

DEPARTEMENT ORTHOPHONIE
FACULTE DE MEDECINE
Pôle Formation
59045 LILLE CEDEX
Tél : 03 20 62 76 18
departement-orthophonie@univ-lille.fr



 **Université
de Lille**

 **ufr35** faculté
de médecine

MÉMOIRE

En vue de l'obtention du
Certificat de Capacité d'Orthophoniste
présenté par

Manon LETUÉ

qui sera soutenu publiquement en juin 2023

**État des lieux descriptif des difficultés alimentaires
observées chez des enfants âgés de 6 mois à 6 ans
porteurs d'une atrésie de l'œsophage au centre de
référence des affections chroniques et
malformatives de l'œsophage (CRACMO) de Lille**

MÉMOIRE dirigé par

Audrey LECOUFLE, Orthophoniste, Centre de Référence des Affections Chroniques et
Malformatives de l'Œsophage (CRACMO), Hôpital Jeanne de Flandre, Lille

Lille – 2023

Remerciements

Mes premiers remerciements sont adressés à Audrey Lecoufle pour m'avoir encadrée avec bienveillance et expertise dans la réalisation de ce mémoire. Je remercie également le Pr. Frédéric Gottrand pour sa relecture et pour l'intérêt qu'il a porté à ce sujet. Je leur suis particulièrement reconnaissante d'avoir pris le temps non seulement de lire et de commenter ce mémoire mais également d'être présents pour la soutenance.

Je souhaite également remercier les différentes maîtres de stage qui m'ont accueillie chaleureusement depuis le début de mon cursus. Merci d'avoir accepté de partager avec moi vos connaissances et vos savoir-faire.

Je remercie également ma famille qui a cru en moi, m'a fait confiance et m'a soutenue dès le début de mes études supérieures. Une pensée toute particulière à ma petite sœur, Candyce, que je remercie pour tous ses conseils. Merci à Alexandre pour sa patience et sa présence au quotidien. Merci à Anaïs, Marine et Perrine sans qui ces cinq dernières années n'auraient pas été les mêmes.

Enfin, je remercie tous ceux qui, de près ou de loin, m'ont soutenue et m'ont permis de réussir ces cinq années d'études à Lille.

Résumé

Objectifs : L'objectif principal de cette étude était de déterminer la prévalence des troubles alimentaires pédiatriques, chez les enfants âgés de 6 mois à 6 ans porteurs d'une atrésie de l'œsophage, à l'aide d'une échelle standardisée. L'objectif secondaire était de réaliser un recueil de données descriptif des compétences et difficultés alimentaires de ces enfants.

Méthode : Des analyses quantitatives et qualitatives (Échelle d'alimentation de l'Hôpital de Montréal pour l'Enfant et dossier médical des patients) ont été réalisées auprès de 77 enfants opérés à la naissance d'une atrésie de l'œsophage (24 filles, 53 garçons, âge médian : 71 mois, Q1–Q3 : 18–73 mois, min–max : 11–78 mois).

Résultats : 26% des enfants opérés à la naissance d'une atrésie de l'œsophage, ayant bénéficié d'un suivi orthophonique dès la naissance, présentent un trouble alimentaire pédiatrique lorsqu'ils sont évalués entre 6 mois et 6 ans. L'atrésie de l'œsophage a donc un impact fonctionnel négatif sur les compétences alimentaires de ces enfants (répercussions sur les relations familiales, le domaine sensoriel et oro-moteur et inquiétude des parents).

Conclusion : Les enfants opérés à la naissance d'une atrésie de l'œsophage présentent des difficultés alimentaires justifiant des actions précoces de prévention afin de minimiser l'impact de la malformation congénitale sur leur développement alimentaire sensoriel, oro-moteur et psycho-socio-comportemental.

Mots-clés

jeune enfant ; difficultés alimentaires ; trouble alimentaire pédiatrique ; atrésie de l'œsophage.

Abstract

Objectives : The main objective of this study was to determine the prevalence of pediatric feeding disorders in children aged 6 months to 6 years with esophageal atresia, using a standardized scale. The secondary objective was to carry out a collection of descriptive data on the eating skills and difficulties of these children.

Method : Quantitative and qualitative analysis (Montreal Children's Feeding Scale and patient's medical records) were performed for 77 children operated for esophageal atresia (24 girls, 53 boys, median age : 71 months, Q1–Q3: 18–73 months, min–max: 11–78 months).

Results : 26% of children operated for esophageal atresia, having benefited from speech therapy from birth, present a pediatric feeding disorder when they are assessed between 6 months and 6 years. Esophageal atresia has therefore a negative functional impact on the eating skills of these children (repercussions on family relationships, sensory and oral-motor domain and parental concern).

Conclusion : Children operated on at birth for esophageal atresia present food difficulties requiring early preventive actions in order to minimize the impact of the congenital malformation on their sensory, oral-motor and psycho-socio-behavioral food development.

Keywords

young child ; food difficulties ; paediatric feeding disorders ; esophageal atresia.

Table des matières

| | |
|---|-----------|
| Introduction | 1 |
| Contexte théorique, buts et hypothèses | 2 |
| 1. Atrésie de l'œsophage | 2 |
| 1.1. Définition | 2 |
| 1.2. Classification | 2 |
| 1.3. Epidémiologie | 3 |
| 1.4. Diagnostic | 4 |
| 1.5. Traitement chirurgical | 4 |
| 1.6. Suites opératoires et complications à long-terme | 5 |
| 1.6.1. Complications digestives | 5 |
| 1.6.1.1. La sténose anastomotique | 5 |
| 1.6.1.2. Le reflux gastro-œsophagien | 5 |
| 1.6.1.3. La dysphagie | 6 |
| 1.6.1.4. L'œsophagite peptique | 6 |
| 1.6.1.5. Les métaplasies gastriques et intestinales | 6 |
| 1.6.2. Complications nutritionnelles | 6 |
| 1.6.2.1. Le trouble alimentaire pédiatrique | 6 |
| 1.6.2.2. Le retard de croissance et la dénutrition | 7 |
| 1.6.3. Complications ORL/respiratoires | 7 |
| 1.6.3.1. La trachéomalacie | 7 |
| 1.6.3.2. Les infections respiratoires | 8 |
| 1.6.3.3. La récurrence de la fistule trachéo-œsophagienne | 8 |
| 1.6.4. Complications orthopédiques | 8 |
| 2. Impacts de l'atrésie de l'œsophage sur le développement alimentaire | 8 |
| 2.1. Alimentation et atrésie de l'œsophage | 8 |
| 2.1.1. Protocole de réalimentation chez les enfants opérés d'une atrésie de l'œsophage à la naissance | 8 |
| 2.1.2. Alimentation chez les enfants présentant une atrésie de l'œsophage avec anastomose différée | 9 |
| 2.2. Troubles alimentaires pédiatriques et atrésie de l'œsophage : les facteurs de risque | 9 |
| 3. Outils d'évaluation et de dépistage des difficultés alimentaires | 10 |
| 3.1. Children's Eating Behavior Inventory (Archer et al., 1991) | 10 |
| 3.2. Behavioral Pediatrics Feeding Assessment Scale (Crist et al., 2001) | 11 |
| 3.3. Children's Eating Behaviour Questionnaire (Wardle et al., 2001) | 11 |
| 3.4. ORALQUEST (Abadie, 2019) | 11 |
| 3.5. Échelle d'alimentation de l'Hôpital de Montréal pour Enfant (Ramsay et al., 2011) | 12 |
| 4. Buts et hypothèses | 13 |
| Méthode | 13 |
| 1. Participants de l'étude | 13 |
| 1.1. Critères d'inclusion | 13 |
| 1.2. Critères d'exclusion | 14 |

| | |
|---|-----------|
| 1.3. Constitution de l'échantillon | 14 |
| 1.4. Description de la population générale de l'étude | 14 |
| 2. Matériel | 15 |
| 3. Données collectées | 15 |
| 3.1. Recueil des données | 15 |
| 3.2. Traitement des données | 16 |
| Résultats | 16 |
| 1. Caractéristiques cliniques des participants | 16 |
| 1.1. Prévalence des troubles alimentaires pédiatriques | 16 |
| 1.2. Âges et sex-ratio | 18 |
| 1.3. Analyses statistiques | 18 |
| 2. Etat des lieux descriptif des difficultés alimentaires | 18 |
| Discussion | 21 |
| 1. Interprétation des résultats | 21 |
| 1.1. Objectif 1 : prévalence des troubles alimentaires pédiatriques chez les enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage | 21 |
| 1.1.1. Comparaison des résultats obtenus avec l'étude de Ramsay et al. (2011) | 21 |
| 1.1.2. Comparaison des résultats obtenus avec l'étude de Pham et al. (2021) | 21 |
| 1.2. Objectif 2 : état des lieux des difficultés alimentaires des enfants de 6 mois à 6 ans porteurs d'une atrésie de l'œsophage | 22 |
| 1.2.1. L'impact de l'alimentation sur les relations familiales | 23 |
| 1.2.2. Le domaine alimentaire sensoriel | 23 |
| 1.2.3. Le domaine alimentaire oro-moteur | 24 |
| 1.2.4. Les préoccupations parentales au sujet de l'alimentation de leur enfant | 24 |
| 2. Critique méthodologique de l'étude | 25 |
| 2.1. Biais de sélection | 25 |
| 2.2. Biais du questionnaire | 25 |
| 3. Apports pour la pratique clinique orthophonique | 26 |
| 4. Pistes de recherches | 27 |
| Conclusion | 28 |
| Bibliographie | 29 |
| Liste des annexes | 32 |
| Annexe 1 : Échelle d'alimentation de l'Hôpital de Montréal (Ramsay et al., 2011). | 32 |
| Annexe 2 : Calendrier de suivi des enfants opérés d'une atrésie de l'œsophage proposé par le CRACMO (PNDS atrésie de l'œsophage, 2018). | 32 |

Introduction

Selon le Protocole National de Diagnostic et de Soins (PNDS atrésie de l'œsophage, 2018), l'atrésie de l'œsophage est une malformation congénitale rare dont l'incidence est d'environ 160 nouveaux cas par an en France. Elle se définit par une interruption de l'œsophage, et donc, par l'impossibilité pour le liquide amniotique, le lait et la salive d'arriver jusqu'à l'estomac. Il existe cinq types d'atrésie de l'œsophage, classés selon l'écart entre la partie supérieure et inférieure de l'œsophage et la présence ou non d'une fistule trachéo-œsophagienne. La forme la plus fréquente (85-90 % des cas) est l'atrésie de l'œsophage de type III qui se caractérise par une fistule du cul-de-sac inférieur de l'œsophage vers la trachée. Dans la majorité des cas, l'enfant avec atrésie de l'œsophage est opéré, dès le lendemain de sa naissance, afin de réaliser une fermeture de l'éventuelle fistule et un rétablissement de la continuité œsophagienne. Néanmoins, de nombreuses difficultés digestives et pulmonaires peuvent survenir par la suite de cette opération (PNDS atrésie de l'œsophage, 2018).

