés par les TCA.
  - Les enfants ayant un Z score (poids de naissance) inférieur ou égal à - 1 auraient plus de difficultés de comportement alimentaire.
  - Une reprise de l'alimentation per os tardive serait corrélée avec les difficultés de comportement alimentaire.
  - Les filles auraient plus de difficultés de comportement alimentaire que les garçons.
- H3 : Certaines données concernant l'atrésie seraient associées aux difficultés de comportement alimentaire :
  - Les enfants ayant des malformations associées à l'atrésie auraient plus de difficultés alimentaires que les autres enfants AO.
  - Les enfants AO opérés tardivement auraient plus de difficultés alimentaires.

- H4 : Les enfants opérés d'une atrésie de l'œsophage ont des besoins en termes de prise en charge des troubles de l'oralité alimentaire.
- H5 : Les enfants AO nés prématurément auraient plus de difficultés du comportement alimentaire que ceux nés à terme.

## **Méthodologie :**

### **1. Population étudiée :**

#### 1.1 Critères d'inclusion :

Ont été inclus les enfants opérés d'une AO entre le 1<sup>er</sup> janvier 2014 et le 1<sup>er</sup> janvier 2016. Les enfants inclus devaient avoir 2 ans (révolus) au moment de l'étude.

La cohorte de cette étude est constituée de 83 enfants opérés d'une atrésie de l'œsophage.

#### 1.2 Critères d'exclusion

Les enfants nés avec une atrésie de l'œsophage, pendant la période cible, mais n'ayant pas survécu, n'ont pas été inclus.

#### 1.3 Constitution de la cohorte

Chaque enfant né avec une AO est enregistré dans la banque de données de la Filière de santé des Malformations Abdomino-Thoraciques (FIMATHO). La FIMATHO est un registre national mettant en relation différents acteurs et associations destinés à la recherche et la prise en charge des patients ayant une malformation abdomino-thoracique. Le projet de recherche a été soumis au comité de recherche de la FIMATHO qui l'a étudié et validé.

La FIMATHO a transmis un fichier contenant une liste anonyme des enfants nés en France avec une AO classée par centre hospitalier ainsi que les contacts de tous les médecins référents des atrésies en France.

Chaque médecin référent a été averti de l'étude par mail. Les centres hospitaliers qui ont répondu à ce mail sont les suivants : Amiens, Angers, Bordeaux, Brest, Caen, Grenoble, Lille, Montpellier, Nantes, Paris Debré, Rennes, Strasbourg.

Les médecins nous ont fourni le contact de leur secrétariat afin d'obtenir les coordonnées des parents d'enfants nés avec une AO. Les parents ont ensuite été contactés par

téléphone pour leur proposer de participer à l'étude. Une liste contenant le nom des parents souhaitant participer a ensuite été fournie à chaque centre hospitalier afin d'obtenir les comptes-rendus d'hospitalisation initiale.

La procédure de constitution de la cohorte est décrite dans le diagramme de flux en annexe (Annexe 4).

#### 1.4 Description de la population :

La population de l'étude est composée de 83 parents d'enfants opérés d'une AO dans l'un des 12 centres hospitaliers ayant répondu au mail de présentation de l'étude.

La distribution par centre est décrite dans le graphique suivant (Figure 1).

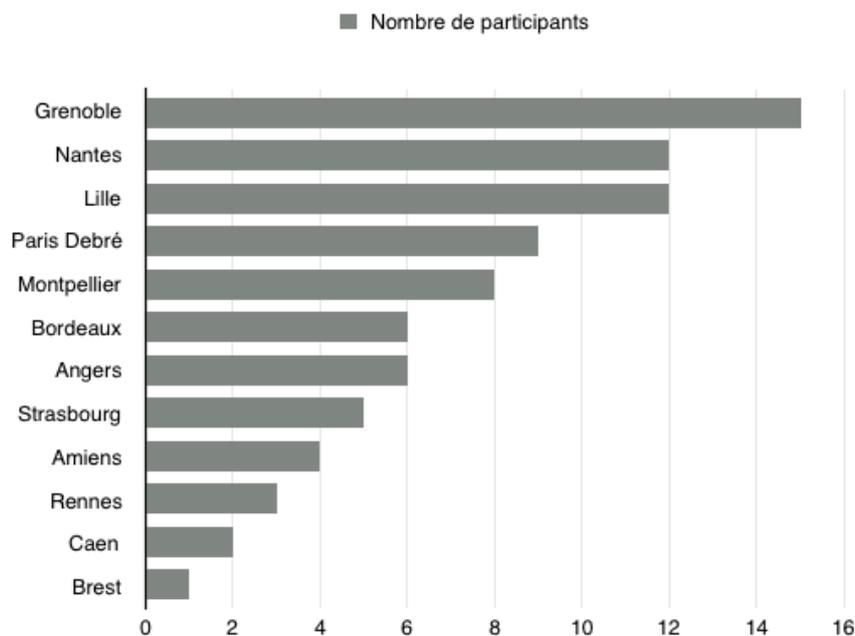


Figure 1 : Dispersion de l'échantillon par centre hospitalier

Les enfants inclus dans l'étude ont un âge moyen de 38 mois (DS = 7.7), soit environ 3 ans et 2 mois. 60 garçons (72,3 %) et 23 filles (27,7 %) ont été inclus dans l'étude.

## **2. Population « témoin » :**

Pour déterminer l'incidence des troubles du comportement alimentaire, à deux ans, chez les patients opérés d'une AO, leur profil a été comparé à celui des enfants nés à terme et des enfants prématurés indemnes de toute pathologie.

Les scores au questionnaire de cette étude ont été confrontés à ceux de la cohorte OPALINE de Dijon (enfants nés à terme) et ceux de la cohorte POLYNUCA (enfants nés prématurément).

La cohorte OPALINE est composée de 245 enfants nés à terme (Rigal et al., 2012) et la cohorte POLYNUCA est composée de 234 enfants nés prématurément (avant 33 semaines d'âge gestationnel) (Migraine et al., 2013).

## **3. Outils :**

### 3.1 Le questionnaire en ligne :

Le questionnaire à destination des parents est divisé en deux sections. La première correspond au Questionnaire de Comportement Alimentaire du Jeune Enfant (QCAJE) et la seconde à des questions concernant les troubles de l'oralité alimentaire. L'ensemble des questions sont obligatoires (les participants doivent répondre à toutes les questions avant de valider l'envoi du questionnaire).

Ce questionnaire a été diffusé par mail pour des raisons budgétaires et pour la rapidité de la diffusion et des retours des questionnaires. Cependant, les participants pouvaient répondre à ce questionnaire par voie postale s'ils le désiraient (cela n'a jamais été le cas).

Le serveur Google Forms a été choisi pour sa facilité d'utilisation et pour sa plateforme qui permet un suivi des réponses au questionnaire en temps réel.

#### *3.1.1 Le QCAJE :*

Les psychologues de l'UMR de Dijon ont dirigé l'enquête OPALINE (de Janvier 2005 à Juillet 2011) ayant pour but la compréhension de la formation du goût des enfants de leur naissance à 2 ans. Une de ces études consistait à déterminer l'influence des pratiques

nourricières maternelles sur les difficultés alimentaires des enfants à l'aide de quatre questionnaires.

L'un des quatre questionnaires utilisés est le QCAJE (Annexe 5). Ce questionnaire est rempli par les mères à propos de leur enfant de deux ans. Il évalue les quatre dimensions suivantes :

- « Néophobie alimentaire » : niveau d'aversion pour les nouveaux aliments.
- « Sélectivité » : niveau de diversité de l'alimentation.
- « Petit appétit » : niveau d'appétit de l'enfant
- « Faible intérêt pour la nourriture » : niveau d'attrait pour la nourriture, pour le moment du repas.

#### Choix du questionnaire :

Ce questionnaire a été choisi, car il a fait l'objet d'une validation sur un échantillon français ainsi que de plusieurs publications. De plus, ce questionnaire a été soumis à différentes populations, permettant ainsi de comparer les scores à ceux d'autres échantillons (nés à terme et prématurés).

#### Interprétation des scores :

Pour chaque item, le participant répond grâce à une échelle à cinq points qui va de « très faux » (1 point) à « très vrai » (5 points). Pour l'ensemble des dimensions étudiées, plus le score est élevé plus l'enfant présente des difficultés dans cette dimension :

- « néophobie » : plus le score est élevé plus l'enfant est néophobe.
- « sélectivité » : plus le score est élevé plus l'enfant est sélectif.
- « petit appétit » : plus le score est élevé plus l'enfant est un « petit mangeur ».
- « faible intérêt » : plus le score est élevé moins l'enfant est intéressé par la nourriture.

Chaque domaine contient un item dont le score est reversé (signalé par une croix dans le tableau 1) sauf le domaine « intérêt » qui est exclusivement composé d'items reversés (Rigal et al., 2012 ; Migraine et al., 2013).

	<b>Dimensions</b>	<b>Items</b>	<b>N° de l'item</b>	<b>Items reversés</b>
Répertoire étroit d'aliments	<b>Néophobie</b>	Mon enfant accepte spontanément de goûter les aliments qu'il ne connaît pas.	5	X
		Mon enfant fait la grimace quand on lui présente de nouveaux aliments.	8	
		Mon enfant rejette les aliments nouveaux, rien qu'en les voyant.	11	
	<b>Sélectivité</b>	Mon enfant aime beaucoup certains aliments et en rejette d'autres très fortement.	2	
		Mon enfant mange seulement une petite variété d'aliments.	6	
		Mon enfant accepte une grande variété de légumes.	10	X
Conduite alimentaire restreinte	<b>Petit appétit</b>	Mon enfant mange en petites quantités (même s'il aime ce qu'il mange).	4	
		Mon enfant est un petit mangeur (quel que soit ce qui est servi, bon ou mauvais).	7	
		Mon enfant a bon appétit	9	X
	<b>Faible intérêt</b>	Mon enfant est content à l'idée de passer à table	1	X
		Mon enfant est intéressé par la nourriture	3	X
		Mon enfant a du plaisir à manger	12	X

Tableau 1 : Items et dimensions du QCAJE

L'analyse statistique des précédentes publications a permis de décrire deux grandes caractéristiques des enfants ayant une difficulté alimentaire (dimensions « mères ») :

- Le répertoire étroit d'aliments : néophobie et sélectivité (élevées)
- La conduite alimentaire restreinte : appétit et intérêt (bas) (Figure 2).

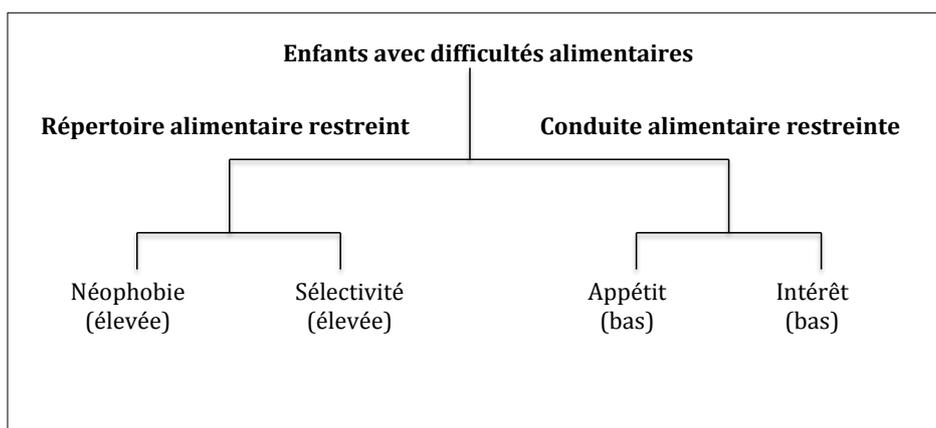


Figure 2 : Modèle des difficultés de comportement alimentaire de l'enfant (traduit de : Rigal et al., 2012)

### 3.1.2 Questions supplémentaires :

Certaines questions ont été ajoutées afin d'apprécier la prise en charge de l'oralité pendant et après l'hospitalisation de l'enfant.

#### Information reçue pendant l'hospitalisation :

D'après l'étude de Ramsay & Birnbaum (2013), seulement 45 % des parents sont informés, pendant l'hospitalisation de leur enfant, au sujet des difficultés d'alimentation. Les parents ont été interrogés afin de déterminer s'ils avaient reçu une information, et dans le cas échéant, qui avait proposé cette information. L'objectif était de déterminer si l'information reçue différait dans ce groupe, mais aussi de voir la corrélation de celle-ci avec les autres variables de l'étude.

#### Prévention des TOA pendant l'hospitalisation :

De même que pour la partie précédente, les parents ont été interrogés afin de déterminer si l'enfant avait bénéficié d'actes préventifs pour TOA et, le cas échéant, qui avait proposé cette prévention.

#### Prise en charge des TOA après l'hospitalisation :

Ces questions avaient pour objectif de mesurer si la prise en charge orthophonique des enfants était adaptée en fonction de la présence d'un trouble et si les parents avaient été orientés ou non vers un orthophoniste (ou un autre professionnel).

Pour ces trois domaines, des questions dichotomiques à réponse fermée (oui/non) ont été posées afin de savoir s'il y avait eu une information, une prévention et/ou une prise en charge. Puis, des questions à choix multiples ont été utilisées pour définir quel(s) professionnel(s) étai(en)t intervenu(s).

### 3.2 Informations recueillies :

Les données relevées dans les comptes-rendus d'hospitalisation sont les suivantes :

- Informations relatives à la naissance : sexe, date de naissance, terme, poids de naissance, mode d'accouchement, Apgar, primiparité ou non
- Informations relatives à l'atrésie : type, diagnostic anténatal ou post natal
- Informations relatives à la chirurgie : date, d'emblée ou non, avec ou sans tension
- Informations relatives aux soins : intubation à la naissance, SNG et durée, stomie, cathéter et durée
- Informations relatives à l'alimentation : date du début, type.