De fait, il existe de multiples facteurs de risques d'apparition de difficultés alimentaires chez les enfants opérés à la naissance d'une atrésie de l'œsophage : le traitement chirurgical, le reflux gastro-œsophagien, la dysphagie, les blocages alimentaires, les endoscopies, la sonde naso-gastrique, etc. (Antoine, 2021). L'alimentation difficile peut alors venir perturber les relations familiales et favoriser le stress parental, les temps de repas risquent de devenir une source d'angoisse pour l'enfant comme pour ses parents (Trofholz et al., 2017). Ainsi, afin de limiter l'impact fonctionnel de l'atrésie de l'œsophage sur l'alimentation, des actions de préventions précoces doivent être mises en place auprès de cette population (Lecoufle, 2012). Néanmoins, alors qu'un certain nombre de conditions associées à l'atrésie de l'œsophage peuvent influencer le développement alimentaire, les troubles alimentaires pédiatriques chez les enfants atteints d'atrésie de l'œsophage restent peu décrits dans la littérature internationale (Pham et al., 2021).

L'objectif principal de ce mémoire est donc de déterminer la prévalence des difficultés alimentaires, chez les enfants âgés de 6 mois à 6 ans porteurs d'une atrésie de l'œsophage, à l'aide d'une échelle standardisée. L'objectif secondaire est de réaliser un recueil de données descriptif des compétences et difficultés alimentaires de ces enfants. Et cela, dans le but de développer la prévention des troubles alimentaires pédiatriques et d'adapter la prise en soin des enfants dès leur plus jeune âge.

Ainsi, à travers cette étude, nous présenterons les concepts théoriques abordant l'atrésie de l'œsophage et la teneur des complications post-opératoires pouvant être rencontrées lors du parcours de soins de cette malformation digestive. Puis, nous détaillerons et analyserons les outils standardisés et validés par la littérature permettant d'évaluer les compétences et difficultés alimentaires des enfants. Cela nous conduira à exposer la démarche de notre étude et nos choix méthodologiques. Pour finir, nous présenterons les résultats obtenus que nous discuterons dans une dernière partie. Cela nous amènera finalement à des perspectives d'ouvertures cliniques et de recherche.

Contexte théorique, buts et hypothèses

1. Atrésie de l'œsophage

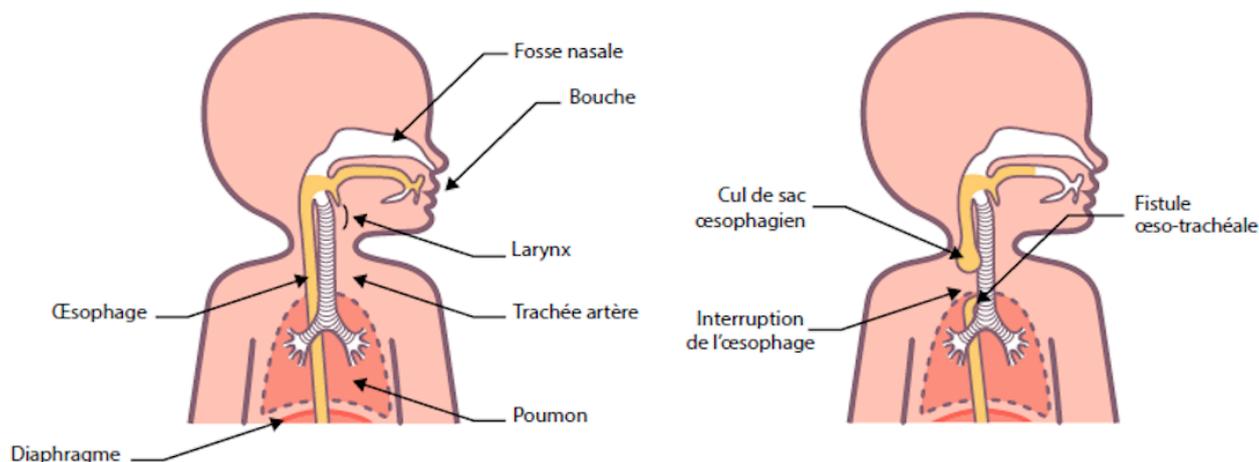
1.1. Définition

L'œsophage se définit comme «la partie du tube digestif qui s'étend du pharynx jusqu'au cardia de l'estomac, et dont les parois, par leurs mouvements, assurent la descente du bol alimentaire» (Larousse en ligne, s. d.).

L'atrésie de l'œsophage se définit comme une malformation congénitale rare caractérisée par une interruption totale de l'œsophage. Elle touche un cas pour 2500 à 3500 naissances (Garabedian et al., 2014). De fait, le liquide amniotique, le lait et la salive ne peuvent arriver jusqu'à l'estomac. Les éléments déglutis vont alors s'accumuler dans le cul-de-sac œsophagien supérieur provoquant un risque majeur de débordement et de fausse route. Les deux culs-de-sacs de l'œsophage peuvent être séparés par une distance plus ou moins importante pouvant engendrer différents types de complications (Van der Zee et al., 2017). Enfin, il est à noter que l'interruption de l'œsophage peut être accompagnée d'une fistule trachéo-œsophagienne se définissant comme une communication anormale entre l'œsophage et la trachée (cf Illustration 1). Celle-ci augmente le risque d'inhalation des liquides par les poumons.

Illustration 1.

Schéma explicatif de l'atrésie de l'œsophage (Filière de Santé Maladies Rares Abdomino-Thoraciques - FIMATHO, 2022).



1.2. Classification

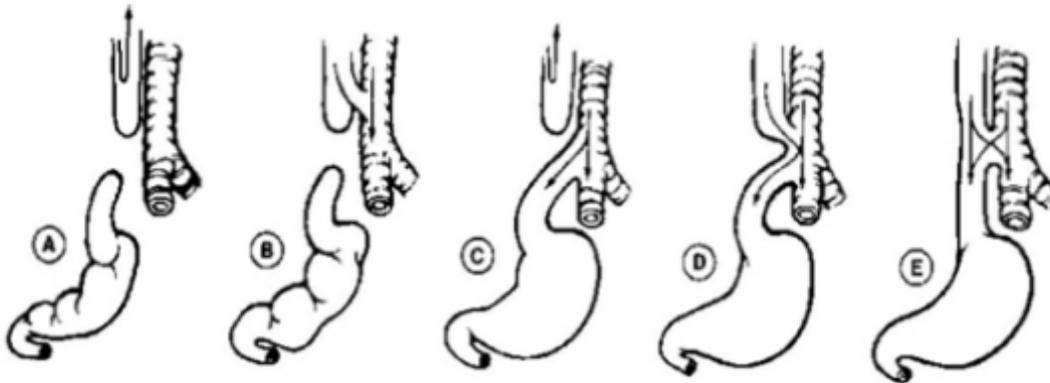
Il existe plusieurs formes d'atrésie de l'œsophage, classées selon l'écart entre la partie supérieure et inférieure de l'œsophage et la présence ou non d'une fistule trachéo-œsophagienne. La classification de Ladd décrit cinq formes d'atrésie de l'œsophage (cf Illustration 2) :

- Type I (ou A) : Atrésie isolée sans fistule œso-trachéale (5-7% des cas) ;

- Type II (ou B) : Atrésie et fistule œsotrachéale du cul-de-sac supérieur (1% des cas) ;
- Type III (ou C) : Atrésie et fistule œsotrachéale du cul-de-sac inférieur (85-90 % des cas) ;
- Type IV (ou D) : Atrésie et fistule du cul-de-sac inférieur sur la bronche souche droite (1% des cas) ;
- Type V (ou E) : Atrésie et double fistule des deux culs-de-sac (2-6% des cas) (PNDS atrésie de l'œsophage, 2018).

Illustration 2.

Classification de Ladd des atrésies de l'œsophage (FIMATHO, 2022).



Parmi toutes les formes d'atrésie de l'œsophage, l'atrésie de l'œsophage de type III (ou C) est donc la forme la plus fréquente. Elle se caractérise par la présence d'une fistule trachéo-œsophagienne dans le segment inférieur de l'œsophage (Garabedian et al., 2014).

1.3. Epidémiologie

La prévalence française de l'atrésie de l'œsophage est estimée à 1.9/10 000 naissances (Sfeir et al., 2013) et le sex-ratio se situe autour de 1.35 garçons pour 1 fille (Sfeir et al., 2013). Selon Antoine (2021), l'atrésie de l'œsophage est une malformation isolée dans 50% des cas. De fait, elle peut également être associée à d'autres malformations : cardiovasculaires, squelettiques, digestives, génito-urinaires, faciales et chromosomiques (cf Illustration 3).

Illustration 3.

Les malformations associées à l'atrésie de l'œsophage (Gold et al., 2006).

| Malformation | 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 % |

L'atrésie de l'œsophage peut également être associée au syndrome de VACTERL (23% des cas) (PNDS atrésie de l'œsophage, 2018). Le syndrome de VACTERL se définit comme la présence d'au moins trois malformations au niveau des Vertèbres, de l'Anus, du Cœur, de la Trachée, de l'œsophage (Esophagus en anglais américain), des Reins et/ou des membres («Limb» en anglais) (Garabedian, 2014). Enfin, bien que peu étudiés, les facteurs environnementaux ne semblent pas influencer la prévalence de l'atrésie de l'œsophage. Néanmoins, le diabète maternel (préexistant et non gestationnel), la fécondation in vitro ainsi que les malformations augmentent le risque d'atrésie de l'œsophage (Sfeir et al., 2013).

1.4. Diagnostic

Le diagnostic anténatal d'atrésie de l'œsophage est rare. En effet, moins de 50 % des atrésies de l'œsophage sont repérées en anténatal (Garabedian et al., 2014) malgré la présence de certains signes échographiques évocateurs et non-spécifiques, tels que l'hydramnios (quantité trop importante de liquide amniotique) et/ou un estomac absent ou de petite taille. Le diagnostic anténatal permet de rechercher la présence d'éventuelles autres malformations et d'anticiper l'accouchement en recherchant un centre de compétences à proximité du domicile des parents. Des centres de compétences des malformations œsophagiennes sont présents sur tout le territoire français et assurent le suivi des patients.

Le diagnostic d'atrésie de l'œsophage est plus fréquemment posé juste après l'accouchement ou au moment de la première tétée, lorsque différents signes cliniques tels que l'intolérance alimentaire, les vomissements salivaires et l'hypersialorrhée sont observables (Antoine, 2021). La radiographie thoracique de face permet, par la suite, de confirmer le diagnostic dès le premier jour de vie. Le diagnostic postnatal doit être posé le plus rapidement possible afin de mettre en place une sonde d'aspiration salivaire et de prévenir les fausses routes. Suite à l'opération, l'enfant sera transféré dans un service de néonatalogie pour un suivi pluridisciplinaire (PNDS atrésie de l'œsophage, 2018).

1.5. Traitement chirurgical

En cas d'atrésie de l'œsophage confirmé à la naissance, un traitement chirurgical, appelé anastomose, doit être réalisé dès que possible (Garabedian et al., 2014). L'anastomose se définit par la fermeture d'une éventuelle fistule et par le rétablissement de la continuité œsophagienne. Dans la majorité des cas, l'enfant est opéré dès le lendemain de sa naissance et le retour au domicile a lieu après 15-21 jours d'hospitalisation, lorsqu'il peut se nourrir par la bouche et prend du poids (PNDS atrésie de l'œsophage, 2018).

Cependant, dans 10% des cas, la distance entre les deux extrémités de l'œsophage est trop importante pour réaliser la chirurgie réparatrice, on parle alors d'atrésie de l'œsophage «long-gap» (PNDS atrésie de l'œsophage, 2018). Une atrésie de l'œsophage «long-gap» retarde la prise d'une alimentation *per-os* et entraîne la pose d'une gastrostomie et d'une sonde d'aspiration salivaire placée pour prévenir les risques de stases et d'inhalations par les poumons. Ces deux dispositifs sont mis en place, pendant quelques semaines ou mois, jusqu'à ce que la croissance œsophagienne soit suffisante pour réaliser l'anastomose. Si celle-ci est irréalisable, des techniques de

remplacement de l'œsophage, telles qu'une interposition jéjunale, un pull-up gastrique ou une interposition du côlon, sont envisagées (Van der Zee et al., 2017).

1.6. Suites opératoires et complications à long-terme

Le pronostic initial de l'atrésie de l'œsophage est actuellement très bon. Son taux de survie est supérieur à 95% (Gottrand et al., 2012) et atteint les 100% lorsqu'il n'y a pas d'anomalies associées à l'atrésie de l'œsophage (Garabedian et al., 2014). Différents facteurs de bon pronostic tels qu'une atrésie de l'œsophage de type III, un poids de naissance supérieur à 1.5 Kg et l'absence de malformations associées ont été décrits dans la littérature (Garabedian et al., 2014). Néanmoins, de nombreuses complications digestives, oto-rhino-laryngologistes (ORL), alimentaires, orthopédiques et pulmonaires peuvent retentir sur la qualité de vie des patients. Ces complications peuvent survenir immédiatement après l'opération ou plus tardivement lors du développement de l'enfant. Leur fréquence justifie un suivi systématique, régulier et pluridisciplinaire jusqu'à l'âge adulte (Gottrand et al., 2012).

1.6.1. Complications digestives

Les premières années de vie des enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage sont particulièrement marquées par des difficultés digestives qui ont tendance à persister avec l'âge (Gottrand et al., 2012).

1.6.1.1. La sténose anastomotique

La sténose se définit comme un rétrécissement œsophagien entraînant une dysphagie, des douleurs ainsi que des blocages alimentaires (Antoine, 2021). Chez les enfants opérés à la naissance d'une atrésie de l'œsophage, la zone localisée au niveau de l'anastomose est régulièrement le siège de sténoses. C'est l'une des principales complications de l'atrésie de l'œsophage. Le traitement repose alors majoritairement sur des dilatations de l'œsophage puis, en cas de récurrence, sur des traitements médicamenteux et/ou une nouvelle chirurgie. Selon l'étude de Michaud et al. (2001), la première dilatation est en moyenne effectuée à l'âge de 4.7 mois, le nombre de dilatations est en moyenne de 3.2 par enfant et les dilatations tardives restent rares.

1.6.1.2. Le reflux gastro-œsophagien

Le reflux gastro-œsophagien se définit comme une remontée du contenu gastrique dans l'œsophage entraînant des symptômes gênants ou des complications (Antoine, 2021). Selon Gottrand et al. (2012), la fréquence du reflux gastro-œsophagien chez les enfants atteints d'une atrésie de l'œsophage est supérieure à celle observée dans la population générale et toucherait 26 à 70% d'entre eux. Il apparaît généralement pendant les dix premières années de vie de l'enfant et est à l'origine de plusieurs complications telles que la sténose, l'œsophagite peptique ou encore l'aggravation des troubles alimentaires pédiatriques (Gottrand et al., 2012). Des mesures diététiques ainsi que l'épaississement du lait et l'instauration d'un traitement médicamenteux, tels que les Inhibiteurs de la Pompe à Protons, peuvent être mis en place si le reflux gastro-œsophagien est avéré (Antoine, 2021).

1.6.1.3. La dysphagie

La dysphagie se définit comme une sensation de blocage des aliments lors de la déglutition (Larousse en ligne, s. d.). Selon Legrand et al. (2012), la dysphagie est le symptôme le plus fréquemment retrouvé chez les enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage de type III. On l'observe dans 45% des cas pendant les cinq premières années de vie de l'enfant (Gottrand et al., 2012). Elle s'explique par le fait que la zone de suture lors du traitement chirurgical de l'atrésie de l'œsophage est régulièrement le siège d'un apéristaltisme (Michaud et al., 2008). Il est à noter que le péristaltisme intestinal se définit comme l'ensemble des contractions musculaires du tube digestif provoquant la progression des aliments vers l'estomac (Larousse en ligne, s. d.). L'apéristaltisme se définit donc par la réduction ou l'absence de ces mouvements péristaltiques.

1.6.1.4. L'œsophagite peptique

L'œsophagite peptique correspond à un état inflammatoire de la muqueuse œsophagienne secondaire à l'action corrosive des sécrétions gastriques lors d'un reflux gastro-œsophagien. Sa fréquence peut aller de 9 à 53% chez les enfants de 1 à 15 ans atteints d'une atrésie de l'œsophage (Gottrand et al., 2012).

1.6.1.5. Les métaplasies gastriques et intestinales

Alors que la métaplasie intestinale reste peu fréquente (1 à 2%), la métaplasie gastrique touche 15 à 20% des enfants atteints d'une atrésie de l'œsophage (Gottrand et al., 2012). Elles se définissent comme un phénomène adaptatif et réversible, se caractérisant par la transformation d'un tissu vivant en un autre, à la suite d'une agression répétée et prolongée (Larousse en ligne, s. d.).

1.6.2. Complications nutritionnelles

1.6.2.1. Le trouble alimentaire pédiatrique

Le trouble alimentaire pédiatrique, «pediatric feeding disorder» en anglais, est un terme introduit par Goday et al., en 2019, devant le manque de consensus autour de la définition des difficultés alimentaires chez les enfants. Les auteurs définissent le trouble alimentaire pédiatrique comme une altération des prises alimentaires qui ne sont pas adaptées à l'âge de l'enfant pour lui permettre une croissance et un développement harmonieux, et ce, dans une période durant au moins deux semaines. Selon Goday et al. (2019), cette altération peut être associée à un dysfonctionnement médical (pathologies congénitales), nutritionnel (perte de poids, carences, dépendance à la nutrition artificielle, etc.), alimentaire (nécessité de modifier certaines textures alimentaires, adaptation des outils, de l'installation, etc.) et/ou psychosocial (interactions difficiles sur les temps de repas). Ce trouble ne doit pas être en lien avec des pratiques culturelles (choix parental) ni être lié à un manque de nourriture (Goday et al., 2019). Le trouble alimentaire aigu qui dure entre deux semaines et trois mois est distingué du trouble alimentaire chronique qui dure plus de trois mois. Il n'est pas toujours aisé de définir l'origine de ce trouble puisque de nombreuses étiologies sont susceptibles d'entraver un développement alimentaire harmonieux chez l'enfant. Néanmoins, il existe différents facteurs de risques d'apparition d'un trouble alimentaire pédiatrique chez les enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage tels que le traitement chirurgical, le reflux

gastro-œsophagien, la dysphagie, les blocages alimentaires, les endoscopies ou la sonde naso-gastrique (Antoine, 2021).

1.6.2.2. Le retard de croissance et la dénutrition

Un retard de croissance et une dénutrition sont présents chez un tiers des enfants de 5 ans porteurs d'une atrésie de l'œsophage (Gottrand et al., 2012). Cependant, les premières années de vie de l'enfant sont particulièrement importantes d'un point de vue nutritionnel. Ainsi, différentes techniques telles que le traitement du reflux gastro-œsophagien, la rééducation orthophonique, l'enrichissement de l'alimentation et les compléments énergétiques peuvent être proposés afin d'obtenir une croissance optimale. En cas d'impossibilité à maintenir une croissance adaptée, la nutrition artificielle pourra être envisagée (Gottrand et al., 2012). La nutrition artificielle remplace ou complète une alimentation per os lorsque les apports caloriques sont insuffisants. Elle permet de prévenir la dénutrition infantile en maintenant une croissance optimale et un bon état nutritionnel (Haute Autorité de Santé, 2018).

La nutrition parentérale est l'apport intraveineux de nutriment (Prioux-Klotz & Raynard, 2017). Elle complète les besoins nutritionnels sur une période plus ou moins longue sans passer par le système digestif (Prioux-Klotz & Raynard, 2017).

La nutrition entérale se définit comme l'apport d'une solution nutritive équilibrée et adaptée, directement dans le tube digestif (estomac ou intestin), par l'intermédiaire d'une sonde. Sa durée peut varier selon la nature et l'évolution de la pathologie (PNDS Sevrage de la nutrition entérale chez l'enfant, 2022). Selon les recommandations de la Haute Autorité de Santé (2018), «la voie entérale doit toujours être privilégiée mais une nutrition parentérale est indiquée lorsque la nutrition entérale est impossible, insuffisante (ne pouvant être débutée de manière suffisante au-delà de 48 heures) ou contre-indiquée».

1.6.3. Complications ORL/respiratoires

Les premières années de vie des nourrissons porteurs d'une atrésie de l'œsophage sont particulièrement marquées par des difficultés respiratoires qui ont tendance à s'améliorer avec l'âge (Gottrand et al., 2012).

1.6.3.1. La trachéomalacie

Une trachéomalacie, dont l'expression est variable, est diagnostiquée chez 75% des patients porteurs d'une atrésie de l'œsophage et apparaît généralement avant les 2 ans de l'enfant (Gottrand et al., 2012). Elle se définit comme un assouplissement du cartilage de la trachée et des bronches, engendrant une obstruction trachéale, et ne permettant pas une oxygénation suffisante. Elle se manifeste par une respiration bruyante, une toux rauque, la stase des sécrétions et des épisodes infectieux broncho-pulmonaires (Gottrand et al., 2012).

1.6.3.2. Les infections respiratoires

La fréquence des infections respiratoires chez les enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage est de 30 % jusqu'à l'âge de 5 ans (Gottrand et al., 2012).

1.6.3.3. La récurrence de la fistule trachéo-œsophagienne

Pour rappel, la fistule trachéo-œsophagienne se définit comme une communication anormale entre l'œsophage et la trachée. Elle augmente le risque d'inhalation des liquides par les poumons et vient perturber la respiration des patients. Elle peut, dans moins de 10% des cas, récidiver avant les 18 mois de l'enfant (Gottrand et al., 2012).

1.6.4. Complications orthopédiques

Selon Gottrand et al. (2012), 20% des patients atteints d'une atrésie de l'œsophage présentent une déformation de la cage thoracique entre 5 et 10 ans. De plus, entre 10 et 20% des patients atteints d'une atrésie de l'œsophage sont pourvus d'une scoliose qui apparaît souvent à l'âge adulte (Gottrand et al., 2012).