L'objectif du recueil de ces informations était de pouvoir déterminer leur impact éventuel sur le comportement alimentaire des enfants AO.

## **4. Procédure :**

### 4.1 Contact avec la cohorte

Les parents ont été contactés par téléphone pendant la période de novembre 2017 à février 2018 afin de leur présenter l'étude et leur proposer d'y participer. Ce premier contact avait pour but de présenter l'étude aux parents ainsi que d'obtenir leur adresse mail. Le premier appel était réalisé en semaine entre 18 h et 19 h 30. Ce créneau a été choisi afin d'optimiser les chances d'obtenir une réponse sans importuner le temps du repas. Si aucune réponse n'était donnée, un message vocal était laissé pour expliquer la raison de l'appel, si ce message vocal était sans réponse, un nouvel appel était réalisé trois jours plus tard. Cette procédure était réalisée à deux reprises. Si ces trois appels ne se soldaient par aucun contact direct, l'enfant n'était pas inclus dans l'étude.

Si la personne contactée acceptait de participer à l'étude, le questionnaire en ligne lui était envoyé le jour même par mail. Ce questionnaire était accompagné d'une présentation

de l'étude ainsi que d'un consentement éclairé (Annexes 6 et 7). Sept jours plus tard, un nouveau mail était envoyé si aucune réponse n'avait été fournie au questionnaire.

Ce questionnaire a été rempli par les parents à propos du comportement alimentaire de leur enfant à 2 ans (âgé de plus de deux ans au moment de remplir le questionnaire).

#### 4.2 Taux de réponse :

Le taux de participation et de réponse aux appels téléphoniques de chaque centre hospitalier est détaillé en Annexe 9. Au total, 66 % des personnes contactées ont renvoyé le questionnaire complété (Annexe 4).

#### 4.3 Recueil des données

L'ensemble des réponses récoltées a été transcrit dans un classeur Excel dans lequel chaque participant s'est vu attribuer un numéro d'anonymat.

Les réponses au QCAJE ont été cotées de la même manière que celle proposée dans les études de Rigal et al. (2012) et de Migraine et al. (2013). Chaque item des quatre dimensions filles a été évalué sur une échelle de 1 à 5. Les scores aux items ont ensuite été moyennés de telle sorte qu'une moyenne élevée à un domaine indique la présence d'une difficulté dans ce domaine.

Les 6 items inversés ont été traités de manière différente. Par exemple, l'item 5 (correspondant à la dimension néophobie alimentaire), « Mon enfant accepte spontanément de goûter les aliments qu'il ne connaît pas », ne va pas dans le sens de la néophobie. En effet plus le score est élevé, moins l'enfant est néophobe. Les scores ont donc été traités en miroir (1 devient 5, 2 devient 4, 3 = 3, 4 devient 2, 5 devient 1). Cette opération a été réalisée pour tous les items inversés.

Dans l'étude de Migraine et al. (2013), les deux dimensions « mères » (conduite alimentaire restreinte et répertoire alimentaire restreint) ont été évaluées sur une échelle de 2 à 10 correspondant à la somme des deux dimensions filles.

Les réponses à la deuxième partie du questionnaire, correspondant à l'information et la prise en charge des troubles de l'oralité, ont été ajoutées aux informations issues des comptes-rendus dans le fichier Excel.

## **5. Analyse statistique :**

### 5.1 Variables étudiées :

Différentes variables ont été utilisées pour les tests statistiques (toutes ces variables sont listées en Annexe 10) :

- Réponses au QCAJE : quatre variables quantitatives (comprises entre 1 et 5) qui correspondent aux quatre domaines étudiés. Deux variables quantitatives (comprises entre 2 et 10) correspondant aux deux domaines sous-jacents.
  
- Réponses aux questions à propos des troubles de l'oralité : des variables qualitatives binaires désignant la présence (1) ou l'absence (0) de prévention, d'information ou de prise en charge.
  
- Données des comptes-rendus d'hospitalisation initiale :
  - Des variables qualitatives et quantitatives relatives à l'atrésie
  - Des variables quantitatives périnatales (ex : âge gestationnel, poids de naissance...)
  - Des variables qualitatives binaires permettant de préciser la présence (1) ou l'absence (0) des données périnatales :
    - Equipement médical (ex : intubation, aspiration...)
    - Naissance (ex : genre masculin, prématurité...)
  - Des variables quantitatives définissant une durée, lorsque les variables concernant l'équipement médical prennent la modalité « présence » (ex : durée de la gastrostomie, durée de l'intubation...)

### 5.2 Analyse qualitative :

L'analyse des réponses aux questions concernant l'information, la prévention et la prise en charge des troubles de l'oralité alimentaire était descriptive, dans un premier temps, afin d'appréhender l'accompagnement des parents et de l'enfant autour de l'alimentation.

Celle-ci avait pour objectif de constater une éventuelle disparité de cet accompagnement entre les villes.

### 5.3 Analyse quantitative :

#### 5.3.1 *Rappels sur les tests statistiques* :

Pour chacun des tests statistiques réalisés, des hypothèses ont été posées. H0 correspond à l'hypothèse nulle qui postule l'égalité entre les deux paramètres statistiques testés. H1 correspond à l'hypothèse alternative qui postule soit la différence des données (test bilatéral dans ce cas), soit une inégalité (plus petit ou plus grand) entre les données (test unilatéral).

#### 5.3.2 *Analyse de la prévention, l'information et la prise en charge des troubles de l'oralité* :

L'analyse des résultats par le biais de comparaison de moyennes (**Student** ou **Wilcoxon-Mann Whitney**) a permis de définir si l'information initiale, la prévention des TOA et la prise en charge étaient significativement liées au comportement alimentaire de l'enfant à deux ans. Les hypothèses posées pour ces tests étaient les suivantes :

- H0 : Les moyennes des scores au QCAJE des deux groupes sont égales.
- H1 : Les moyennes des scores au QCAJE des deux groupes sont différentes.

Ensuite, un test d'indépendance (**Test du Chi2**) a été réalisé afin de savoir si l'information sur les TOA et les actes préventifs étaient ou non associés à la prise en charge de l'enfant après l'hospitalisation pour des troubles de l'oralité. Les hypothèses étaient les suivantes :

- H0 : Les actes préventifs et la prise en charge des TOA ne sont pas associés.
- H1 : Les actes préventifs et la prise en charge des TOA sont associés.

#### 5.3.3 *Analyse des facteurs périnataux* :

##### Variables qualitatives binaires :

Chaque donnée relevée dans les comptes-rendus d'hospitalisation initiale a été mise en lien avec les réponses au QCAJE. En effet, les scores obtenus à chaque sous domaine des enfants ayant la modalité « absence » ont été comparés à ceux ayant la modalité « présence » pour les facteurs périnataux traduits en variables binaires (ex : le score de

néophobie des enfants prématurés a été comparé au score de néophobie des enfants non prématurés).

Ainsi, le test de **Student** ( $p = 0,05$ ) ou le test de **Wilcoxon-Mann Whitney** ( $p = 0,05$ ) a été choisi en fonction de la Normalité des variables étudiées (testée grâce au test de **Shapiro-Wilk** ( $p = 0,05$ )). Les hypothèses étaient les suivantes :

- H0 : Le score moyen au QCAJE est identique dans les modalités « présence » et « absence ».
- H1 : Le score moyen au QCAJE est différent dans les modalités « présence » et « absence ».

#### Variables quantitatives :

Le test de **Spearman** ( $p = 0,05$ ) a été utilisé afin de déterminer si les variables quantitatives (exprimant la durée du port d'un équipement médical) étaient corrélées ou non à l'un des quatre domaines étudiés par le QCAJE (ex : la durée de l'alimentation par SNG est-elle corrélée à la néophobie ?).

Ce même test a été appliqué pour deux autres variables quantitatives : le poids de naissance et l'âge gestationnel afin de voir leur relation éventuelle avec le comportement alimentaire.

Les variables ont été considérées comme corrélées lorsque  $p < 0,05$  et, la corrélation était considérée comme bonne, si le coefficient de Spearman ( $R_{\hat{\theta}}$ ) était supérieur à 0,7.

Les hypothèses posées sont les suivantes :

- H0 : Les variables périnatales ne sont pas corrélées au comportement alimentaire.
- H1 : Les variables périnatales sont corrélées au comportement alimentaire.

#### *5.3.4 Analyse comparative des populations étudiées :*

Les scores aux domaines « Conduite alimentaire restreinte » et « Répertoire alimentaire restreint » de la population AO ont été comparés à ceux des enfants nés prématurément (cohorte POLYNUCA) et à ceux nés à terme (cohorte OPALINE).

Pour cette comparaison, l'échantillon de la présente étude a été divisé en deux sous-groupes : le premier est composé des enfants nés à terme (AOT) et le second est composé des enfants nés prématurément (AOP). L'objectif de cette séparation était de comparer des échantillons ayant des âges gestationnels équivalents.

Avant de réaliser le test statistique de comparaison de moyennes, les échantillons ont été comparés deux à deux afin d'observer d'éventuelles différences (âge gestationnel, poids). Pour cela, un test de **Student** ou de **Wilcoxon-Mann Whitney** a été réalisé au seuil de risque de 5 %. Les hypothèses posées étaient les suivantes :

- H0 : Les données de naissance des deux groupes sont identiques.
- H1 : Les données de naissance des deux groupes sont différentes.

Ensuite, un test du **Chi2** d'indépendance (seuil de risque 5%) a été réalisé afin de constater une éventuelle différence de répartition du genre dans les groupes de comparaison. Les hypothèses pour ce test sont :

- H0 : La répartition filles/garçons est identique dans les deux groupes.
- H1 : La répartition filles/garçons est différente dans les deux groupes.

Enfin, un test de normalité (**Shapiro Wilk**) au seuil de risque de 5% a été réalisé et, en fonction de la normalité des variables un test de **Student** ou de **Wilcoxon-Mann Whitney** a permis de comparer les scores moyens du QCAJE des différents échantillons.

Les hypothèses posées sont les suivantes :

- H0 : Les scores moyens au domaine du QCAJE sont égaux dans les deux groupes.
- H1 : Les scores moyens au domaine du QCAJE sont différents dans les deux groupes.

## **6. Ethique :**

Le plan de recherche a été établi avant de constituer la cohorte afin de pouvoir présenter l'étude à tous les participants dès le premier contact téléphonique. Tous les individus dont les coordonnées ont été fournies par les CH et qui pouvaient être inclus dans l'étude ont été contactés, sans aucune discrimination.

Lors du contact téléphonique, les participants ont été informés que l'étude était réalisée dans le cadre d'un mémoire en orthophonie et concernait le comportement alimentaire à deux ans des enfants opérés d'une atrésie de l'œsophage. Ces explications étaient aussi présentées dans le fichier joint au questionnaire (Annexe 6).

Si la personne contactée acceptait oralement de participer à l'étude, le questionnaire lui était transmis avec une lettre de consentement éclairé (Annexe 7). La lettre de consentement éclairée correspond à la première question du questionnaire, si le participant cochait la case « je donne mon consentement libre et éclairé pour participer à cette étude », cela signifiait qu'il donnait son consentement, dans le cas contraire, le questionnaire s'arrêtait à cette question.

L'anonymat et la confidentialité des données ont été respectés tout au long de l'étude et de la rédaction de ce mémoire. De plus, les participants avaient à leur disposition les coordonnées du chercheur et pouvaient à tout moment le contacter pour lui poser des questions ou se retirer de l'étude.

Enfin, les participants qui avaient notifié leur souhait de recevoir les résultats de l'étude ont reçu un résumé de l'étude avec une synthèse des résultats obtenus.

Pour finir, chaque participant avait la possibilité de recontacter le chercheur, s'il avait des interrogations ou des remarques quant à l'étude.

## **7. Synthèse :**

Le travail de recherche a donc suivi le plan de travail suivant :

- Création du questionnaire
- Constitution de la cohorte
- Contact avec la cohorte
- Relevé des données dans les comptes-rendus d'hospitalisation
- Saisie des réponses aux questionnaires
- Analyse statistique.

## Résultats :

### 1. Données relevées :

#### 1.1 Données de naissance :

L'âge gestationnel moyen de la cohorte est de 37,5 semaines (DS = 3,4). 29 enfants sont nés prématurément (< 37 SA) soit environ 35%, et 32 enfants sont nés sous césarienne (38,5 %) contre 51 nés par voies basses (61,5 %). Le poids de naissance moyen est de 2680 g (DS = 808).

#### 1.2 Données concernant l'atrésie de l'œsophage :

76 enfants (91,6 %) ont une AO de type III et les autres enfants ont une AO de type I (3), IV (2) ou V (2). 33 enfants (39,8 %) ont une AO accompagnée de malformations conjointes. 14 enfants ont bénéficié d'un diagnostic anténatal.

#### 1.3 Données chirurgicales :

80,7 % des enfants se sont fait opérer dans les deux premiers jours de vie, tandis que pour l'un d'entre eux, la chirurgie a été réalisée le 102<sup>ième</sup> jour de vie.

#### 1.4 Données concernant l'équipement médical :

##### *1.4.1 Equipement respiratoire :*

73 enfants (88 %) ont nécessité une intubation au-delà de la chirurgie réparatrice. Presque tous les enfants inclus ont bénéficié d'une sonde d'aspiration (91,5 %). Les équipements médicaux et leur durée moyenne sont décrits dans le tableau suivant.