2. Impacts de l'atrésie de l'œsophage sur le développement alimentaire

2.1. Alimentation et atrésie de l'œsophage

2.1.1. Protocole de réalimentation chez les enfants opérés d'une atrésie de l'œsophage à la naissance

Suite à la remise en continuité chirurgicale, généralement dès le lendemain de la naissance (PNDS atrésie de l'œsophage, 2018), la reprise alimentaire doit s'effectuer très rapidement. Le Centre de Référence des Affections Chroniques et Malformatives de l'Œsophage (CRACMO) de Lille (59) propose un protocole détaillé de réalimentation suite à l'anastomose :

- Pose d'une sonde transanastomotique, qui ne doit pas être changée avant son ablation définitive, pendant l'opération ;
- Vérification de la bonne position gastrique de la sonde ;
- Début de la nutrition entérale après 24 à 48h (lait maternel tant que possible) ;
- Démarrage d'une alimentation minimale par voie orale dès que l'extubation est possible ;
- Après 4 ou 5 jours, opacification au bloc opératoire pour vérifier l'absence de fuite et décision d'ablation de la sonde ;
- Mise en place d'une alimentation orale complète dès l'ablation de la sonde ;
- Retour au domicile après 15-21 jours d'hospitalisation, lorsque le nouveau-né peut se nourrir par la bouche et prend du poids (Bonnevalle et al., 2020).

Il est à noter qu'il est primordial de mettre en place un travail de prévention autour de l'alimentation dès la naissance, et ce, sans attendre l'ablation de la sonde (Lecoufle, 2012). En outre, les prématurés présentant des problèmes réanimatoires spécifiques et les enfants pour lesquels l'anastomose est différée sont exclus de ce protocole (Bonnevalle et al., 2020).

2.1.2. Alimentation chez les enfants présentant une atrésie de l'œsophage avec anastomose différée

Dans 10% des cas, lors d'une atrésie de l'œsophage «long-gap», plusieurs précautions doivent être mises en place jusqu'à ce que la croissance œsophagienne soit suffisante pour réaliser l'anastomose :

- Assurer la sécurité du patient vis-à-vis du risque d'inhalation ;
- Soutenir les compétences orales non-alimentaires du nouveau-né dès les premiers jours de vie (solicitation des réflexes oraux, installation/posture, proposition olfactive de lait maternel, etc.) ;
- Accompagner les parents dans le soutien des compétences orales du nouveau-né (peau à peau, portage, tétées du doigt, etc.) ;
- Éviter les dystimulations sensorielles orales ;
- Mettre en place dès que possible la nutrition artificielle par gastrostomie jusqu'à ce que la croissance œsophagienne soit suffisante pour réaliser l'anastomose ;
- Éviter la nutrition jéjunale et parentérale ;
- Permettre une croissance staturo-pondérale optimale ;
- Soutenir et accompagner l'allaitement maternel (Gottrand et al., 2020).

2.2. Troubles alimentaires pédiatriques et atrésie de l'œsophage : les facteurs de risque

L'atrésie de l'œsophage est une malformation qui touche à la fois l'œsophage, une composante anatomique nécessaire à l'alimentation, ainsi que l'oralité dans sa globalité (Lecoufle, 2012). Et ceci, en période néonatale mais également durant toutes les étapes clés du développement alimentaire de l'enfant notamment lors de la diversification alimentaire ou du passage aux morceaux. Les nouveau-nés, opérés à la naissance d'une atrésie de l'œsophage, sont donc plus à risque de développer des troubles alimentaires pédiatriques.

Il existe plusieurs facteurs favorisant l'apparition de ces troubles alimentaires pédiatriques chez le jeune enfant porteur d'une atrésie de l'œsophage. Tout d'abord, juste après sa naissance, le tout-petit est séparé précocement de sa mère lorsqu'il est amené vers le service de néonatalogie de l'hôpital. Ses premières expériences orales positives sont alors entravées et sa première tétée en salle de naissance est impossible, voire traumatisante, pour lui. Pour ces mêmes raisons, l'attachement mère-enfant peut également être plus difficile à mettre en place les premiers jours de vie. En outre, lors du séjour à l'hôpital, des soins désagréables autour de la bouche de bébé, comme la mise en place de sondes buccales et nasales intrusives, viennent agresser sa sphère orale. Ces sondes viennent limiter ses explorations sensorielles orales par les mains et ses comportements d'auto-apaisement telle que la succion non-nutritive. De plus, le séjour en néonatalogie est souvent synonyme d'un environnement bruyant et très lumineux. Les stimulations sensorielles intenses,

répétitives et déplaisantes viennent perturber le rythme biologique circadien de l'enfant (cycle d'environ vingt-quatre heures régissant le sommeil et l'alimentation). Enfin, le nouveau-né peut souffrir de douleurs œsophagiennes liées au reflux gastro-œsophagien ou à la suite de l'opération chirurgicale. Ces douleurs viennent compliquer une expérience orale déjà perturbée par tous les facteurs précédemment cités. Finalement, l'investissement de la sphère orale n'est plus perçu par le nouveau-né comme un lieu de plaisir et d'exploration (Lecoufle, 2012).

Lorsque l'anastomose doit être reportée de plusieurs jours, semaines ou mois, le nouveau-né est nourri artificiellement, par voie entérale ou parentérale, en attendant l'opération chirurgicale de remise en continuité de l'œsophage (Gottrand et al., 2020). Cependant, la nutrition artificielle prive le nouveau-né des rythmes biologiques de faim et de satiété. L'enfant n'est alors plus actif lors de la prise alimentaire et ne peut pas faire le lien entre son activité orale, la succion, et le fait d'être nourri (Lecoufle, 2012).

Bien qu'il soit largement admis que les troubles alimentaires pédiatriques soient associés à l'atrésie de l'œsophage, seules quelques rares études ont rapporté leur prévalence dans cette population. En 2021, l'étude de Pham et al. a montré que 42 % des enfants nés avec une atrésie de l'œsophage présentaient un trouble alimentaire pédiatrique lorsqu'ils étaient évalués entre l'âge de 1 an et 4 ans (âge médian de 2.3 ans).

3. Outils d'évaluation et de dépistage des difficultés alimentaires

Selon Ramsay et al. (2011), plusieurs outils psychométriques standardisés ont été développés au cours des vingt-cinq dernières années pour évaluer les difficultés alimentaires des enfants. Les plus récents utilisent des questionnaires parentaux afin d'évaluer les comportements des enfants au moment des repas.

3.1. Children's Eating Behavior Inventory (Archer et al., 1991)

Le Children's Eating Behavior Inventory (CEBI) est le premier outil standardisé créé afin d'évaluer les difficultés alimentaires des enfants. Développé en 1991 au Canada, le CEBI est un questionnaire parental destiné à évaluer les problèmes d'alimentation des enfants de 2 ans à 12 ans et 11 mois. Il a été développé dans un cadre conceptuel basé sur une compréhension systémique des relations parents-enfants. De fait, le CEBI décrit les comportements des enfants et des parents ainsi que les interactions entre les membres de la famille. Sa passation dure environ 15 minutes. Il est composé de quarante items dont vingt-huit décrivent l'alimentation de l'enfant à travers ses préférences alimentaires, ses habiletés oro-motrices et son comportement et douze autres interrogent la systémique familiale. Pour chacun des quarante items, le parent indique sur une échelle de Likert la fréquence à laquelle le comportement se produit («Jamais», «Rarement», «Parfois», «Souvent», «Toujours»). Ainsi, vingt-huit items sont notés positivement et douze items sont notés dans le sens négatif. Le score total est obtenu en additionnant les scores de chaque item et un pourcentage de réponses positives est calculé. Le questionnaire demande également pour chaque item si l'élément est perçu par le parent comme un problème (en répondant «Oui» ou «Non» à la question «Est-ce un problème pour vous ?»). Enfin, l'échelle présente une bonne validité et fiabilité. Cependant elle n'a, à ce jour, pas été traduite en langue française.

3.2. Behavioral Pediatrics Feeding Assessment Scale (Crist et al., 2001)

Le Behavioral Pediatrics Feeding Assessment Scale (BPFAS) est un questionnaire parental évaluant les comportements des enfants, de 9 mois à 8 ans, au moment des repas et les réactions parentales associées. Créé aux Royaume-Uni, il est composé de trente-cinq items dont les vingt-cinq premiers décrivent le comportement de l'enfant et les dix suivants détaillent les sentiments du parent ou les stratégies parentales mises en place. L'échelle comprend de nouveaux items et des items reformulés du CEBI. A l'instar du CEBI, le parent est invité à évaluer la fréquence à laquelle le comportement se produit sur une échelle de Likert à cinq points de «Jamais» à «Toujours». La cotation des réponses se fait après avoir inversé les scores de dix items négatifs, en additionnant les scores de chaque item. Plus le score est élevé et plus il y a de difficultés alimentaires. On demande également au parent si «Oui» ou «Non» le comportement est un problème pour lui. La bonne fiabilité de l'échelle a été confirmée en langue anglaise, cependant, aucune traduction française n'a été réalisée à ce jour.

3.3. Children's Eating Behaviour Questionnaire (Wardle et al., 2001)

Le Children's Eating Behaviour Questionnaire (CEBQ) est un questionnaire parental réalisé en 2001 afin d'évaluer le style alimentaire des enfants de 2 à 7 ans. Ainsi, huit domaines alimentaires (la réactivité à la nourriture, le plaisir de manger, la réactivité à la satiété, la lenteur pour manger, l'irritabilité, la suralimentation émotionnelle, la sous-alimentation émotionnelle et le désir de boire) sont évalués par cinquante-sept items. Une échelle de Likert en cinq points («Jamais», «Rarement», «Parfois», «Souvent» et «Toujours») est utilisée et notée de 0 à 4 points. L'outil a une bonne cohérence interne et une fiabilité raisonnable. Néanmoins, le CEBQ n'a pas encore été traduit en langue française.

3.4. ORALQUEST (Abadie, 2019)

En France, le groupe de l'hôpital Necker-Enfants malades de Paris a mis au point, sous la direction de Véronique Abadie, un questionnaire d'évaluation des difficultés alimentaires du jeune enfant âgé de 9 mois à 6 ans. Ce questionnaire a été construit par une équipe d'experts et a pour objectif de construire, standardiser, évaluer et diffuser un questionnaire parental qui étudie quatre domaines impliqués dans les troubles alimentaires pédiatriques : le comportement de l'enfant pendant le repas, les habiletés oro-motrices, la sensibilité/sensorialité et l'environnement familial. En plus de cet objectif principal, les résultats de l'étude permettront de déterminer la fréquence des troubles alimentaires pédiatriques chez les enfants tout-venants. Le questionnaire se compose de quarante-six items notés sur une échelle de Likert. Le score brut est obtenu en additionnant les sous-scores de chaque dimension. L'équipe de l'étude étudie actuellement (et ce jusqu'en mai 2023) les qualités métrologiques du questionnaire : la concordance inter-tarifs, le test-retest, la validité intrinsèque, la validité concurrente, la sensibilité/spécificité. Ce questionnaire n'a donc pas encore été ni validé ni standardisé dans la population générale.

3.5. Échelle d'alimentation de l'Hôpital de Montréal pour Enfant (Ramsay et al., 2011)

L'échelle d'alimentation de l'Hôpital de Montréal pour Enfant (HME) a été développée en 2018 au sein du centre universitaire de santé McGill de Montréal (Canada). C'est un questionnaire parental rapide, facilement administrable (5 minutes de passation) et tenant sur une seule page (cf Annexe 1). Cet outil de dépistage bilingue (anglais et français) a été élaboré afin de détecter rapidement les difficultés alimentaires chez les enfants âgés de 6 mois à 6 ans.

Dans sa version initiale anglophone, le «Montreal Children's Feeding Scale (MCHFS)» a fait l'objet d'une étude de validation dans laquelle un échantillon contrôle de 198 enfants tout-venants a été comparé à un échantillon clinique composé de 174 enfants présentant des difficultés alimentaires. Dans l'étude de validation de la version francophone, la population témoin regroupait 210 enfants tout-venants contre 110 enfants présentant des difficultés alimentaires pour l'échantillon clinique. Dans l'étude de validation de l'échelle d'alimentation HME, seules les mères ont pu remplir le questionnaire.

Quatorze items, créés par des psychologues, y explorent différents domaines alimentaires tels que les préoccupations maternelles (items 1, 2 et 12), la qualité de l'appétit (items 3 et 4), le comportement de l'enfant pendant le repas (items 6 et 8), les aspects sensoriels (items 7 et 8), les aspects oro-moteurs (items 8 et 11), les stratégies parentales mises en place (items 5, 9 et 10) ainsi que l'impact de l'alimentation sur les relations familiales (items 13 et 14).

L'ensemble des items sont évalués sur une échelle de Likert en sept points. Sept items sont notés du négatif vers le positif, le 1 représente alors la réponse la plus négative et le 7 la réponse la plus positive. Sept autres items sont notés du positif vers le négatif, le contraire est alors appliqué. Cette stratégie permet de ne pas influencer le choix des parents. La cotation des réponses se fait rapidement et le score brut est obtenu, après avoir inversé les scores de sept items négatifs, en additionnant les scores de chaque item. Le score brut est ensuite associé à un score normalisé lui-même associé à une interprétation qualitative des difficultés alimentaires. L'échelle d'alimentation HME classe finalement les enfants alimentés par voie orale en quatre groupes cliniques : pas de difficultés alimentaires, difficultés alimentaires légères, difficultés alimentaires modérées et difficultés alimentaires sévères. Si le score normé est inférieur à 61 alors l'enfant ne présente pas de difficultés alimentaires. En revanche, des scores compris entre 61 et 65 attestent de difficultés alimentaires légères, des scores compris entre 66 et 70 attestent de difficultés alimentaires modérées et des scores au-delà de 70 attestent de difficultés alimentaires sévères. Pour plus de précision sur les caractéristiques qualitatives des difficultés alimentaires de l'enfant, l'administrateur du questionnaire peut se référer à un document indiquant pour chaque question quelles sont les réponses de l'ordre du pathologique (cases grisées).

Enfin, le score brut total de 45, correspondant à une déviation standard au-dessus de la moyenne obtenue par l'échantillon contrôle, a été défini comme le score de discrimination des difficultés alimentaires. En utilisant ce score de discrimination, l'échelle d'alimentation HME démontre une excellente sensibilité (87.3%) et une très bonne spécificité (82.3%). La bonne fiabilité du test-retest a également été démontrée par un coefficient alpha de Cronbach de 0.90.

4. Buts et hypothèses

Nous avons exposé, à travers ces apports théoriques, que l'atrésie de l'œsophage est largement associée aux troubles alimentaires pédiatriques. Néanmoins, seules quelques rares études ont rapporté leur prévalence et leurs caractéristiques au sein de cette population. L'objectif principal de ce mémoire est donc de déterminer la prévalence des troubles alimentaires pédiatriques, chez les enfants âgés de 6 mois à 6 ans porteurs d'une atrésie de l'œsophage, à l'aide d'une échelle standardisée. L'objectif secondaire de cette étude est de réaliser un recueil de données descriptif des compétences et difficultés alimentaires de ces enfants. A terme, les résultats de cette étude clinique permettront une meilleure compréhension du trouble qui contribuera à une prévention et une prise en soin adaptée des enfants porteurs d'atrésie de l'œsophage dès le plus jeune âge.

Au vu des apports théoriques exposés précédemment, nous formulons l'hypothèse que les enfants, entre 6 mois et 6 ans, opérés à la naissance d'une atrésie de l'œsophage auraient plus de difficultés alimentaires que les enfants tout-venants. J'émet également l'hypothèse que l'atrésie de l'œsophage a un impact fonctionnel négatif sur les compétences alimentaires des enfants (aspects sensoriels et oro-moteurs). Les explications probables incluent un vécu oral particulier et des complications associées à l'opération chirurgicale dès les premiers jours de vie de l'enfant.

À notre connaissance, l'étude de Pham et al. (2021) ainsi que notre étude, sont les seules à décrire les troubles alimentaires pédiatriques chez les enfants atteints d'une atrésie de l'œsophage à l'aide d'une échelle standardisée.

Méthode

1. Participants de l'étude

1.1. Critères d'inclusion

Les critères d'inclusion pour l'échantillon de l'étude sont les suivants :

- Enfants nés entre le 23 décembre 2011 et le 13 novembre 2020 porteurs d'une atrésie de l'œsophage avec, ou non, des malformations associées ;
- Enfants suivis au Centre de Référence des Affections Chroniques et Malformatives de l'Œsophage (CRACMO) à Hôpital Jeanne de Flandre de Lille ;
- Enfants ayant participé aux consultations de suivis pluridisciplinaires proposées dans le cadre du CRACMO entre le 14 mars 2018 et le 13 juillet 2022.

La cohorte de cette étude est constituée de 77 enfants opérés à la naissance d'une atrésie de l'œsophage.

1.2. Critères d'exclusion

Seul deux critères d'exclusion ont été retenus :

- Les enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage de moins de 6 mois au moment de la consultation de suivi pluridisciplinaire proposée dans le cadre du CRACMO ;
- Les enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage de plus de 6 ans et 11 mois au moment de la consultation de suivi pluridisciplinaire proposée dans le cadre du CRACMO.

1.3. Constitution de l'échantillon

Dans la région des Hauts-de-France, les enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage bénéficient d'un suivi hospitalier régulier par le Centre de Référence des Affections Chroniques et Malformatives de l'Œsophage (CRACMO) de Lille. Dans le cadre du suivi du CRACMO, les enfants présentant une atrésie de l'œsophage sont reçus en consultation suivant le calendrier défini par le PNDS (cf Annexe 2). Les différentes consultations permettent ainsi de faire le point et d'assurer le suivi des patients aux âges de 1 mois, 3 mois, 6 mois, 12 mois, 18 mois, 24 mois, 36 mois et 6 ans, puis tous les 2 ans jusqu'aux 18 ans du patient et enfin tous les 5-10 ans pour les adultes. Les consultations peuvent être pluridisciplinaires ou pratiquées par un seul praticien et peuvent comprendre un chirurgien, un néonatalogue, un pédiatre, un psychologue, une diététicienne, une orthophoniste et/ou un orthopédiste (ou médecin de médecine physique). En outre, un compte-rendu détaillé est communiqué au médecin traitant de l'enfant après chaque consultation.

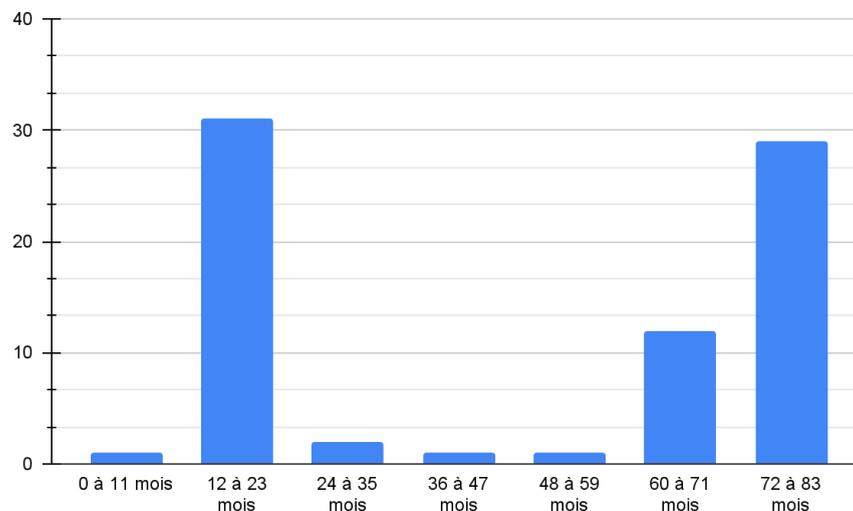
Par conséquent, selon le calendrier de suivi du CRACMO, quatre consultations pluridisciplinaires sont programmées après la sortie de l'hôpital de l'enfant. Elles ont lieu aux âges de 3 mois, 18 mois, 6 ans puis 18 ans. L'orthophoniste participe à la majorité de ces consultations afin de veiller à la mise en place correcte des étapes clés du développement alimentaire. Tous les enfants inclus dans l'étude ont donc bénéficié d'un suivi en alimentation dès leur naissance par un orthophoniste. Ils ont également bénéficié d'un accompagnement parental, d'un repérage précoce des troubles alimentaires pédiatriques et d'une orientation vers un suivi orthophonique en libéral, si nécessaire, dès la sortie d'hospitalisation.

1.4. Description de la population générale de l'étude

Pour la totalité de la cohorte, la médiane des âges (premier quartile, troisième quartile, minimum, maximum) ainsi que le sex-ratio ont été calculés. Ainsi, lors du remplissage du questionnaire, l'âge médian des participants (n=77) était de 71 mois, soit 5.9 ans (Q1-Q3 : 18-73 mois, min-max : 11-78 mois). La répartition de la population à l'intérieur des différentes tranches d'âge est représentée par la Figure 1. De fait, la majorité des participants ont été évalués entre les âges de 12 et 23 mois (n=31, 40.3%) ou entre 72 et 83 mois (n=29, 37.7%). En outre, cinquante-trois garçons et vingt-quatre filles ont été inclus dans l'étude. Une prédominance masculine dans notre échantillon est donc observée (n= 53, 68.8%).

Figure 1.

Répartition des enfants de l'échantillon de notre étude par classe d'âge.



2. Matériel

Des échelles telles que le Children's Eating Behavior Inventory (Archer et al., 1991), la Behavioral Pediatrics Feeding Assessment Scale (Crist et al., 2011), et le Children's Eating Behaviour Questionnaire (Wardle et al., 2001) évaluent les comportements alimentaires des enfants au moment des repas. Bien que ces échelles soient des outils fiables et valides pour l'évaluation des problèmes d'alimentation, elles ne sont pas traduites en langue française, ce qui ne permet pas leur utilisation dans le cadre des consultations de suivi proposées par le CRACMO. De plus, malgré l'intérêt du questionnaire ORALQUEST pour notre étude, ses qualités métrologiques n'ont pas été validées à ce jour.

Néanmoins, l'échelle d'alimentation de l'Hôpital de Montréal (Ramsay et al., 2011) est un instrument bilingue, valide et fiable qui permet de vérifier rapidement la plainte des parents concernant les problèmes d'alimentation de leur enfant. En outre, ce questionnaire parental est rapide à administrer et à coter. Il permet donc le dépistage rapide des difficultés alimentaires des enfants et convient à l'objectif principal de notre étude. Finalement, c'est l'échelle d'alimentation HME qui est utilisée dans le cadre de ce mémoire afin d'étudier les difficultés alimentaires observées chez les participants de l'étude.