	Nombre d'enfants concernés (%)	Durée moyenne en jour (DS)
Intubation	83 (100%)	5,3 (+/- 7,52)
Relais ventilatoire	44 (53%)	12,1 (+/- 20,5)
Aspiration	76 (91,5%)	10,5 (+/- 24,75)

Tableau 2 : Type d'équipement médical respiratoire et sa durée

### 1.4.2 Equipement digestif :

Environ 80 % des enfants ont été nourris par SNG durant 21 jours en moyenne (+/- 18). Une gastrostomie a été posée pour 14 enfants pour une durée moyenne de 434 jours (+/- 407) (Tableau 3).

	Nombre d'enfants concernés (%)	Durée moyenne en jours (DS)
SNG	66 (79,5 %)	21 (+ /- 18,2)
Gastrostomie	14 (17%)	434 (+/- 407,6)

Tableau 3 : Type d'équipement médical digestif et sa durée

### 1.5 Données concernant l'alimentation :

La moitié des enfants inclus ont repris une alimentation per os au 8<sup>ième</sup> jour de vie, néanmoins, la reprise moyenne se situe au 20<sup>ième</sup> jour.

34 % des enfants étaient allaités à la sortie de l'hospitalisation, 34,5 % bénéficiaient de lait maternel en biberon et 31,5 % de lait premier âge.

## **2. Analyse qualitative :**

### 2.1 Rappels pour l'analyse des résultats :

Pour chaque test statistique réalisé, l'hypothèse nulle (H0) est rejetée en faveur de l'hypothèse alternative (H1) lorsque la p-value (p) est inférieur à 0,05. Tous les tests sont réalisés avec un seuil de risque à 5 %.

### 2.2 Le QCAJE :

Les scores moyens obtenus aux différentes dimensions du QCAJE sont exposés dans le tableau 4. La dimension obtenant le score le plus élevé est la dimension « petit appétit ». Les enfants AO obtiennent globalement un profil de « petit mangeur » avec une certaine sélectivité alimentaire.

D'après Migraine et al. (2013), les enfants ayant obtenu un score situé dans le dernier quintile (entre 80 et 100 %) à l'une des dimensions mères sont considérés comme

ayant des difficultés alimentaires. Dans cette étude, les enfants obtenant un score supérieur à 7,33 à la dimension « répertoire alimentaire restreint » et/ou un score supérieur à 7 à la dimension « conduite alimentaire restreinte » sont considérés comme ayant des difficultés du comportement alimentaire.

	$\alpha$ de Cronbach	Moyenne	DS
Néophobie	0,87	2.49	1.06
Sélectivité	0,71	2.86	1.01
<b>Répertoire Alimentaire Restreint</b>	0,76	5.35	1.85
Petit appétit	0,82	3.01	1.18
Faible intérêt	0,79	2.18	0.93
<b>Conduite Alimentaire Restreinte</b>	0,79	5.19	1.93

*Tableau 4 : Scores moyens aux différentes dimensions du QCAJE des enfants AO*

## 2.2 Les questions supplémentaires

### *2.2.1 Actes préventifs pendant l'hospitalisation :*

29 parents (35 %) déclarent que leur enfant a bénéficié d'actes préventifs pendant l'hospitalisation, parmi eux, seuls 6 enfants ont rencontré un orthophoniste.

### *2.2.2 Information reçue pendant l'hospitalisation :*

57 parents affirment avoir reçu des informations concernant les difficultés alimentaires du jeune enfant pendant l'hospitalisation, soit environ 70 % de la cohorte. Ces informations ont été principalement fournies par un pédiatre (42,1 %), un pédiatre accompagné d'un autre professionnel (37 %), ou un orthophoniste (10,5 %).

### *2.2.3 La prise en charge des TOA après l'hospitalisation*

43 % des enfants ont bénéficié d'un suivi pour TOA (36 enfants). La moitié d'entre eux a été suivi plus d'un an. La répartition de la fréquence et de la durée de la PEC est exposée dans le tableau en annexe (Annexe 11).

### Qui propose le suivi ?

94 % des enfants suivis pour un TOA ont rencontré un orthophoniste. Dans certains cas, le suivi orthophonique était associé à des ateliers de groupe autour de l'alimentation (8,3 %), un suivi kinésithérapeutique (5,5 %), ou un suivi psychologique (3 %).

#### *2.2.4 Différences de suivi et de PEC des TOA par villes :*

Le taux de prévention, d'information et de prise en charge des troubles de l'oralité est différent d'un centre hospitalier à l'autre. Aucune comparaison statistique n'a été réalisée au vu de la différence du nombre d'enfants inclus dans chaque centre. Le tableau de l'annexe 11 décrit cette dispersion.

### **3. Analyse quantitative :**

#### 3.1 Analyse de la prévention, l'information et la prise en charge des TOA :

##### *3.1.1 Comparaisons pour les différents domaines du QCAJE :*

Les enfants ayant bénéficié d'un suivi pour trouble de l'oralité alimentaire après leur hospitalisation ont un comportement alimentaire statistiquement différent des autres enfants AO. En effet, ils montraient tous plus de difficultés que les autres enfants AO en ce qui concerne les trois domaines suivants : sélectivité ( $p = 0,005$ ), appétit ( $p < 0,001$ ), intérêt ( $p < 0,001$ ). Le score néophobie étant à la limite de la significativité ( $p = 0,059$ ).

##### *3.1.2 Test d'indépendance :*

Le test du **Chi2** a montré une association significative entre l'information reçue pendant l'hospitalisation et la prise en charge après l'hospitalisation ( $p = 0,041$ ). En effet, les enfants AO dont les parents ont reçu des informations sur les TOA lors de l'hospitalisation sont plus suivis (51 %) que ceux dont les parents n'ont pas reçu d'informations (27 %). De plus, la prise en charge des troubles de l'oralité est statistiquement associée aux actes préventifs proposés pendant l'hospitalisation ( $p < 0,001$ ). En effet, les enfants AO ayant bénéficié d'actes préventifs sont plus suivis pour des TOA (83 %) que ceux qui n'en ont pas

bénéficié (22 %). L'ensemble de ces résultats est exposé dans le tableau en annexe (Annexe 12).

### 3.2 Analyse des facteurs périnataux

#### 3.2.1 *Variables binaires*

En raison du nombre important de tests statistiques réalisés, les résultats obtenus sont répertoriés dans les tableaux en annexe (Annexe 13). Les résultats qui ne sont pas présentés ci-après n'ont pas montré de différence statistiquement significative.

#### Néophobie

Les enfants ayant un Apgar inférieur à 7 à la cinquième minute de vie sont plus néophobes à deux ans ( $p = 0,025$ ).

#### Sélectivité

Aucune différence significative n'a été démontrée, les facteurs périnataux ne sont pas associés significativement à la sélectivité alimentaire.

#### Petit appétit

Les enfants prématurés ont plus de difficultés dans cette dimension que les enfants nés à terme ( $p = 0,021$ ).

Et les enfants nés avec un Z score de poids de naissance inférieur ou égal à  $-1$  ont un plus petit appétit que les enfants nés avec un Z score supérieur ( $p = 0,02$ ).

#### Faible intérêt

Les enfants AO nés prématurément ont un intérêt plus restreint pour la nourriture que les enfants AO nés à terme ( $p < 0,001$ ).

De plus, les enfants AO ayant eu une gastrostomie ont moins d'intérêt que les enfants qui n'ont pas eu de gastrostomie ( $p = 0,008$ ).

Enfin, l'intérêt pour la nourriture est plus faible chez les enfants ayant un Apgar inférieur à 7 à la cinquième minute de vie ( $p = 0,025$ ).

### 3.2.2 Variables quantitatives

Le poids de naissance est corrélé négativement à la fois à la dimension « petit appétit » ( $p = 0,001$ ) et la dimension « petit intérêt » ( $p < 0,001$ ). En effet, les difficultés dans ces deux domaines diminuent lorsque le poids de naissance augmente.

L'âge gestationnel est corrélé négativement à la dimension « petit appétit » ( $p = 0,046$ ) ainsi qu'à la dimension « petit intérêt » ( $p = 0,012$ ).

La ventilation mécanique est corrélée négativement à la sélectivité alimentaire : plus la durée de ventilation est longue moins l'enfant est sélectif ( $p = 0,014$ ).

Les tests de corrélation entre les Apgar et les domaines évalués par le QCAJE ont montré que l'Apgar 5 était corrélé négativement avec la dimension « néophobie » ( $p = 0,007$ ). Ainsi, plus l'Apgar se rapproche de 10 plus les difficultés diminuent.

Cependant, toutes ces corrélations sont marginales, car le coefficient de Spearman (Rhô) est inférieur à 0,7 dans chacun des cas présentés précédemment.

## 3.3 Analyse des moyennes au QCAJE :

### 3.3.1 *Comparaison des populations :*

Les échantillons diffèrent par le terme ainsi que le poids de naissance. En effet, les enfants AO ont un poids très significativement inférieur à celui des enfants nés à terme ( $p < 0,001$ ) et très significativement supérieur à celui des enfants nés prématurément ( $p < 0,001$ ). L'âge gestationnel des enfants AO est aussi significativement inférieur à celui des enfants nés à terme ( $p < 0,001$ ) et significativement supérieur à celui des enfants nés prématurément ( $p < 0,001$ ). Les enfants AO ont donc été divisés en deux sous-groupes : les enfants AO nés à terme (AOT) et les enfants AO nés prématurément (AOP). Les caractéristiques de ces deux sous-groupes sont décrites dans le tableau 5.

	Nombre d'enfants	Genre	Terme	Poids
<b>AOT</b>	54	F 11	39,5 (+/- 1,23)	3092 (+/- 533)
		M 43		
<b>AOP</b>	29	F 12	33,7 (+/- 27)	1896 (+/- 667)
		M 17		

Tableau 5 : Caractéristiques des échantillons AOT et AOP

### 3.3.2 AOT – OPALINE (nés à terme)

Il n'y a pas de différence significative entre l'âge gestationnel de la population AOT et celui de la cohorte née à terme OPALINE ( $p = 0,223$ ), mais le poids de naissance des enfants AOT est significativement inférieur au poids de naissance de la cohorte née à terme ( $p = 0,013$ ). De plus, au sein des deux échantillons, la répartition des filles et des garçons est statistiquement différente ( $p < 0,001$ ).

Les scores moyens de conduite alimentaire des enfants AOT sont très significativement supérieurs à ceux des enfants nés à terme ( $p < 0,001$ ). Les enfants nés avec une atrésie de l'œsophage ont donc une conduite alimentaire significativement plus restreinte que les enfants nés à terme.

Cependant, il n'y a pas de différence significative entre le répertoire alimentaire des enfants AOT et celui des enfants nés à terme ( $p = 0,06$ ), au seuil de risque de 5 %.

		Score moyen	Normalité	Test bilatéral	Test unilatéral
<b>Conduite alimentaire restreinte</b>	AOT	4,8	$p = 0,03$	<b><math>p &lt; 0,001</math></b>	$p < 0,001$
	OPALINE	3,6	$p < 0,001$		
<b>Répertoire alimentaire restreinte</b>	AOT	5,3	$p = 0,06$	$p = 0,06$	
	OPALINE	4,8	$p < 0,001$		

Tableau 6 : Comparaison des scores moyens aux domaines du QCAJE pour les échantillons AOT et OPALINE

### 3.3.3 AOP – POLYNUCA (nés prématurément)

Le poids et l'âge gestationnel des enfants AOP sont très significativement supérieurs à ceux de la cohorte POLYNUCA ( $p < 0,001$ ). La répartition des filles et des garçons est statistiquement différente dans les deux groupes ( $p < 0,003$ ).

La conduite alimentaire des enfants AOP est significativement plus restreinte que celle des enfants POLYNUCA ( $p < 0,001$ ). Cependant, aucune différence significative n'est constatée du point de vue du répertoire alimentaire ( $p = 0,3$ ) (Tableau 7).

		Score moyen	Normalité	Test bilatéral	Test unilatéral
<b>Conduite alimentaire restreinte</b>	AOP	5,9	$p = 0,6$	<b><math>p &lt; 0,001</math></b>	$p < 0,001$
	POLYNUCA	5,3	$p < 0,001$		
<b>Répertoire alimentaire restreinte</b>	AOP	5,4	$p = 0,3$	$p = 0,3$	
	POLYNUCA	5,0	$p = 0,001$		

Tableau 7 : Comparaison des scores moyens aux domaines du QCAJE pour les échantillons AOP et POLYNUCA

### 3.3.4 Synthèse :

Les enfants AO montrent une conduite alimentaire plus restreinte et donc plus de difficultés dans les domaines d'appétit et d'intérêt pour la nourriture que les enfants nés à terme et les enfants nés prématurément. En revanche, aucune différence n'a été relevée en ce qui concerne le répertoire alimentaire des enfants AO (néophobie et sélectivité).

## **Discussion :**

### **1. Synthèse des résultats :**

#### 1.1 Rappel des hypothèses de l'étude :

Les hypothèses de l'étude étaient les suivantes :

- H1 : Les enfants opérés d'une atrésie de l'œsophage auraient plus de difficultés de comportement alimentaire (à 2 ans) que les enfants à terme et les enfants prématurés.
- H2 : Certains facteurs périnataux seraient associés au comportement alimentaire des enfants avec une AO.
- H3 : Certaines données caractérisant l'atrésie seraient associées aux difficultés de comportement alimentaire
- H4 : Les enfants opérés d'une atrésie de l'œsophage ont des besoins en termes de prise en charge des troubles de l'oralité alimentaire.
- H5 : Les enfants AO nés prématurément auraient plus de difficultés du comportement alimentaire que ceux nés à terme.