3. Données collectées

3.1. Recueil des données

Ce mémoire est une étude de cohorte basée sur les suivis du CRACMO. Ainsi, les parents des patients répondant aux critères d'inclusion, ont été invités à répondre à l'échelle d'alimentation HME entre le 14 mars 2018 et le 13 juillet 2022 lors des consultations pluridisciplinaires du CRACMO. Pour chaque enfant, la passation a été réalisée en une seule fois et le temps de passation était d'environ dix minutes. L'orthophoniste était présent lors du remplissage du questionnaire pour

aider les parents si certaines questions étaient mal comprises. Cela a permis une exhaustivité du taux de réponses à l'échelle d'alimentation HME. Les données obtenues sont uniquement subjectives et dépendantes de chaque parent. Le recueil des données a été stoppé en juillet 2022. La cotation ainsi que l'interprétation qualitative des réponses ont été réalisées a posteriori. De fait, chaque dossier a été repris individuellement afin de pouvoir répertorier les patients selon leurs compétences et difficultés alimentaires.

3.2. Traitement des données

Des statistiques descriptives ont été utilisées pour caractériser les participants et déterminer la prévalence des difficultés alimentaires au sein de la cohorte. Toutes les données ont été recueillies puis exportées dans un tableur Google Sheets pour leur traitement. Il s'agit ici d'une étude quantitative (prévalence des troubles alimentaires pédiatriques dans la population cible) et qualitative (état des lieux descriptif des difficultés alimentaires dans la population cible). De fait, des calculs de pourcentages, des graphiques à barres ainsi que des graphiques à secteurs ont été utilisés pour le traitement de l'échelle d'alimentation HME.

Résultats

1. Caractéristiques cliniques des participants

1.1. Prévalence des troubles alimentaires pédiatriques

Parmi les 95 enfants éligibles, 77 (81.1%) ont été inclus à l'étude (cf Figure 2). Les non-participants sont les parents à qui le questionnaire n'a pas été proposé lors des consultations de suivi ou dont l'enfant ne bénéficiait pas de nutrition artificielle (n=18).

Les données des 77 participants à l'étude ont été recueillies à partir de 69 questionnaires HME et du dossier médical informatisé (application Sillage) de tous les participants. Elles comprennent l'âge et le sexe des participants, leur mode d'alimentation (par voie orale ou par nutrition artificielle), les réponses aux quatorze items de l'échelle d'alimentation HME ainsi que leurs scores normés et leur interprétation qualitative associée.

Il est à noter que dans l'étude ici présentée, l'échelle d'alimentation HME n'a pas été proposée aux enfants alimentés par nutrition artificielle puisque c'est un outil de dépistage s'adressant uniquement aux enfants alimentés par voie orale. Néanmoins, au vu des données de la littérature décrites dans la première partie de cette étude, nous avons considéré que les enfants nourris par nutrition artificielle, au moment des consultations de suivis proposées dans le cadre du CRACMO, présentaient des troubles alimentaires pédiatriques.

Pour les enfants alimentés par voie orale, les scores obtenus à l'échelle HME ont permis de les classer dans deux catégories : sans difficultés alimentaires (score normalisé inférieur à 61) et avec difficultés alimentaires (score normalisé supérieur ou égal à 61).

Finalement deux groupes d'enfants ont donc été définis :

- les enfants avec trouble alimentaire pédiatrique (alimentés par sonde ou avec des difficultés alimentaires selon l'échelle d'alimentation HME) ;
- les enfants sans trouble alimentaire pédiatrique (non alimentés par sonde et sans difficultés alimentaires selon l'échelle d'alimentation HME).

En somme, sur les 77 enfants inclus, 74% (n=57) n'avaient pas de difficultés alimentaires relevées au moment de leur consultation de suivi proposée dans le cadre du CRACMO. Néanmoins, un trouble alimentaire pédiatrique était présent pour 26% des enfants (n=20) au moment de leur consultation de suivi (cf Figure 3). En effet, 10.4% des enfants (n=8) bénéficiaient d'une nutrition entérale par gastrostomie, 2.6% des enfants (n=2) présentaient des difficultés alimentaires légères au HME, 7.8% (n=6) présentaient des difficultés alimentaires modérées au HME et 5.2% (n=4) présentaient des difficultés alimentaires sévères au HME.

Figure 2.

Diagramme de flux de l'étude.

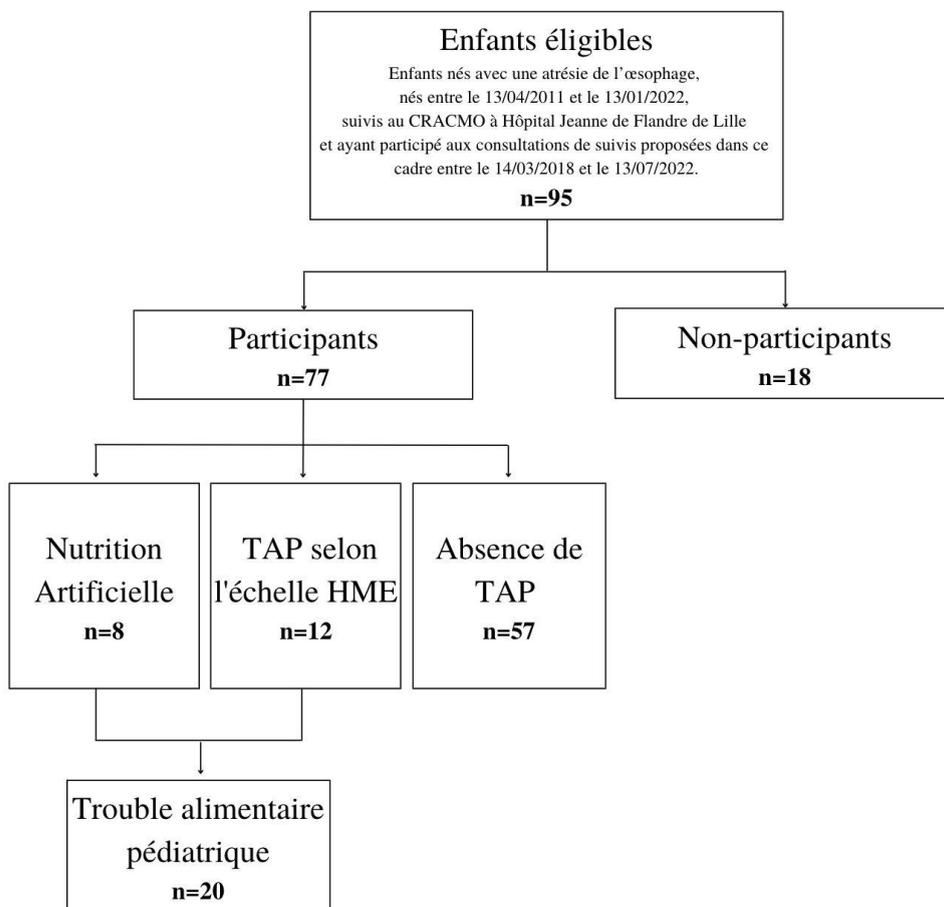
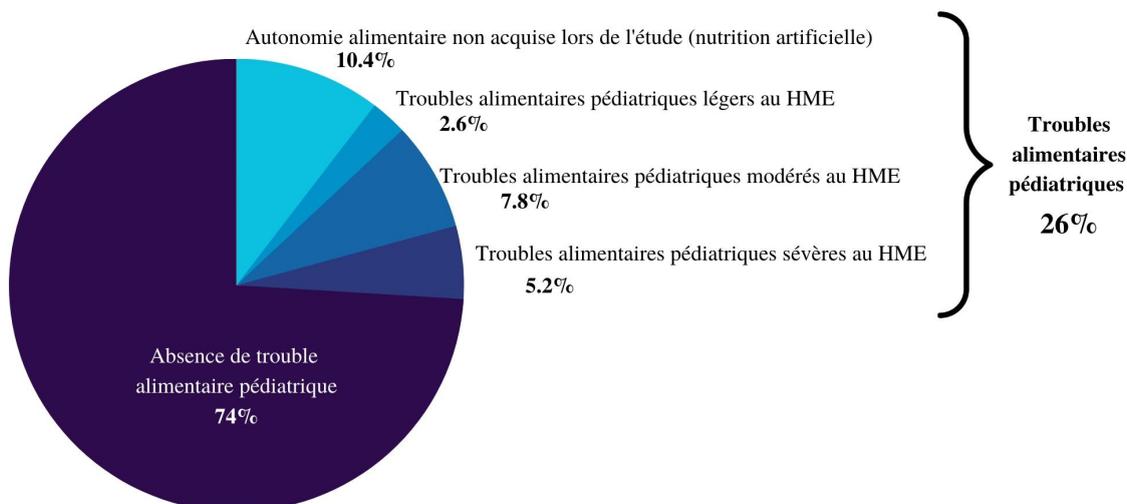


Figure 3.

Prévalence des difficultés alimentaires relevées chez les enfants de 6 mois à 6 ans nés avec une atrésie de l'œsophage.



1.2. Âges et sex-ratio

Les caractéristiques cliniques des participants en fonction de la présence ou de l'absence de difficultés alimentaires sont décrites ci-après. Ainsi, lors du remplissage du questionnaire, l'âge médian des enfants sans trouble alimentaire pédiatrique (n=57) était de 71 mois soit 5.9 ans (Q1–Q3 : 18–73 mois, min–max : 11–76 mois). Une prédominance masculine est observée (n= 41, 72%). A contrario, l'âge médian des enfants présentant un trouble alimentaire pédiatrique (n=20) était de 20 mois (Q1–Q3 : 18–36 mois, min–max : 17–78 mois). Une prédominance masculine dans cette population est également observée (n= 12, 60%).