#### 1.2 Rappels des résultats obtenus :

Les enfants AO ont plus de difficultés du comportement alimentaire que les enfants nés à terme et les enfants prématurés. En effet, ils ont une conduite alimentaire plus restreinte et ainsi, un intérêt pour la nourriture et un appétit plus faibles. Cependant, il n'y a pas de différence significative en ce qui concerne le répertoire alimentaire. De plus, au sein de l'échantillon AO, les enfants prématurés montrent plus de difficultés d'appétit que les enfants nés à terme.

La prématurité, le petit poids de naissance, une mauvaise adaptation extra-utérine, et la présence d'une gastrostomie sont des facteurs associés au comportement alimentaire. Et certaines corrélations ont été montrées entre des facteurs périnataux et le comportement alimentaire.

De plus, environ 45 % des enfants opérés d'une AO ont nécessité un suivi pour trouble de l'oralité alimentaire et 94 % d'entre eux ont rencontré un orthophoniste.

### 1.3 Synthèse :

Les résultats confirment la première hypothèse (H1), car les enfants AO ont plus de difficultés du comportement alimentaire que les enfants nés à terme et les enfants nés prématurément. Et, les enfants AO prématurés montrent plus de difficultés du comportement alimentaire que les enfants AO nés à terme (H5).

De plus, la seconde hypothèse (H2) est aussi confirmée, car certains facteurs périnataux sont associés au comportement alimentaire.

Ensuite, les caractéristiques de l'atrésie ne sont pas associées au comportement alimentaire ce qui infirme l'hypothèse H3.

Enfin, les résultats de l'étude montrent que les enfants AO nécessitent une prise en charge en orthophonie pour trouble de l'oralité alimentaire dans environ 45 % des cas et cela confirme l'hypothèse H4.

## **2. Commentaire des résultats :**

### 2.1 Echantillon de l'étude :

Le nombre d'enfants inclus dans l'étude est suffisant pour permettre des conclusions statistiques.

92 % des enfants inclus ont une atrésie de type III. Ce type d'atrésie est le plus répandu dans la population, car il représente jusqu'à 88 % des enfants AO (Sfeir et al, 2015). Cependant, la comparaison des différents types d'atrésies en terme de comportement alimentaire n'a pas pu être réalisée. De plus, l'échantillon est composé de 60 garçons (72 %) et de 23 filles (28 %), la répartition du genre n'est pas équilibrée dans l'étude avec un sex-ratio à 2,6 (2,6 garçons pour 1 fille). Or, l'étude épidémiologique de Sfeir en 2013 estime le sex-ratio des enfants AO à 1,35 en Europe. Les garçons sont donc plus représentés dans la présente étude et l'échantillon des enfants constitué n'est pas représentatif de la population en ce qui concerne le genre.

### 2.2 L'information, la prévention et la prise en charge des TOA :

70 % des parents ayant répondu au questionnaire affirment avoir reçu des informations concernant les TOA pendant l'hospitalisation de leur enfant. Ce chiffre est

supérieur à celui de l'étude de Ramsay et al (2013) qui affirmaient que 45 % des parents d'enfants AO étaient prévenus des possibilités de difficultés alimentaires ultérieures.

Les parents de la présente étude sont donc plus informés, mais, d'après Michaud (2008), la prévention des troubles de l'oralité doit être une priorité, et ce, dès le plus jeune âge. En effet, 43 % des enfants nécessitent par la suite un suivi pour troubles de l'oralité alimentaire. Il serait donc important que tous les parents soient informés à propos des TOA afin d'améliorer l'orientation et la prise en soin de leur enfant. Cependant, il faut prendre en compte l'effet du stress post-traumatique de l'annonce de la pathologie, de l'hospitalisation et des soins qui pourrait faire oublier des informations aux parents.

De plus, une association significative a été retrouvée entre l'information reçue pendant l'hospitalisation et la prise en charge des enfants après l'hospitalisation, ce qui souligne d'autant plus la nécessité de l'information initiale. Plusieurs suppositions peuvent être faites à ce propos :

- Les enfants suivis avaient des difficultés d'alimentation lors de l'hospitalisation et de ce fait, les parents ont été informés à propos des troubles de l'alimentation.
- Les informations reçues et les actes préventifs sensibilisent les parents et les aident à repérer les difficultés alimentaires ce qui les encouragent alors à consulter lorsqu'elles apparaissent.

33 enfants ont rencontré un orthophoniste après leur hospitalisation pour une prise en charge des troubles de l'oralité alimentaire (soit environ 40 %). D'après le PNDS de 2008, tous les enfants avec une atrésie devraient rencontrer un orthophoniste à quatre reprises (à 3 mois, 18 mois, 36 mois et 6 ans). Le suivi orthophonique préconisé par le PNDS n'est pas respecté en ce qui concerne les enfants AO (Lepeytre et al., 2013). Le questionnaire interrogeait les parents à propos de la prise en charge des troubles de l'oralité et non pas à propos des consultations de suivi de l'atrésie proposées par les CH. Nous ne pouvons donc conclure en ce qui concerne le respect ou non des préconisations du PNDS de 2008 dans cet échantillon.

La prise en charge des enfants après l'hospitalisation semble préconisée, car ces derniers montrent plus de difficultés du comportement alimentaire que les enfants qui n'ont pas bénéficié de suivi. Cependant, l'étude ne prend pas en compte d'autres difficultés concernant l'oralité alimentaire : troubles de la sensibilité, troubles fonctionnels qui justifieraient aussi un suivi orthophonique. Cela signifie que les enfants bénéficiant d'un suivi pour TOA peuvent avoir un trouble du comportement alimentaire associé ou non à un trouble de la sensibilité orale et/ou un trouble fonctionnel (dysphagie, RGO, impaction alimentaire...).

## 2.3 Les facteurs périnataux

### 2.3.1 *Naissance :*

Les enfants AO avec un petit poids de naissance montrent plus de difficultés d'appétit et d'intérêt, ce qui est en accord avec la publication de Migraine et al en 2013 : un faible poids de naissance augmente de 15 à 80 % les risques de difficultés alimentaires.

La présente étude montre qu'une mauvaise adaptation extra-utérine à 5 minutes de vie serait associée à des difficultés du comportement alimentaire (néophobie et manque d'intérêt pour la nourriture) chez les enfants AO. Abadie (2004) souligne le lien indissociable entre l'adaptation à la vie extra-utérine et le développement de l'oralité. Ainsi, une mauvaise adaptation pourrait donc avoir une influence sur le comportement alimentaire ultérieur.

Enfin, l'étude de Dudebout et al. (2016) montrait que certains facteurs favoriseraient significativement l'apparition de TCA. Parmi ces facteurs, était retrouvée la naissance par césarienne. Cette corrélation n'a pas été montrée dans la présente étude : en effet, les enfants AO nés par césarienne n'ont pas plus de difficultés du comportement alimentaire que les enfants nés par voies basses.

### 2.3.2 *Equipement médical :*

Les enfants ayant eu une gastrotomie montrent moins d'intérêt pour la nourriture, cependant, le constat de l'étude de Menzies (2017) concernant la grande sélectivité des enfants AO n'a pas été retrouvé dans cette étude. L'intérêt plus faible pour la nourriture peut être expliqué par le fait que les enfants sont moins exposés au rythme de faim-satiété, et moins exposés à la nourriture.

Le relais ventilatoire mécanique est corrélé négativement à la sélectivité (plus l'enfant a bénéficié d'une ventilation longue, moins il est sélectif). Cela contredisait l'hypothèse de départ (H2), mais ce résultat est à nuancer, car la dispersion des données (des chiffres extrêmement grands) impacte certainement les résultats.

Les actes médicaux invasifs (tels que les équipements médicaux digestifs et respiratoires) ne sont pas corrélés au comportement alimentaire. Or, d'après Michaud (2008) les stimuli désagréables ou douloureux de la sphère oropharyngée et la présence d'une sonde nasogastrique seraient des facteurs favorisant l'apparition de troubles de l'oralité. Ainsi, il serait intéressant d'observer l'impact éventuel des équipements médicaux sur les autres domaines de l'oralité chez les enfants AO lors d'une étude ultérieure.

### *2.3.3 L'atrésie de l'œsophage*

Abadie (2004) a défini les deux acteurs d'une alimentation réussie et, chez les patients AO, l'un d'entre eux est entravé : la sphère oro-digestive anatomiquement saine. Ces enfants auraient donc plus de risques de développer des difficultés alimentaires. Et ces résultats vont dans le sens des résultats de la présente étude en ce qui concerne les TCA.

D'après Lecoufle (2017), une chirurgie réparatrice tardive augmenterait le risque de développer des TOA chez les enfants AO. Le comportement alimentaire des enfants AO de la présente étude n'est pas associé à la date de la chirurgie et les enfants ayant été opérés plus tardivement ne montrent pas plus de difficultés. Cependant, seuls certains aspects du comportement alimentaire ont été investigués et les compétences fonctionnelles ou sensorielles des enfants n'ont pas évaluées : la date de la chirurgie peut être associée à d'autres aspects de l'oralité.

Enfin, Garabedian et al. (2014) ont défini trois facteurs de bon pronostic dans l'atrésie de l'œsophage : l'atrésie de type III, un poids de naissance supérieur à 1,5 Kg et l'absence de malformations associées. Dans la présente étude, le comportement alimentaire n'est pas associé au type d'atrésie. Cependant, l'atrésie de type III est majoritairement représentée et l'échantillon n'est donc pas représentatif de la population. Ensuite, une corrélation négative a été montrée entre le poids de naissance et les domaines d'appétit et

d'intérêt (plus le poids de naissance et faible plus les difficultés augmentent). Pour terminer, aucune association n'a été montrée entre la présence d'une malformation associée et le comportement alimentaire. Ainsi, les critères de bon pronostic n'ont pas été retrouvés dans cette étude sauf en ce qui concerne le poids de naissance.

#### *2.3.4 L'alimentation :*

La date du début de l'alimentation per os n'est pas associée au comportement alimentaire, or, l'absence d'alimentation orale fait partie des risques d'apparition de troubles de l'oralité alimentaire. En effet, Conforti et al (2015) ont décrit une période critique pendant laquelle une absence d'investissement de la sphère orale ou des stimuli désagréables pourraient entraver le développement du comportement alimentaire. Il faudrait donc, une nouvelle fois, mettre en lumière le lien éventuel entre l'absence d'alimentation pendant les premiers jours de vie et les compétences fonctionnelles et sensorielles en lien avec l'alimentation.

Pour terminer, toutes les corrélations retrouvées entre les facteurs périnataux et le comportement alimentaire n'étaient que marginales dans cette étude, car le coefficient de corrélation pour chaque test était inférieur à 0,7 (seuil à partir duquel la corrélation est considérée comme bonne).

#### 2.4 Comparaison des scores du QCAJE des différents échantillons :

Grâce aux précédentes publications du QCAJE ainsi que la taille de l'échantillon constitué, le groupe a pu être divisé en deux sous-groupes : les enfants AO nés à terme et les enfants AO nés prématurément. Cette scission permettait de comparer des groupes ayant des caractéristiques les plus proches possibles afin que les tests statistiques mesurent l'influence de la variable indépendante (présence ou absence d'AO).

L'hypothèse principale de cette étude était la suivante : les enfants AO avaient plus de difficultés du comportement alimentaire que les enfants sans pathologie. Cette hypothèse était fondée sur les postulats suivants : les enfants AO sont concernés par les causes principales des TOA et sont exposés à un nombre important de facteurs favorisant leur apparition. En effet, l'absence d'alimentation orale, les stimulations désagréables ou douloureuses de la sphère orale, l'hospitalisation en période néonatale (Michaud et al, 2008)

ainsi que la pathologie digestive (Dudebout, 2016) sont des facteurs auxquels les enfants AO sont tous confrontés. Les résultats de cette étude montrent que les enfants avec une atrésie de l'œsophage ont plus de difficultés que les enfants sans pathologie en ce qui concerne la conduite alimentaire, mais aucune différence n'est constatée en ce qui concerne le répertoire alimentaire.

### **3. Comparaison des résultats obtenus avec la publication de POLYNUCA :**

Les résultats de l'étude POLYNUCA montraient plus de difficultés alimentaires chez les enfants prématurés, mais cette difficulté était associée à une faible croissance intra-utérine plutôt qu'à l'âge gestationnel (Migraine et al., 2013). La présente étude a montré une association entre la prématurité et les difficultés d'appétit et d'intérêt. En effet, les enfants AOP montrent plus de difficultés de conduite alimentaire que les enfants AOT. La prématurité majore donc les difficultés de comportement alimentaire des enfants AO, ce qui rejoint les résultats de l'étude de Migraine et al. (2013) qui constatait plus de difficultés chez les enfants prématurés.

Les enfants AO ont donc plus de difficultés que les enfants sans pathologie en ce qui concerne l'appétit et l'intérêt pour la nourriture et les enfants AO prématurés ont plus de difficultés dans ces domaines. Les résultats s'accordent donc avec ceux de l'étude POLYNUCA dans laquelle les enfants nés prématurément avaient plus de difficultés de comportement alimentaire (Migraine et al., 2013).

Enfin, dans l'étude POLYNUCA, les filles avaient plus de difficultés alimentaires que les garçons ce qui n'est pas le cas dans la présente étude où aucune différence de genre n'a été constatée.

#### **4. Difficultés rencontrées :**

##### 4.1 Constitution de la cohorte

La constitution de la cohorte a été le travail le plus long dans la réalisation de cette étude. En effet, l'atrésie est une pathologie à faible incidence, car elle touche un nombre restreint d'enfants chaque année (pour rappel : entre 1/2500 et 1/4000 naissances par an en France) et la période d'inclusion définie réduisait la population de l'étude (environ 300 enfants nés avec une AO pendant cette période). La validation du projet de recherche par le groupe d'étude de la FIMATHO a permis d'être en relation avec les médecins référents des 38 centres hospitaliers concernés en France. Cependant, les médecins n'ont pas tous répondu dès le premier contact et des relances ont été nécessaires. Une fois l'accord des médecins recolté, les secrétariats ont été contactés afin d'obtenir les coordonnées des parents. Il s'est donc écoulé plusieurs semaines entre la validation du projet par la FIMATHO et la réalisation des premiers appels téléphoniques.

##### 4.2 Contact avec les parents :

La gestion et la réalisation des appels ont demandé une organisation et une planification importante afin d'augmenter de manière significative la taille de la cohorte étudiée tout en respectant le choix des personnes ayant refusé de participer ou ne souhaitant pas être contactées de nouveau.

#### **5. Critiques méthodologiques :**

##### 5.1 Effet « mémoire » :

Le QCAJE est un questionnaire étalonné pour évaluer le comportement alimentaire des enfants à l'âge de deux ans. Or, la faible incidence de l'AO ne permettait pas de constituer une cohorte assez importante d'enfants de deux ans. La période d'inclusion a été définie de manière à obtenir une cohorte plus importante, mais nécessitait, pour les parents, de se souvenir du comportement alimentaire de leur enfant lorsqu'il avait deux ans. Le questionnaire rempli rétrospectivement impliquait donc de faire appel à la mémoire des faits antérieurs (entre une et deux année(s)). L'effet « mémoire » est donc un biais non négligeable dans cette étude.

## 5.2 Le questionnaire :

### 5.2.1 *Le QCAJE*

Le QCAJE est un outil qui a été publié et validé scientifiquement en français, il répond donc aux critères de validité de recherche, ce qui est un point fort dans cette étude. De plus, il évalue spécifiquement le comportement alimentaire, ce qui est le but de la présente étude. Afin de vérifier que les items du questionnaire étaient bien reliés au domaine qu'ils mesuraient, les  $\alpha$  de Cronbach ont été calculés (Tableau 4) et montrent que tous les items sont suffisamment corrélés ( $\alpha > 0,7$ ) pour considérer qu'ils mesurent un même domaine.

Cependant, l'un des biais principaux de cette étude est qu'elle est basée sur de l'observation de comportements, ce qui signifie qu'il peut révéler des associations, mais ne peut pas prouver de causalité.

### 5.2.2 *Les questions supplémentaires*

Le deuxième questionnaire a été créé afin de mesurer l'accompagnement des TOA. Aucune question à propos des données médicales (RGO, antécédents de TOA dans la famille...), qui pourraient influencer le comportement alimentaire, n'a été posée, car l'objectif était de faire un constat à propos de l'accompagnement en terme d'oralité et non de faire un diagnostic d'un TOA.

La formulation des items était claire sans double négation ou jargon médical afin que la compréhension du questionnaire soit accessible à l'ensemble des participants.

De plus, les participants n'avaient pas la possibilité de commenter l'étude ou leurs réponses, car aucune plage de commentaires libres n'a été laissée dans ce questionnaire. Cependant, il a été précisé dans la présentation de l'étude lors de l'appel téléphonique ainsi que dans la présentation du questionnaire en ligne, que chaque participant pouvait adresser ses questions ou remarques par mail ou par téléphone.

### 5.3 Comparaison des populations :

Cette étude compare le comportement alimentaire des enfants AO avec celui des enfants nés à terme et des enfants nés prématurément sans pathologie. Les trois populations de l'étude ont des différences sociodémographiques intrinsèques qui constituent des variables confondues dans les tests statistiques. Ces différences sont à considérer comme un biais dans l'analyse des résultats.

### 5.4 Données relevées :

Le choix des données relevées dans les comptes-rendus d'hospitalisation a été établi à partir des hypothèses de l'étude. Ainsi, l'ensemble des données a été utilisé dans les tests statistiques. La durée d'hospitalisation ne fait pas partie des facteurs périnataux relevés, mais il aurait été intéressant d'inclure cette donnée dans les analyses, car elle donne des informations sur la sévérité de l'atrésie.

## **6. Points forts de l'étude :**

Cette étude a permis de recueillir de nombreuses données relatives à la période néonatale des enfants AO qui pourront être réutilisées dans le cadre d'une étude ultérieure concernant cette pathologie.

Le contact téléphonique avec les parents ainsi que leur intérêt pour la pathologie ont augmenté leur adhésion pour participer à l'étude, mais aussi leur sérieux dans les réponses fournies au questionnaire.

Le choix du questionnaire en ligne a permis un accès simple et rapide pour les participants (l'utilisation de la plateforme Google est simple). De plus, les parents avaient le choix de recevoir le questionnaire par courrier postal, mais aucun d'entre eux n'a choisi cette option. Le questionnaire en ligne a donc permis une rapidité dans l'obtention des réponses et de travailler sur une population ciblée, fermée et identifiée permettant ainsi une analyse en lien avec les comptes-rendus d'hospitalisation.

Cette étude est réalisée dans le cadre d'un mémoire de fin de cursus en orthophonie, elle a donc été réalisée dans l'intérêt de la pratique orthophonique.

## 6.1 Intérêts pour la pratique orthophonique

Un des objectifs de cette étude était d'augmenter les connaissances sur le devenir alimentaire des enfants opérés d'une AO afin d'améliorer leur prise en soin. En effet, le PNDS de 2008 concernant les atrésies de l'œsophage, souligne la nécessité d'un suivi pluridisciplinaire selon un calendrier précis. Le suivi médical et chirurgical recommandé par l'HAS est respecté dans l'ensemble des centres français destinés à accueillir les enfants avec une atrésie (Lepeytre et al., 2013). Cependant, les recommandations concernant le suivi paramédical (dont le suivi orthophonique) ne sont pas respectées. En effet, seulement deux des trente huit centres français sont pourvus d'orthophonistes. Or, la présente étude a montré qu'il y avait de réels besoins d'accompagnement concernant l'oralité et la majorité des enfants qui ont bénéficié d'une prise en soin ont rencontré un orthophoniste.

Il paraît donc primordial d'informer les orthophonistes et les autres professionnels de santé de l'importance de l'accompagnement de ces enfants par un orthophoniste au vu des difficultés alimentaires constatées dans cette étude. Enfin, il semble nécessaire d'améliorer l'information reçue par les parents à propos de l'alimentation dès l'hospitalisation. Les pédiatres et autres professionnels de néonatalogie sont les premiers concernés, car ils ont un rôle déterminant pour l'orientation future des enfants.

## 6.2 Perspectives de recherche

Le Gouëz et al. (2016) ont constaté la présence d'un stress post-traumatique chez les parents d'enfants ayant été opérés d'une AO. Cette étude rejoint celle de Pierrehumbert et al. (2003) dans laquelle est décrit un état de stress post traumatique chez les parents d'enfants présentant un risque périnatal élevé. Or, il semblerait que le passage à l'alimentation en morceaux des enfants AO soit retardé par la peur des parents de l'impaction alimentaire dans l'oesophage. Ainsi, il pourrait être intéressant dans des recherches ultérieures d'étudier le lien éventuel entre le stress post-traumatique et l'alimentation des enfants.

Ce mémoire n'avait pas pour but de poser un diagnostic de troubles de l'oralité, car un questionnaire parental n'est pas suffisant, mais il serait intéressant de créer un outil normé permettant une évaluation globale de l'oralité alimentaire de l'enfant, incluant le QACJE, et pouvant être utilisé par les orthophonistes pour dépister et/ou évaluer les troubles de l'oralité alimentaire.

Ce mémoire avait pour objectif d'affiner les connaissances en terme de comportement alimentaire des enfants AO afin d'améliorer leur prise en soin. Cependant, le constat a été fait qu'encore trop de parents sont sous-informés à propos des TOA lors de l'hospitalisation initiale. Or, l'information et la prévention des TOA font partie intégrante du champ de compétences des orthophonistes. De futures étudiantes orthophonistes pourraient mettre en place un système d'informations à destination des parents d'enfants AO ou de tout enfant à risque de développer des TOA. A terme, le but serait que la prévention et l'information soient intégrées systématiquement dans le parcours de soin de l'enfant.

Enfin, l'oralité alimentaire et l'oralité verbale étant liées, une étude pourrait évaluer les répercussions de l'atrésie sur la parole de l'enfant, mais aussi sur sa voix. En effet, les recherches n'ont pas encore exploré ce domaine malgré les complications respiratoires possibles ou la trachéomalacie qui peut apparaître. Il serait donc important de savoir si l'orthophoniste doit proposer un accompagnement complémentaire sur les deux versants de l'oralité pour les enfants ayant été opérés d'une atrésie de l'œsophage.

## Conclusion

La présente étude avait pour but de comparer le comportement alimentaire, à deux ans, des enfants opérés d'une atrésie de l'œsophage (AO), avec celui des enfants nés à terme et des enfants nés prématurément indemnes de toute pathologie.

Un questionnaire en ligne a été rempli par 83 parents à propos du comportement alimentaire, à deux ans, de leur enfant opéré d'une AO.

Il a été montré que les enfants AO ont plus de difficultés de conduite alimentaire (appétit et intérêt restreints). En revanche, aucune différence n'a été retrouvée en ce qui concerne le répertoire alimentaire (sélectivité et néophobie).

De plus, un petit poids de naissance, une prématurité, la présence d'une gastrostomie et une mauvaise adaptation à la vie extra-utérine, sont autant de facteurs qui sont associés aux troubles du comportement alimentaire chez les enfants AO.

Ensuite, cette étude montre que les parents ne sont pas tous informés à propos des troubles alimentaires pouvant apparaître après la chirurgie réparatrice, bien que 45 % des enfants nécessitent une prise en charge pour trouble de l'oralité avant 4 ans. L'information reçue pendant l'hospitalisation de l'enfant doit impérativement être améliorée pour une meilleure prise en charge des enfants AO.

Malgré les points forts de cette étude, il faut cependant considérer certains biais dans la lecture des résultats obtenus. Deux biais principaux sont ainsi retrouvés : l'effet « mémoire » impliqué par le questionnaire rempli rétrospectivement ainsi que les différences sociodémographiques intrinsèques des échantillons de comparaison.

Pour conclure, cette étude a permis d'améliorer les connaissances à propos du comportement alimentaire des enfants AO. Mais il serait intéressant d'explorer l'impact de l'atrésie sur les autres domaines de l'oralité alimentaire, comme la sensorialité, voire de l'oralité verbale, comme la voix et la parole.

## Bibliographie

- Abadie. (2004). Troubles de l'oralité du jeune enfant. *Rééducation orthophonique*, 220, 55-68.
- Abadie, V., & Couly, G. (2013). Congenital feeding and swallowing disorders. In *Handbook of Clinical Neurology* (Vol. 113, p. 1539-1549).
- Avenant 16 à la convention nationale des orthophonistes, Pub. L. No. 16, Code de la sécurité sociale (2017).
- Baird, R., Levesque, D., Birnbaum, R., & Ramsay, M. (2015). A pilot investigation of feeding problems in children with esophageal atresia: Feeding in esophageal atresia. *Diseases of the Esophagus*, 28(3), 224-228.
- Bandelier, E. (2015). *Les troubles des fonctions alimentaires chez le nourrisson et le jeune enfant*.
- Conforti, A., Valfré, L., Falbo, M., Bagolan, P., & Cerchiari, A. (2015). Feeding and Swallowing Disorders in Esophageal Atresia Patients: A Review of a Critical Issue. *European Journal of Pediatric Surgery*, 25(4), 318-325.
- Dovey, T. M., Staples, P. A., Gibson, E. L., & Halford, J. C. G. (2008). Food neophobia and 'picky/fussy' eating in children: A review. *Appetite*, 50(2-3), 181-193.
- Dubedout, S., Cascales, T., Mas, E., Bion, A., Vignes, M., Raynaud, J.-P., & Olives, J.-P. (2016). Troubles du comportement alimentaire restrictifs du nourrisson et du jeune enfant : situations à risque et facteurs favorisants. *Archives de Pédiatrie*, 23(6), 570-576.
- Faure, C., & Righini Grunder, F. (2017). Dysmotility in Esophageal Atresia: Pathophysiology, Characterization, and Treatment. *Frontiers in Pediatrics*, 5.
- Fewtrell, M., Bronsky, J., Campoy, C., Domellöf, M., Embleton, N., Fidler Mis, N., ... Molgaard, C. (2017). Complementary Feeding: A Position Paper by the European Society for Paediatric Gastroenterology, Hepatology, and Nutrition (ESPGHAN) Committee on Nutrition. *Journal of Pediatric Gastroenterology and Nutrition*, 64(1), 119-132.
- Garabedian, C., Vaast, P., Bigot, J., Sfeir, R., Michaud, L., Gottrand, F., ... Houfflin Debarge, V. (2014). Atrésie de l'œsophage : prévalence, diagnostic anténatal et pronostic. *Journal de Gynécologie Obstétrique et Biologie de la Reproduction*, 43(6), 424-430.
- Gold, F., Aujard, Y., Dehan, M., Jarreau, P., Lejeune, C., Moriette, G., & Voyer, M. (2006). Atrésie de l'oesophage. In *Soins intensifs et réanimation du nouveau-né* (2ème). Masson.
- Gottrand, F. (2009). Reflux gastro-oesophagien. *La lettre de l'hépto-gastroentérologue*, 12(5), 158-162.