1.3. Analyses statistiques

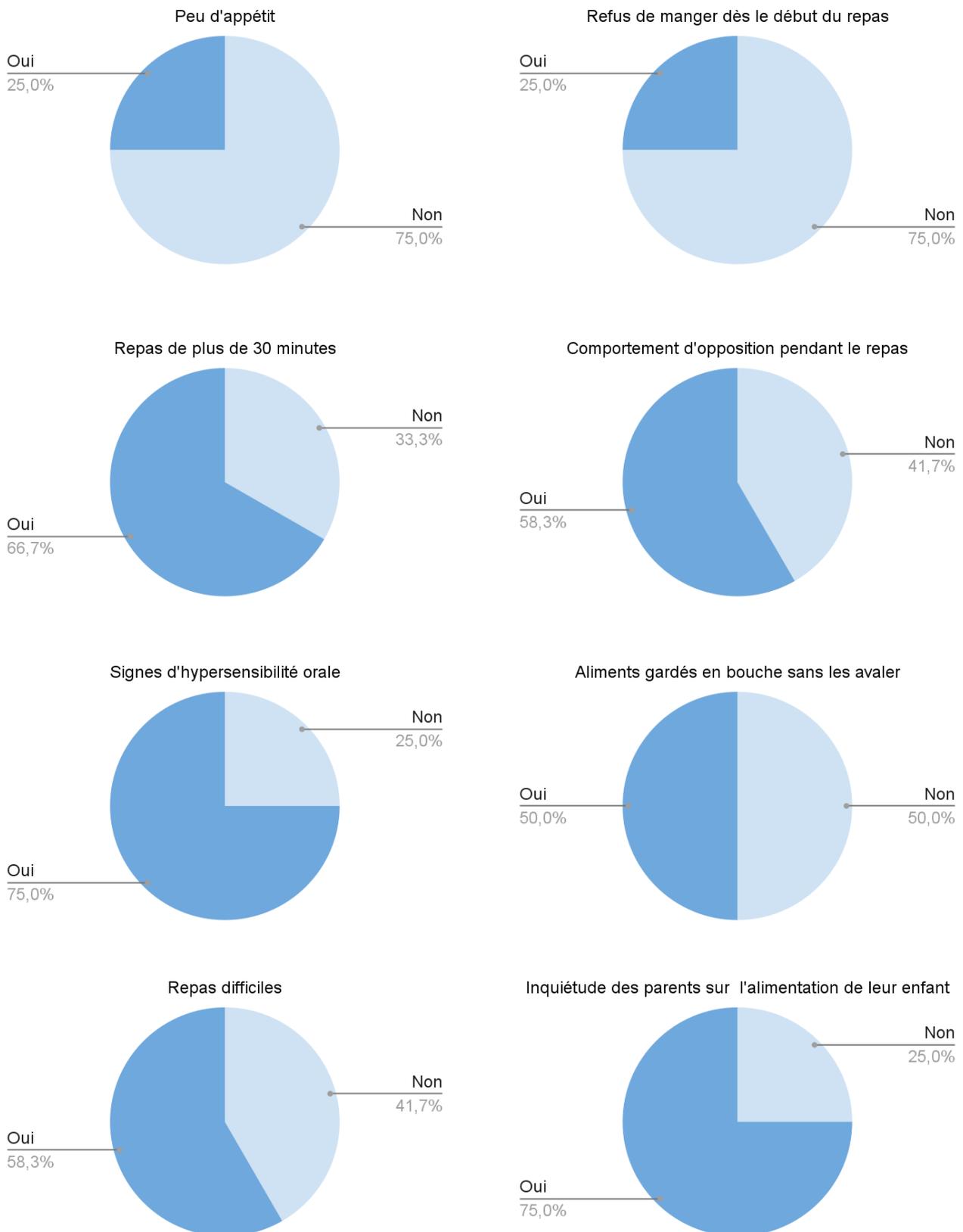
Après application du test T de Student, test paramétrique qui permet de comparer deux échantillons, les résultats mettent en évidence que nos deux groupes sont hétérogènes en ce qui concerne l'âge des enfants. Les moyennes et les écarts-types sont significativement différents puisqu'on retrouve une p-value = 0.007 ($p < 0.05$). Les résultats mettent donc en évidence que le groupe avec trouble alimentaire pédiatrique est significativement plus jeune que le groupe sans trouble alimentaire pédiatrique.

2. Etat des lieux descriptif des difficultés alimentaires

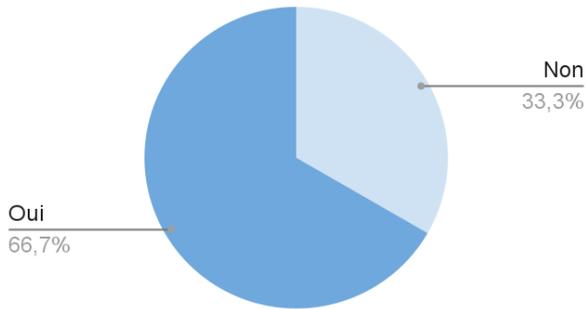
Pour chacun des quatorze items de l'échelle HME, nous avons relevé le nombre de réponses témoignant de difficultés alimentaires jugées comme pathologiques par les auteurs de l'outil (grisées sur l'échelle). Pour chaque item, la figure 4 représente en détail le pourcentage de participants décrivant des difficultés alimentaires.

Figure 4.

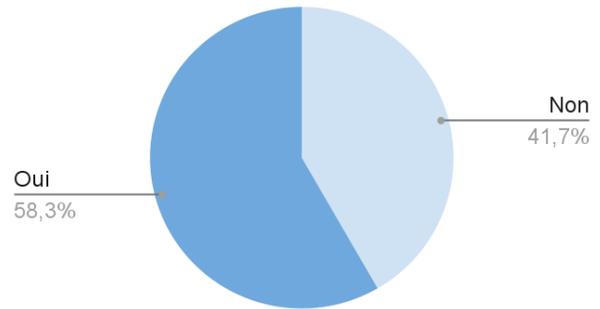
Descriptif en % des difficultés alimentaires relevées chez les enfants de 6 mois à 6 ans nés avec une atrésie de l'œsophage et porteurs de difficultés alimentaires selon l'échelle HME (n=12)



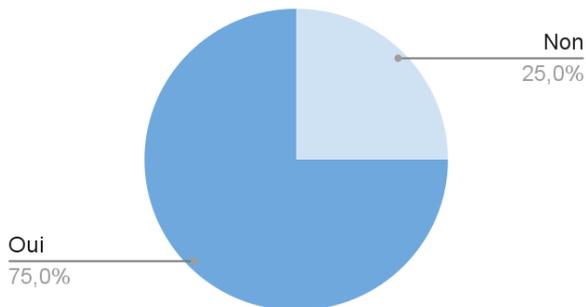
Nécessité de distraire l'enfant pendant les repas



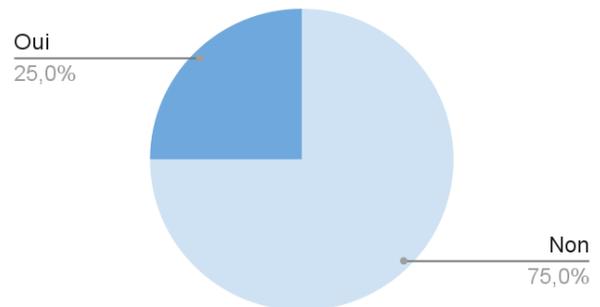
Forçages pour faire boire ou manger l'enfant



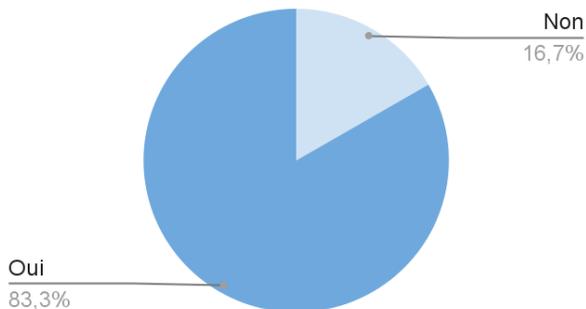
Difficultés de succion ou de mastication



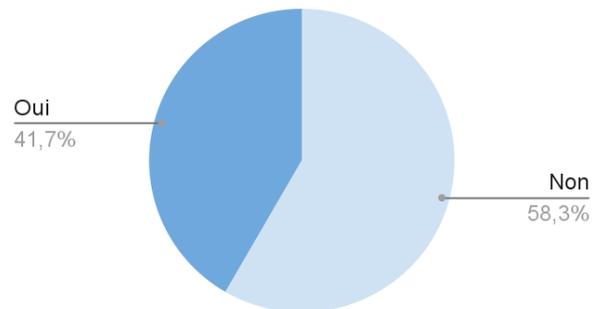
Croissance inappropriée



Influence négative de l'alimentation sur les relations familiales



Influence négative de l'alimentation sur la relation parent-enfant



Enfin, chez les enfants avec difficultés alimentaires avérées, l'item 14 est celui où la proportion de réponses pathologiques est la plus élevée et les items 3, 4 et 12 sont ceux où la proportion de réponses pathologiques est la plus faible. En effet, les parents ont majoritairement décrit des relations familiales influencées de manière négative par l'alimentation de leur enfant (n=10, 83.3%). Certains parents décrivent également des signes d'hypersensibilité orale (n=9, 75%), traduits par des haut-le-cœur, des crachats et/ou des vomissements face à certaines catégories d'aliments. Ils notent également des difficultés oro-motrices traduites par une mauvaise mastication/succion (n=9, 75%) et une inquiétude au sujet de l'alimentation de leur enfant (n=9, 75%). De plus, les parents observent la nécessité de distraire leur enfant pour le faire manger (n=8, 66.7%) ainsi qu'un temps de repas de plus de 30 minutes (n=8, 66.7%). Enfin, certains parents dépeignent des repas difficiles (n=7, 58.3%), un comportement d'opposition pendant les repas (n=7, 58.3%) et des forçages pour faire manger ou boire l'enfant (n=7, 58.3%). En revanche, seulement 25% des parents notent un manque d'appétit, un refus de manger dès le début du repas et une croissance inappropriée pour l'âge de l'enfant.

Discussion

1. Interprétation des résultats

1.1. Objectif 1 : prévalence des troubles alimentaires pédiatriques chez les enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage

Le premier objectif de cette étude était d'obtenir la prévalence des troubles alimentaires pédiatriques, chez les enfants âgés de 6 mois à 6 ans porteurs d'une atrésie de l'œsophage, à l'aide d'une échelle standardisée. Ainsi, dans notre population d'étude regroupant 77 enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage, des difficultés alimentaires ont été objectivées chez 20 enfants, ce qui nous permet de conclure à une **prévalence de trouble alimentaire pédiatrique de 26%** pour notre échantillon.

1.1.1. Comparaison des résultats obtenus avec l'étude de Ramsay et al. (2011)

Il est possible de mettre ce résultat en parallèle de l'étude de Ramsay et al. de 2011. Dans ces travaux, l'échelle d'alimentation HME a fait l'objet d'une étude de validation dans laquelle un échantillon contrôle (enfants tout-venants) était comparé à un échantillon clinique (enfants avec difficultés alimentaires). Selon cette étude, la prévalence des troubles alimentaires pédiatriques chez les enfants tout-venants est de 17.5% (Ramsay et al., 2011). La différence entre les résultats de notre étude et celle de Ramsay et al. (2011) tend à montrer que la prévalence des troubles alimentaires pédiatriques est plus élevée chez les enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage que chez les enfants tout-venants. Les résultats de notre étude suggèrent donc que l'atrésie de l'œsophage a un impact sur le développement des compétences alimentaires des enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage. Cela se comprend aisément lorsque nous savons que l'anastomose, le reflux gastro-œsophagien, la dysphagie, les blocages alimentaires, les endoscopies, la sonde naso-gastrique, etc. constituent d'importants facteurs de risque d'apparition de troubles alimentaires pédiatriques (Antoine, 2021). Finalement, ces données valident notre première hypothèse de recherche selon laquelle **la prévalence des troubles alimentaires pédiatriques est plus élevée chez les enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage que chez les enfants tout-venants.**

1.1.2. Comparaison des résultats obtenus avec l'étude de Pham et al. (2021)

Il est également possible de mettre en parallèle ce résultat avec ceux obtenus dans d'autres études ayant utilisé le même outil standardisé. Ainsi, alors que notre étude montre que 26% des enfants de notre échantillon présentent un trouble alimentaire pédiatrique lorsqu'ils sont évalués entre 6 mois et 6 ans (âge médian : 5.9 ans, min-max : 0.9-6.5 ans). L'étude de Pham et al. (2021), a mis en évidence que 42 % des enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage présentent des difficultés alimentaires lorsqu'ils sont évalués entre 1 et 4 ans (âge médian : 2.3 ans, min-max : 1.1-4.0 ans). Ces résultats laissent supposer que la prévalence des troubles alimentaires pédiatriques est moindre chez les enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage plus âgés (26% si âge médian :