- Gottrand, F., Sfeir, R., Coopman, S., Deschildre, A., & Michaud, L. (2008). Atrésie de l'œsophage : devenir des enfants opérés. *Archives de Pédiatrie*, *15*(12), 1837-1842.
- HAS - Haute Autorité de Santé, Services Maladies Chroniques et dispositifs d'accompagnement des malades. (2008, octobre). Atrésie de l'œsophage Protocole national de diagnostic et de soins.
- Kernbaum, S. (1991). *Dictionnaire de médecine Flammarion*. Paris: Médecine-Sciences, Flammarion.
- Ladd, W. E., & Swenson, O. (1947). Esophageal Atresia and Tracheo-esophageal Fistula. *Annals of Surgery*, *125*(1), 23-40.
- Laugier, J., Rozé, J.-C., Siméonie, U., & Saliba, E. (2009). Pathologies digestives. In *Soins aux nouveaux-nés* (Masson, p. 345-348).
- Lecoufle, A. (2017). Atrésie de l'oesophage : une histoire d'oralité qui ne commence pas comme les autres, (271), 29-42.
- Leduc, L. (2012). *L'introduction des morceaux dans l'alimentation des nourrissons opérés d'une atrésie de l'œsophage : comparaison avec des enfants témoins. Mémoire d'orthophonie*. Université Lille 2.
- Lepeyre, C., De Lagausie, P., Merrot, T., Baumstarck, K., Oudyi, M., & Dubus, J.-C. (2013). État de santé, suivi et qualité de vie à moyen terme d'enfants opérés d'une atrésie de l'œsophage de type III. *Archives de Pédiatrie*, *20*(10), 1096-1104.
- Mahoney, L., & Rosen, R. (2016). Feeding Difficulties in Children with Esophageal Atresia. *Paediatric Respiratory Reviews*, *19*, 21-27. <https://doi.org/10.1016/j.prrv.2015.06.002>
- Mcheik, J.-N., & Levard, G. (2006). Malformations congénitales de l'œsophage. *EMC - Gastro-entérologie*, *1*(3), 1-15.
- Menzies, J., Hughes, J., Leach, S., Belessis, Y., & Krishnan, U. (2017). Prevalence of Malnutrition and Feeding Difficulties in Children With Esophageal Atresia: *Journal of Pediatric Gastroenterology and Nutrition*, *64*(4), e100-e105.
- Michaud, L., Castelain, V., Sfeir, R., Turck, D., & Gottrand, F. (2008). Troubles de l'oralité après chirurgie digestive néonatale. *Archives de Pédiatrie*, *15*(5), 840-841.
- Migraine, A., Nicklaus, S., Parnet, P., Lange, C., Monnery-Patris, S., Des Robert, C., ... Roze, J.-C. (2013). Effect of preterm birth and birth weight on eating behavior at 2 y of age. *American Journal of Clinical Nutrition*, *97*(6), 1270-1277.
- Organisation Mondiale de la Santé. (2017, Juillet). Alimentation du nourrisson et du jeune enfant. Consulté à l'adresse

- Pierrehumbert, B., Borghini, A., Forcada-Guex, M., Jaunin, L., Müller-Nix, C., & Ansermet, F. (2004). Validation française d'un questionnaire de stress post-traumatique destiné aux parents d'enfants présentant un risque périnatal élevé. *Annales Médico-psychologiques, revue psychiatrique*, 162(9), 711-721.
- Puech M, & Vergeau D. (2004). Dysoralité : du refus à l'envie. *Rééducation orthophonique*, 42(220), 123-137.
- Puntis, J. W., Ritson, D. G., Holden, C. E., & Buick, R. G. (1990). Growth and feeding problems after repair of oesophageal atresia. *Archives of Disease in Childhood*, 65(1), 84-88.
- Ramsay, M., & Birnbaum, R. (2013). Feeding difficulties in children with esophageal atresia: treatment by a multidisciplinary team: Feeding difficulties in EA. *Diseases of the Esophagus*, 26(4), 410-412.
- Renard, D. M., & Prévot, D. J. (1964). *Jean Prévot, ... et Michel Renard, ... L'Atrésie congénitale de l'oesophage ...* Doin, Deren et Cie (Nancy, impr. G. Thomas).
- Rigal, N., Chabanet, C., Issanchou, S., & Monnery-Patris, S. (2012). Links between maternal feeding practices and children's eating difficulties. Validation of French tools. *Appetite*, 58(2), 629-637.
- Rintala, R. J., Sistonen, S., & Pakarinen, M. P. (2009). Outcome of esophageal atresia beyond childhood. *Seminars in Pediatric Surgery*, 18(1), 50-56.
- Rudolph, C., & Link, D. (2002). Feeding disorders in infants and children. *Pediatric Clinics of North America*, 49(1), 97-112.
- Senez, C. (2015). *Rééducation des troubles de l'alimentation et de la déglutition*.
- Sfeir, R. (1997, octobre 14). *Atrésie de l'œsophage : Analyse de la série Lilloise avec étude des formes à grand écart inter fragmentaire*. Lille 2 Droit et Santé.
- Sfeir, R., Michaud, L., Salleron, J., & Gottrand, F. (2013). Epidemiology of esophageal atresia: Epidemiology of esophageal atresia. *Diseases of the Esophagus*, 26(4), 354-355.
- Sfeir, R., Michaud, L., Sharma, D., Richard, F., & Gottrand, F. (2015). National Esophageal Atresia Register. *European Journal of Pediatric Surgery*, 25(6), 497-499.
- Spitz, L. (2007). Oesophageal atresia. *Orphanet Journal of Rare Diseases*, 2(1), 24.
- Stevenson, R. D., & Allaire, J. H. (1991). The Development of Normal Feeding and Swallowing. *Pediatric Clinics of North America*, 38(6), 1439-1453.
- Sudre-Levillain, I., Roman, S., Nicollas, & Triglia, J. (2001). Trachéomalacies et dyskinésies trachéales. *Archives de Pédiatrie*, 8(7), 757-762.
- Thibault, C. (2007). *Orthophonie et oralité: la sphère oro-faciale de l'enfant*. Issy-les-Moulineaux [France: Elsevier Masson.

Vouters, J. (2013). « *Cric, crac... je croque !* » *Le passage aux morceaux chez les enfants opérés d'une atrésie de l'œsophage : création d'un livret de conseils destiné aux parents*. Université Lille 2.

## **Tables des matières des annexes**

<b>ANNEXE 1 : Classifications de Ladd, Voght et Gross des atrésies de l'œsophage.....</b>	<b>II</b>
<b>ANNEXE 2 : Les malformations associées à l'atrésie de l'œsophage.....</b>	<b>III</b>
<b>ANNEXE 3 : Calendrier de suivi du PNDS (2008).....</b>	<b>IV</b>
<b>ANNEXE 4 : Diagramme de flux de la constitution de la cohorte.....</b>	<b>V</b>
<b>ANNEXE 5 : Questionnaire de l'étude.....</b>	<b>VI</b>
<b>ANNEXE 6 : Présentation du questionnaire.....</b>	<b>IX</b>
<b>ANNEXE 7 : Lettre de consentement éclairé.....</b>	<b>X</b>
<b>ANNEXE 8 : Déclaration Helsinki.....</b>	<b>XI</b>
<b>ANNEXE 9 : Taux de retour des appels téléphoniques et du questionnaire .....</b>	<b>XII</b>
<b>ANNEXE 10 : Liste des variables de l'étude.....</b>	<b>XIII</b>
<b>ANNEXE 11 : L'accompagnement des TOA après l'hospitalisation.....</b>	<b>XIV</b>
<b>ANNEXE 12 : Tableaux de contingence (information / prévention / suivi).....</b>	<b>XV</b>
<b>ANNEXE 13 : Résultats aux comparaisons des variables quantitatives.....</b>	<b>XVI</b>

**ANNEXE 1 : Classifications de Ladd, Voght et Gross des atrésies de l'oesophage**

<b>L</b>	<b>V</b>	<b>G</b>	<b>Signification</b>	
	1		Oesophage absent	
I	2	A	Atrésie isolée sans fistule oesotrachéale	
II	3 a	B	Atrésie avec fistule oesotrachéale du cul de sac supérieur	
III	3 b	C	Atrésie avec fistule oesotrachéale du cul de sac inférieur	
IV			Atrésie avec fistule du cul-de-sac inférieur sur la bronche souche droite	
V	3 c	D	Atrésie avec double fistule des deux culs-de-sac	
	4	E	Fistule en H sans atrésie	

*Classifications de Ladd, Voght et Gross des atrésies de l'oesophage (selon Sfeir, 1997)*

## ANNEXE 2 : Les malformations associées à l'atrésie de l'œsophage

<b>Malformation</b>	Fréquence de l'association
Cardiopathies	7 à 35 %
Malformations squelettiques	20 à 23 %
Malformation digestives	8 à 21 %
Anomalies génito-urinaires	1 à 16 %
Malformations faciales	6 à 7 %
Anomalies chromosomiques	2 à 4 %

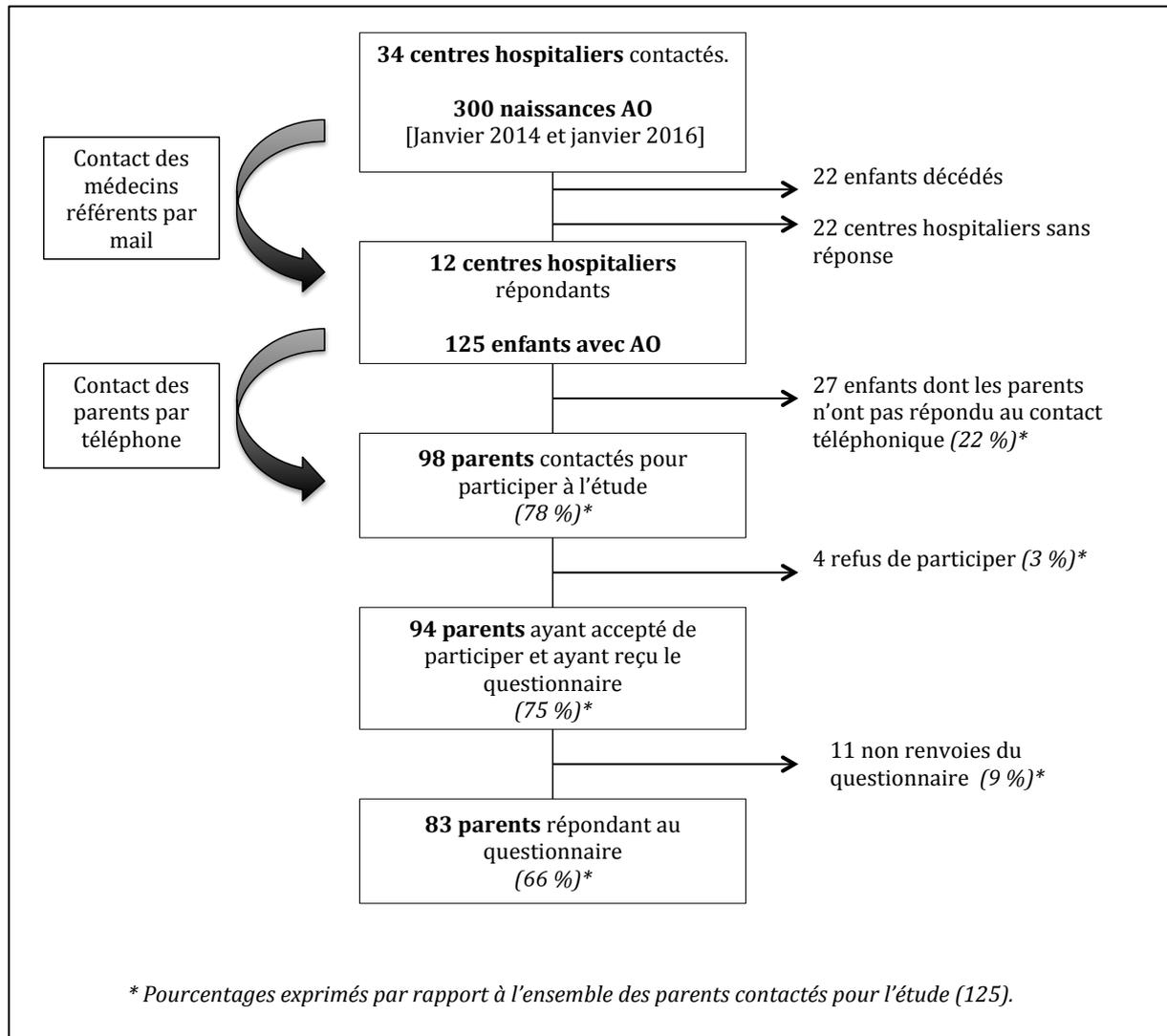
*Malformations associées aux atrésies de l'œsophage (Gold et al, 2006)*

### ANNEXE 3 : Calendrier de suivi du PNDS (2008)

	Chirurgien	Pédiatre	Psychologue	Diététicienne	Orthophoniste	Orthopédiste ou médecin de médecine physique et de rééducation	Médecin adulte
1 mois	X	X					
3 mois	X	X	X	X	X	X	
6 mois		X					
12 mois	X						
18 mois	X	X	X	X	X	X	
24 mois		X					
36 mois	X				X		
6 ans	X	X	X	X	X	X	
Tous les 2 ans	X	X					
16/18 ans	X	X	X			X	X

*Calendrier de suivi des enfants avec une atrésie de l'oesophage préconisé par le PNDS en 2008 (HAS, 2008).*

## ANNEXE 4 : Diagramme de flux de la constitution de la cohorte



## Annexe 5 : Questionnaire de l'étude

### Questionnaire du comportement alimentaire du jeune enfant (QCAJE) :

Pour chaque phrase, cochez la case qui correspond le mieux à votre enfant quand il avait DEUX ANS.

- 1 = très faux
- 2 = faux
- 3 = moyennement faux
- 4 = vrai
- 5 = très vrai

#### 1. Mon enfant est content de passer à table.

(1 = très faux / 2 = faux / 3 = moyennement faux / 4 = vrai / 5 = très vrai)

	1	2	3	4	5	
Très faux	<input type="radio"/>	Très vrai				

#### 2. Mon enfant aime beaucoup certains aliments et en rejette d'autres très fortement

(1 = très faux / 2 = faux / 3 = moyennement faux / 4 = vrai / 5 = très vrai)

	1	2	3	4	5	
Très faux	<input type="radio"/>	Très vrai				

#### 3. Mon enfant est intéressé par la nourriture

(1 = très faux / 2 = faux / 3 = moyennement faux / 4 = vrai / 5 = très vrai)

	1	2	3	4	5	
Très faux	<input type="radio"/>	Très vrai				

#### 4. Mon enfant mange en petites quantités (même s'il aime ce qu'il mange)

(1 = très faux / 2 = faux / 3 = moyennement faux / 4 = vrai / 5 = très vrai)

	1	2	3	4	5	
Très faux	<input type="radio"/>	Très vrai				

#### 5. Mon enfant accepte spontanément de goûter les aliments qu'il ne connaît pas.

(1 = très faux / 2 = faux / 3 = moyennement faux / 4 = vrai / 5 = très vrai)

	1	2	3	4	5	
Très faux	<input type="radio"/>	Très vrai				

**6. Mon enfant mange seulement une petite variété d'aliments**

(1 = très faux / 2 = faux / 3 = moyennement faux / 4 = vrai / 5 = très vrai)

	1	2	3	4	5	
Très faux	<input type="radio"/>	Très vrai				

**7. Mon enfant est un petit mangeur (quel que soit ce qui est servi, bon ou mauvais)**

(1 = très faux / 2 = faux / 3 = moyennement faux / 4 = vrai / 5 = très vrai)

	1	2	3	4	5	
Très faux	<input type="radio"/>	Très vrai				

**8. Mon enfant fait la grimace quand on lui présente de nouveaux aliments**

(1 = très faux / 2 = faux / 3 = moyennement faux / 4 = vrai / 5 = très vrai)

	1	2	3	4	5	
Très faux	<input type="radio"/>	Très vrai				

**9. Mon enfant a bon appétit**

(1 = très faux / 2 = faux / 3 = moyennement faux / 4 = vrai / 5 = très vrai)

	1	2	3	4	5	
Très faux	<input type="radio"/>	Très vrai				

**10. Mon enfant accepte une grande variété de légumes**

(1 = très faux / 2 = faux / 3 = moyennement faux / 4 = vrai / 5 = très vrai)

	1	2	3	4	5	
Très faux	<input type="radio"/>	Très vrai				

**11. Mon enfant rejette les aliments nouveaux, rien qu'en les voyant**

(1 = très faux / 2 = faux / 3 = moyennement faux / 4 = vrai / 5 = très vrai)

	1	2	3	4	5	
Très faux	<input type="radio"/>	Très vrai				

**12. Mon enfant a plaisir à manger**

(1 = très faux / 2 = faux / 3 = moyennement faux / 4 = vrai / 5 = très vrai)

	1	2	3	4	5	
Très faux	<input type="radio"/>	Très vrai				

## **Pendant l'hospitalisation :**

- 1. Mon enfant a bénéficié d'une prise en charge des troubles de l'oralité alimentaire :**
  - Oui
  - Non
  
- 2. Si oui, qui a proposé cette prise en charge ? (Plusieurs réponses possibles)**
  - Vous, parents
  - Infirmier puériculteur
  - Kinésithérapeute
  - Orthophoniste
  - Pédiatre
  - Autre \_\_\_\_\_
  
- 3. Avez vous eu des informations concernant les difficultés alimentaires du jeune enfant ?**
  - Oui
  - Non
  
- 4. Qui vous a informé ? (plusieurs réponses possibles)**
  - Un proche
  - Infirmier puériculteur
  - Kinésithérapeute
  - Orthophoniste
  - Pédiatre
  - Autre \_\_\_\_\_

## **Après l'hospitalisation :**

- 1. Mon enfant a bénéficié d'un suivi pour un trouble de l'oralité alimentaire :**
  - Oui
  - Non
  
- 2. Si oui, sous quelle forme ? (plusieurs réponses possibles)**
  - Séances d'orthophonie
  - Séances de kinésithérapie
  - Prise en charge psychologique
  - Atelier de groupe autour de l'alimentation
  - Autre \_\_\_\_\_
  
- 3. Pendant combien de temps ?**
  - Entre 1 et 3 mois
  - Entre 3 et 6 mois
  - Entre 6 mois et 1 an
  - Plus d'un an
  
- 4. A quelle fréquence ?**
  - 1 fois par semaines
  - Plusieurs fois par mois
  - 1 fois par mois
  - Ponctuellement, plusieurs fois par an

## ANNEXE 6 : Présentation du questionnaire

« Madame, Monsieur,

Nous vous proposons de participer à une enquête dans le cadre d'un mémoire en orthophonie qui étudie le développement du comportement alimentaire de votre enfant. Le but de cette étude est d'apprécier l'oralité alimentaire, à deux ans, des enfants avec une atrésie de l'œsophage. L'étude est divisée en deux étapes : votre réponse au questionnaire joint et l'étude du compte-rendu d'hospitalisation initiale de votre enfant. Le compte-rendu sera transmis, après votre accord, par le médecin du CHU qui a pris en charge votre enfant.

Le questionnaire ci-joint, vous prendra moins de 5 minutes.

La participation de votre enfant à cet essai est librement consentie et volontaire et vous pouvez la refuser.

De même, si vous changiez d'avis, après avoir accepté de participer, vous pourriez interrompre votre participation et celle de votre enfant à tout moment.

Les résultats de l'essai pourront faire l'objet d'une publication scientifique qui ne fera apparaître aucune donnée individuelle nominative. Vous pouvez demander les résultats de cette étude en adressant un mail à l'adresse suivante : \_\_\_\_\_@\_\_\_\_\_.fr

Vous pourrez à tout moment demander des informations complémentaires au Dr Flamant (06XXXXXXXX) qui dirige cette étude ou à Mme PHILIPPE Clara (07XXXXXXXX).

En vous remerciant de votre confiance et en restant à votre disposition pour toute information complémentaire.

Mme PHILIPPE Clara

Etudiante en orthophonie »



UNIVERSITÉ DE NANTES

## ANNEXE 7 : Lettre de consentement éclairé

Dans le cadre de la réalisation d'une recherche portant sur l'évaluation des pratiques et des conséquences des pratiques orthophoniques, Mme PHILIPPE Clara, étudiante en orthophonie m'a proposé de participer à une investigation organisée par le Centre de Formation Universitaire en Orthophonie (CFUO) de Nantes.

Mme PHILIPPE m'a clairement présenté les objectifs de l'étude, m'indiquant que je suis libre d'accepter ou de refuser de participer à cette recherche. Afin d'éclairer ma décision, il m'a été communiqué une information précisant clairement les implications d'un tel protocole, à savoir : le but de la recherche, sa méthodologie, sa durée, les bénéfices attendus, ses éventuelles contraintes, les risques prévisibles, y compris en cas d'arrêt de la recherche avant son terme. J'ai pu poser toutes les questions nécessaires, notamment sur l'ensemble des éléments déjà cités, afin d'avoir une compréhension réelle de l'information transmise. J'ai obtenu des réponses claires et adaptées, afin que je puisse me faire mon propre jugement.

Toutes les données et informations me concernant resteront strictement confidentielles. Seule Mme PHILIPPE Clara y aura accès.

J'ai pris connaissance de mon droit d'accès et de rectification des informations nominatives me concernant et qui sont traitées de manière automatisée, selon les termes de la loi.

J'ai connaissance du fait que je peux retirer mon consentement à tout moment du déroulement du protocole et donc cesser ma participation, sans encourir aucune responsabilité. Je pourrai à tout moment demander des informations complémentaires concernant cette étude.

Ayant disposé d'un temps de réflexion suffisant avant de prendre ma décision, et compte tenu de l'ensemble de ces éléments, j'accepte librement et volontairement de participer à cette étude dans les conditions établies par la loi.

En cochant cette case, je donne mon consentement libre et éclairé pour participer à cette étude.

En cochant cette case, je refuse de participer à l'étude.

## ANNEXE 8 : Déclaration Helsinki

Je soussignée Mme PHILIPPE Clara, dans le cadre de la rédaction de mon mémoire de fin d'études en orthophonie à l'Université de Nantes, m'engage à respecter les principes de la déclaration d'Helsinki concernant la recherche impliquant la personne humaine.

L'étude proposée vise à : interroger des parents par le biais d'un questionnaire à propos du comportement alimentaire de leur enfant ayant été opéré d'une atrésie de l'œsophage. Les réponses à ce questionnaire ont été comparées aux cohortes d'enfants nés prématurément ou à terme sans pathologie.

Conformément à la déclaration d'Helsinki, je m'engage à :

- informer tout participant sur les buts recherchés par cette étude et les méthodes mises en œuvre pour les atteindre,
- obtenir le consentement libre et éclairé de chaque participant à cette étude
- préserver l'intégrité physique et psychologique de tout participant à cette étude,
- informer tout participant à une étude sur les risques éventuels encourus par la participation à cette étude,
- respecter le droit à la vie privée des participants en garantissant l'anonymisation des données recueillies les concernant, à moins que l'information ne soit essentielle à des fins scientifiques et que le participant (ou ses parents ou son tuteur) ne donne son consentement éclairé par écrit pour la publication,
- préserver la confidentialité des données recueillies en réservant leur utilisation au cadre de cette étude.

Fait à Nantes,

Le : 10 Septembre 2017

PHILIPPE Clara

## ANNEXE 9 : Taux de retour des appels téléphoniques et du questionnaire

Ville	Personnes Contactées	Réponses positives	Réponses négatives	Non réponses	Renvoi du questionnaire (%)	Non renvoi du questionnaire
<b>Grenoble</b>	18	16	0	2	15 (18)	1
<b>Nantes</b>	15	14	1	0	12 (14,5)	2
<b>Lille</b>	16	15	0	1	12 (14,5)	3
<b>Paris D.</b>	14	9	0	5	9 (10,8)	0
<b>Montpellier</b>	13	9	2	2	8 (9,6)	1
<b>Bordeaux</b>	12	8	0	4	6 (7,2)	2
<b>Angers</b>	7	6	0	1	6 (7,2)	0
<b>Strasbourg</b>	7	5	0	2	5 (6)	0
<b>Amiens</b>	10	6	0	4	5 (6)	1
<b>Rennes</b>	6	3	0	3	2 (2,4)	1
<b>Caen</b>	5	2	0	3	2 (2,4)	0
<b>Brest</b>	2	1	1	0	1 (1,4)	0
	125	94	4	27	83	11

## ANNEXE 10 : Liste des variables de l'étude

- Données du questionnaire :

QCAJE (variables quantitatives)	Autres questions (variables qualitatives binaires)
Néophobie, sélectivité répertoire alimentaire restreint (= RAR), petit appétit, petit intérêt conduite alimentaire restreinte (= CAR).	Prévention Information Prise en charge (= PEC)

- Données des comptes rendus :

Variables quantitatives	Variables qualitatives
<p><i>Naissance :</i> âge gestationnel, poids de naissance, Z score du poids de naissance (Z), Apgar 5</p> <p><i>Equipement médical :</i> intubation, aspiration, ventilation mécanique, sonde nasogastrique (= SNG), gastrostomie, cathéter</p>	<p><i>Naissance :</i> Genre (M/F), Pré maturité, Césarienne, Césarienne en urgence, Gémellarité, Primiparité, Apgar 5 &lt; 7, Z score = -1</p> <p><i>Equipement médical :</i> intubation au delà de la chirurgie, aspiration, relais ventilatoire, SNG, gastrostomie, cathéter</p>

- Données relatives à l'atrésie :

Variable quantitative	Variable qualitative
Jour de la chirurgie	AO III 1 <sup>ère</sup> intension Tension Diagnostic anténatal Malformations associées

- Données relatives à l'alimentation :

Variable quantitative	Variable qualitative
Début de l'alimentation	Allaitement Lait maternel (allaitement + LM au biberon) Début de l'alimentation per os à J10 (= Débal10)

## ANNEXE 11 : L'accompagnement des TOA après l'hospitalisation

	1/sem	1/mois	Plus/sem	Ponctuel
1 – 3 mois	4	1	2	2
3 – 6 mois	2	2	3	0
6 mois – 1 an	2	0	0	0
> 1 an	11	0	3	4

*Fréquence et durée des suivis des enfants pour TOA*

	Nombre	%
Orthophoniste	28	77,8
Ortho – atelier de groupe	3	8,3
Ortho – kiné	2	5,5
Ortho - psy	1	2,8
Atelier de groupe	1	2,7
Kiné	1	2,7

*Professionnels rencontrant les enfants pour le suivi des TOA*

	Prévention		Information		PEC	
	Nombre	%	Nombre	%	Nombre	%
<b>Grenoble</b>	5	55,5	9	60	6	66,7
<b>Nantes</b>	1	9	11	91,7	3	25
<b>Montpellier</b>	3	37,5	4	50	4	50
<b>Lille</b>	9	75	11	91,7	8	66,7
<b>Paris D</b>	1	11,1	2	22,2	3	33,3
<b>Bordeaux</b>	1	16,7	4	66,7	2	33,3
<b>Angers</b>	1	16,7	6	100	2	33,3
<b>Strasbourg</b>	1	20	3	60	2	40
<b>Rennes</b>	2	66,7	2	66,7	1	33,3
<b>Caen</b>	2	100	2	100	1	50
<b>Brest</b>	1	100	1	100	1	100
<b>Amiens</b>	2	50	2	50	2	50

*Prévention, information et PEC des TOA selon les centres hospitaliers.*

**ANNEXE 12 : Tableaux de contingence (information / prévention / suivi)**

		Suivi TOA		Total
		0	1	
Informations TOA	0	19	7	26
		73 %	27 %	100 %
	1	28	29	57
		49 %	51 %	100 %
Total		47	36	83
		56,6 %	43,4 %	100 %

*Tableau de contingence de l'information pendant l'hospitalisation et du suivi après l'hospitalisation pour TOA.*

		Suivi TOA		Total
		0	1	
Actes préventifs TOA	0	42	12	54
		78 %	22 %	100 %
	1	5	25	29
		17 %	83 %	100 %
Total		47	36	83
		56,6 %	43,4 %	100 %

*Tableau de contingence des actes préventifs pendant l'hospitalisation et du suivi après l'hospitalisation pour TOA.*

## ANNEXE 13 : Résultats aux comparaisons des variables quantitatives

### Néophobie

#### *Equipement médical*

		Shapiro Wilk	Test bilatéral	Test unilatéral
Intubation	0	p = 0,426	p = 0,664	
	1	p = 0,005		
Relais ventilatoire	0	p = 0,042	p = 0,150	
	1	p = 0,037		
Aspiration	0	p = 0,031	p = 0,295	
	1	p = 0,010		
SNG	0	p = 0,961	p = 0,733	
	1	p = 0,002		
Gastrostomie	0	p = 0,001	p = 0,755	
	1	p = 0,847		

#### *Données concernant la naissance*

		Shapiro Wilk	Test bilatéral	Test unilatéral
Genre	F	p = 0,086	p = 0,549	
	M	p = 0,017		
Prématurité	0	p = 0,001	p = 0,662	
	1	p = 0,080		
Poids (Z = - 1)	0	p < 0,001	p = 0,176	
	1	p = 0,246		
Césarienne	0	p = 0,007	p = 1	
	1	p = 0,192		
Césarienne en urgence	0	p = 0,235	p = 0,877	
	1	p = 0,373		
	1	p = 0,003		
Apgar 5 < 7	0	p = 0,002	<b>p = 0,049</b>	p = 0,025 (0 < 1)
	1	p = 0,651		
Gémellarité	0	p < 0,001	p = 0,119	
	1	p = 0,313		
Primiparité	0	p = 0,091	p = 0,529	
	1	p = 0,009		

#### *Données concernant l'alimentation*

		Shapiro Wilk	Test bilatéral	Test unilatéral
DébAl J10	0	p = 0,079	p = 0,767	
	1	p = 0,012		
Allaitement	0	p = 0,006	p = 0,716	
	1	p = 0,071		
Lait maternel	0	p = 0,055	p = 0,191	
	1	p = 0,019		

*Données concernant l'atrésie*

		Shapiro Wilk	Test bilatéral	Test unilatéral
AO III	0	p = 0,219	p = 1	
	1	p = 0,001		
Malformations associées	0	p = 0,006	p = 0,970	
	1	p = 0,142		
1 <sup>ère</sup> intension	0	p = 0,001	p = 0,431	
	1	p = 0,982		
Tension	0	p = 0,002	p = 0,411	
	1	p = 0,962		

*Données concernant l'accompagnement des TOA :*

		Shapiro Wilk	Test bilatéral	Test unilatéral
Information	0	p = 0,156	p = 0,711	
	1	p = 0,007		
Prévention	0	p = 0,008	p = 0,480	
	1	p = 0,162		
PEC	0	p = 0,005	p = <b>0,059</b>	
	1	p = 0,007		

**Sélectivité**

*Equipement médical*

		Shapiro Wilk	Test bilatéral	Test unilatéral
Intubation	0	p = 0,259	p = 0,543	
	1	p = 0,078		
Relais ventilatoire	0	p = 0,437	p = 0,390	
	1	p = 0,081		
Aspiration	0	p = 0,702	p = 0,616	
	1	p = 0,055		
SNG	0	p = 0,430	p = 0,474	
	1	p = 0,102		
Gastrostomie	0	p = 0,067	p = 0,718	
	1	p = 0,938		

*Données concernant la naissance*

		Shapiro Wilk	Test bilatéral	Test unilatéral
Genre	F	p = 0,539	p = 0,501	
	M	p = 0,063		
Prématurité	0	p = 0,09	p = 0,711	
	1	p = 0,147		
Poids (Z = -1)	0	p = 0,153	p = 0,508	
	1	p = 0,509		
Césarienne	0	p = 0,277	p = 0,599	
	1	p = 0,159		
Césarienne en urgence	0	p = 0,234	p = 0,970	
	1	p = 0,710		
Apgar 5 < 7	0	p = 0,073	p = 0,816	
	1	p = 0,796		

Gémellarité	0	p = 0,070	p = 0,121	
	1	p = 0,804		
Primiparité	0	p = 0,289	p = 0,644	
	1	p = 0,093		

*Données concernant l'alimentation*

		Shapiro Wilk	Test bilatéral	Test unilatéral
DébA110	0	p = 0,955	p = 0,666	
	1	p = 0,953		
Allaitement	0	p = 0,137	p = 0,847	
	1	p = 0,078		
Lait maternel	0	p = 0,465	p = 0,145	
	1	p = 0,039		

*Données concernant l'atrésie*

		Shapiro Wilk	Test bilatéral	Test unilatéral
AO III	0	p = 0,985	p = 0,356	
	1	p = 0,051		
Malformations associées	0	p = 0,140	p = 0,224	
	1	p = 0,379		
1 <sup>ère</sup> intension	0	p = 0,06	p = 0,087	
	1	p = 0,860		
Tension	0	p = 0,081	p = 0,293	
	1	p = 0,127		

*Données concernant l'accompagnement des TOA*

Information	0	p = 0,383	p = 0,408	
	1	p = 0,164		
Prévention	0	p = 0,065	p = 0,604	
	1	p = 0,201		
PEC	0	p = 0,081	p = 0,010	p = 0,005 (0 < 1)
	1	p = 0,222		

**Appétit**

*Equipement médical*

		Shapiro Wilk	Test bilatéral	Test unilatéral
Intubation	0	p = 0,093	p = 0,560	
	1	p = 0,001		
Relais ventilatoire	0	p = 0,134	p = 0,608	
	1	p = 0,014		
Aspiration	0	p = 0,532	p = 0,780	
	1	p = 0,004		
SNG	0	p = 0,078	p = 0,533	
	1	p = 0,013		
Gastrostomie	0	p = 0,004	p = 0,198	
	1	p = 0,239		

*Données concernant la naissance*

		Shapiro Wilk	Test bilatéral	Test unilatéral
Genre	0	p = 0,387	p = 0,295	
	1	p = 0,006		
Prématurité	0	p = 0,019	p = 0,041	p = 0,021 (0 < 1)
	1	p = 0,018		
Poids (Z = -1)	0	p = 0,011	p = 0,040	p = 0,020 (0 < 1)
	1	p = 0,130		
Césarienne	0	p = 0,024	p = 0,101	
	1	p = 0,075		
Césarienne en urgence	0	p = 0,184	p = 0,613	
	1	p = 0,128		
	1	p = 0,018		
Apgar 5 < 7	0	p = 0,005	p = 0,322	
	1	p = 0,268		
Gémellarité	0	p = 0,002	p = 0,172	
	1	p = 0,281		
Primiparité	0	p = 0,251	p = 0,598	
	1	p = 0,013		

*Données concernant l'alimentation*

		Shapiro Wilk	Test bilatéral	Test unilatéral
Début alimentation	0	p = 0,008	p = 0,375	
	1	p = 0,133		
Allaitement	0	p = 0,010	p = 0,558	
	1	p = 0,195		
Lait maternel	0	p = 0,065	p = 0,858	
	1	p = 0,195		

*Données concernant l'atrésie*

		Shapiro Wilk	Test bilatéral	Test unilatéral
AO III	0	p = 0,008	p = 0,126	
	1	p = 0,104		
Malformations associées	0	p = 0,025	p = 0,097	
	1	p = 0,075		
1 <sup>ère</sup> intension	0	p = 0,007	p = 0,111	
	1	p = 0,038		
Tension	0	p = 0,005	p = 0,272	
	1	p = 0,250		

*Données concernant l'accompagnement des TOA :*

Information	0	p = 0,035	p = 0,428	
	1	p = 0,032		
Prévention	0	p = 0,003	p = 0,599	
	1	p = 0,701		
PEC	0	p = 0,003	p = <b>0,001</b>	
	1	p = 0,082		

## Intérêt

### *Equipement médical*

		Shapiro Wilk	Test bilatéral	Test unilatéral
Intubation	0	p = 0,182	p = 0,954	
	1	p < 0,001		
Relais ventilatoire	0	p < 0,001	p = 0,152	
	1	p = 0,050		
Aspiration	0	p = 0,547	p = 0,626	
	1	p < 0,001		
SNG	0	p = 0,425	p = 0,175	
	1	p < 0,001		
Gastrostomie	0	p < 0,001	p = 0,016	p = 0,008 (0 < 1)
	1	p = 0,320		

### *Données concernant la naissance*

		Shapiro Wilk	Test bilatéral	Test unilatéral
Genre	0	p = 0,161	p = 0,317	
	1	p < 0,001		
Prématurité	0	p < 0,001	p = 0,002	p < 0,001 (0 < 1)
	1	p = 0,468		
Poids	0	p = 0,003	p = 0,226	
	1	p = 0,033		
Césarienne	0	p = 0,001	p = 0,654	
	1	p = 0,077		
Césarienne en urgence	0	p = 0,205	p = 0,616	
	1	p = 0,696		
	1	p < 0,001		
Apgar 5 < 7	0	p < 0,001	<b>p = 0,05</b>	p = 0,025 (0 < 1)
	1	p = 0,255		
Gémellarité	0	p < 0,001	p = 0,063	
	1	p = 0,178		
Primiparité	0	p = 0,028	p = 0,764	
	1	p = 0,004		

### *Données concernant l'alimentation*

		Shapiro Wilk	Test bilatéral	Test unilatéral
DébA110	0	p = 0,200	p = 0,703	
	1	p = 0,043		
Allaitement	0	p = 0,004	p = 0,506	
	1	p = 0,016		
Lait maternel	0	p = 0,019	p = 0,889	
	1	p = 0,003		

### *Données concernant l'atrésie*

		Shapiro Wilk	Test bilatéral	Test unilatéral
AO III	0	p = 0,275	p = 0,677	
	1	p = 0,044		
Malformations associées	0	p = 0,002	p = 0,866	
	1	p = 0,044		

1 <sup>ère</sup> intension	0	p < 0,001	p = 0,134	
	1	p = 0,487		
Tension	0	p < 0,001	p = 0,264	
	1	p = 0,127		

*Données concernant l'accompagnement des TOA :*

Information	0	p = 0,125	P = 0,280	
	1	p < 0,001		
Prévention	0	p = 0,001	P = 0,996	
	1	p = 0,082		
PEC	0	p < 0,001	<b>P &lt; 0,001</b>	P < 0,001 (0 < 1)
	1	p = 0,441		

**Titre du Mémoire :** Le comportement alimentaire, à deux ans, des enfants opérés d'une atrésie de l'œsophage.

## RÉSUMÉ

**Objectif :** L'objectif de cette étude était d'apprécier le comportement alimentaire, à deux ans, des enfants opérés d'une atrésie de l'œsophage en période néonatale. Le rationnel de l'étude étant qu'une meilleure connaissance des difficultés de ces enfants sur le plan alimentaire permettrait d'améliorer leur prise en soin.

**Méthode :** Un questionnaire a été rempli par 83 parents d'enfant opéré d'une atrésie de l'œsophage. Ce questionnaire était composé du QCAJE (Questionnaire du Comportement Alimentaire du Jeune Enfant) ainsi que de questions à propos de l'information, la prévention et la prise en charge des troubles de l'oralité alimentaire. Les réponses au questionnaire ont été comparées à celles d'enfants nés à terme et nés prématurément sans pathologie. Les réponses ont ensuite été confrontées aux données relevées dans les comptes-rendus d'hospitalisation initiale.

**Résultats :** Les enfants avec une atrésie ont un intérêt pour la nourriture et un appétit plus faibles que les enfants nés à terme ou prématurément sans pathologie. Certains facteurs périnataux sont associés au comportement alimentaire des enfants avec atrésie de l'œsophage.

**Conclusion :** Les enfants opérés d'une atrésie de l'œsophage ont plus de difficultés de comportement alimentaire que les enfants nés à terme ou prématurément indemnes de toute pathologie.

## MOTS-CLÉS

Appétit – Atrésie de l'œsophage – Comportement alimentaire – Intérêt – Néophobie – Orthophonie – Sélectivité

---

## ABSTRACT

**Objective :** The aim of this study is to improve the knowledge about the eating behavior for two years old children, characterized by a reconstructive surgery for esophageal atresia. Hence a significant way to improve their care.

**Method :** 83 parents participated to this statistical operation, answering a specific questionnaire. They were all affected by children operated for esophageal atresia. This questionnaire is composed with QCAJE, associated with questions about information, prevention and eating disorders care. Questionnaire responses were compared with full-term or born prematurely children, without any pathology. Finally, they were analysed and connected to encountered former datas observed in hospitalization reports.

**Results :** Children with esophageal atresia present lower food and appetite interest than children, without pathology, born at term or prematurely. Some perinatal factors are also associated with the eating behavior of children with esophageal atresia.

**Conclusion :** Children with esophageal atresia present larger eating behavior difficulties than full-term or prematurely, free from any pathology.

## KEY WORDS

Appetite – Esophageal atresia – Eating behavior – Interest – Neophobia – Picky eating – Speech therapy