5.9 ans) que chez les enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage plus jeunes (42% si âge médian : 2.3 ans). **Les résultats tendent donc à démontrer que les premières années de vie des enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage sont particulièrement marquées par des difficultés alimentaires qui ont tendance à s'améliorer avec l'âge.**

En outre, dans l'étude de Pham et al. (2021), des données manquaient quant à la prise en charge et l'accompagnement précoce des mères pour prévenir les troubles alimentaires pédiatriques. Or, à notre connaissance, le suivi orthophonique précoce des enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage en France est actuellement très disparate en fonction du lieu de naissance, du centre de compétences qui a opéré l'enfant et du lieu de vie de la famille. A contrario, il est à noter que tous les enfants de notre étude ont bénéficié d'un suivi au sein du CRACMO incluant un suivi orthophonique dès leur naissance. Ainsi, l'ensemble de notre population a bénéficié d'un accompagnement parental, d'un repérage précoce des troubles alimentaires pédiatriques et d'une orientation vers un suivi orthophonique en structure de type CAMSP ou en libéral, si nécessaire, dès leur sortie d'hospitalisation. La disparité des résultats entre notre étude et celle de Pham et al. (2021) laisse donc supposer que la prévalence des troubles alimentaires pédiatriques est moindre chez les enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage ayant bénéficié d'un suivi orthophonique dès la naissance (prévalence des troubles alimentaires pédiatriques : 26%) que chez les enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage n'ayant pas bénéficié d'un suivi orthophonique dès la naissance (prévalence des troubles alimentaires pédiatriques : 42%). **Les résultats tendraient à démontrer la nécessité et l'efficacité d'une prise en soin orthophonique précoce chez les enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage.**

Fort de ces différents constats, notre étude va dans le sens des données de la littérature et préconise la prévention et la prise en soin orthophonique des troubles alimentaires pédiatriques chez les enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage le plus précocement possible.

1.2. Objectif 2 : état des lieux des difficultés alimentaires des enfants de 6 mois à 6 ans porteurs d'une atrésie de l'œsophage

Notre second objectif était de faire un état des lieux des difficultés alimentaires des enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage afin de mieux orienter leur prise en soin et de soutenir l'accompagnement des familles. Pour répondre à ce second objectif, nous avons exploité les réponses qualitatives obtenues par l'échelle d'alimentation HME. Ainsi, pour chacun des items, nous avons relevé le nombre de réponses pathologiques données par les parents afin d'établir un inventaire des problématiques alimentaires les plus fréquentes dans notre population. De fait, nous avons pu observer quels étaient les domaines alimentaires les plus impactés chez les enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage. Pour rappel, l'échelle d'alimentation HME évalue les aspects oro-moteurs, les aspects sensoriels, les préoccupations parentales, les stratégies parentales, l'impact de l'alimentation sur les relations familiales ainsi que la qualité de l'appétit.

Sur l'ensemble de la population présentant des difficultés alimentaires, des réponses pathologiques sont relevées dans tous les domaines, néanmoins, l'impact de l'alimentation sur les relations familiales est le plus important. En effet, l'item 14 de l'échelle alimentaire HME «Comment l'alimentation de votre enfant influence-t-elle les relations familiales?» est celui où la

proportion de réponses pathologiques (entre 3 et 7 sur l'échelle de Lickert) est la plus élevée. De fait, 83.3% des parents interrogés ont décrit des relations familiales influencées de manière négative par l'alimentation de leur enfant.

Notre étude laisse également supposer que le domaine sensoriel (item 7 «Votre enfant a-t-il des haut-le-cœur, crache-t-il ou vomit-il lorsqu'il mange certaines catégories d'aliments?»), le domaine oro-moteur (item 11 «Comment est la mastication (ou la succion) de votre enfant?») et les préoccupations parentales (item 2 «Êtes-vous inquiète au sujet de l'alimentation de votre enfant?») sont parmi les plus touchés de notre échantillon. En effet, pour trois quarts (75%) des enfants inclus dans notre étude présentant des difficultés alimentaires, la mastication (ou la succion) est jugée comme pathologique, des signes d'hypersensibilité orale sont identifiés et/ou une inquiétude des parents face aux difficultés alimentaires de leur enfant est relevée.

1.2.1. L'impact de l'alimentation sur les relations familiales

Ainsi, sur l'ensemble de la population présentant des difficultés alimentaires, plus de trois parents sur quatre décrivent des relations familiales influencées de manière négative par l'alimentation de leur enfant. Fort de ce constat, la prévention précoce et les prises en soin des enfants porteurs d'atrésie de l'œsophage pourraient s'axer prioritairement sur l'accompagnement des relations entre les différents membres de la famille. Cet accompagnement permettrait d'améliorer la qualité de vie des patients ainsi que de leur entourage. Pour ce faire, la priorité dans l'accompagnement des familles doit être le plaisir : le plaisir d'être à table, le plaisir d'être ensemble, le plaisir de toucher, de sentir, de goûter les aliments (Lecoufle & Lesecq, 2016). Dans l'accompagnement des familles, le plaisir est toujours mis en parallèle avec la sécurité. Il conviendra donc également de donner des pistes aux parents afin que les temps de repas soient synonymes de plaisir et de sécurité :

- ne pas forcer l'enfant ;
- aider l'enfant à investir son corps et sa bouche de façon positive ;
- veiller à ce que l'enfant ait une bonne installation et une bonne posture lors des temps de repas ;
- adapter les textures et les quantités à l'âge et aux compétences de l'enfant ;
- privilégier un lieu calme et agréable pour les temps de repas (Lecoufle & Lesecq, 2016).

Les parents peuvent se sentir désarmés face aux difficultés alimentaires de leur enfant et la prise en soin orthophonique participe au rétablissement d'un climat apaisé lors des temps de repas ainsi qu'à un investissement positif de la sphère orale. En outre, il semble également important de rappeler aux parents la possibilité d'une prise en charge psychologique afin de leur apporter soutien et aide face aux situations complexes.

1.2.2. Le domaine alimentaire sensoriel

De plus, 75% des enfants inclus dans notre étude dépeignent des signes d'hypersensibilité orale. Pour rappel, les signes d'hypersensibilité orale peuvent se traduire par des haut-le-cœur, des crachats, des grimaces, des nausées et/ou des vomissements face à la vue, à l'odorat et/ou au goût de certaines catégories d'aliments. Des signes d'alerte des troubles alimentaires pédiatriques comme des aversions sélectives alimentaires et des difficultés de changement de texture alimentaire peuvent

alors parfois être relevés (Lecoufle, 2019, cité dans Lesecq-Lambre (2019)). Fort de ce constat, la prévention précoce et les prises en soin des enfants porteurs d'atrésie de l'œsophage devraient également s'axer sur les sollicitations sensorielles afin de réduire l'impact du trouble dans le quotidien des enfants. Pour développer la sensorialité de l'enfant, différentes stimulations peuvent lui être proposées dès le plus jeune âge :

- des situations d'auto-explorations (doigts en bouche) et d'apaisement (peau à peau) chez le nouveau-né (Lecoufle, 2017) ;
- des outils sensoriels (doudou, brosses à dents, hochets de dentition de différentes tailles, couleurs et textures) à adapter à l'âge de l'enfant (Lecoufle, 2017) ;
- des manipulations tactiles, alimentaires ou non, avec des textures variées telles que des matières douces, rugueuses ou collantes (Lecoufle & Lesecq, 2016) ;
- la réalisation du repas par l'enfant lui-même (Lecoufle & Lesecq, 2016) ;
- proposer des aliments ludiques et amusants pour l'enfant (Lecoufle & Lesecq, 2016) ;
- instaurer des comptines rituelles et/ou des jeux de bouche (Lecoufle & Lesecq, 2016) ;
- favoriser les jeux symboliques comme la dînette ou la marchande de fruits et légumes (Lecoufle & Lesecq, 2016).

1.2.3. Le domaine alimentaire oro-moteur

Trois quarts des enfants inclus dans notre étude présentant des difficultés alimentaires présentent également des difficultés de mastication ou de succion. Nous pouvons cependant nuancer la proportion importante d'enfants présentant des difficultés oro-motrices dans notre étude. En effet, selon les études d'Abadie (2012) et de Thibault (2007), la mastication n'est mature qu'après l'âge de 3 ans et se développe jusqu'à l'âge de 6 ans. Par conséquent, les enfants de notre étude dont l'âge est inférieur ou égal à 3 ans (soit 70% de notre population présentant des difficultés alimentaires) seraient trop jeunes pour que leur mastication soit optimale. Néanmoins, la diversification alimentaire, le passage aux morceaux et la maturation de la mastication doivent rester des axes de vigilance et de prévention. En effet, les études montrent que plus l'introduction aux morceaux est retardée (après 12 mois), plus l'apprentissage de la mastication devient difficile pour l'enfant (Lecoufle, 2017). Un accompagnement parental dans ces étapes clés du développement alimentaire est donc nécessaire dans la prise en soin des enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage.

1.2.4. Les préoccupations parentales au sujet de l'alimentation de leur enfant

Enfin, les résultats supposent que les préoccupations parentales relatives à l'alimentation doivent constituer un axe majeur de l'accompagnement parental des enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage. Par conséquent, il semble important de rappeler aux parents l'existence des associations de patients. En effet, L'AFAO «association française de l'atrésie de l'œsophage», s'adresse aux enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage ainsi qu'à leurs familles et aux professionnels de santé qui gravitent autour de l'enfant. Cette association a pour objectifs d'aider et d'informer les familles des enfants nés avec une atrésie de l'œsophage afin qu'elles ne restent pas isolées face à la pathologie. Cette association permet aux parents d'échanger sur leurs inquiétudes et leurs expériences. Ils pourront y trouver soutien, réconfort, écoute et informations. Le site internet de l'association AFAO met également en libre accès un livret de recettes pour les bébés de 9 à 18 mois, un carnet oralité composé de douze fiches correspondant aux douze mois de l'année, ainsi que

différentes informations et conseils spécifiques au sujet de l'alimentation des enfants (AFAO Communication, 2021).

Finalement, les différentes données détaillées dans la partie «Objectif 2 : état des lieux des difficultés alimentaires des enfants de 6 mois à 6 ans porteurs d'une atrésie de l'œsophage» valident notre seconde hypothèse de recherche selon laquelle **l'atrésie de l'œsophage a un impact fonctionnel négatif sur les compétences alimentaires sensorielles et oro-motrices des enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage.**

2. Critique méthodologique de l'étude

Notre étude présente néanmoins plusieurs limites qu'il convient de décrire dans cette deuxième partie.

2.1. Biais de sélection

En premier lieu, notre étude comprend 77 enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage. Cependant, la littérature relève environ 160 nouveaux cas d'atrésie de l'œsophage par an en France (PNDS atrésie de l'œsophage, 2018). Le nombre de participants est donc faible pour être réellement représentatif de l'ensemble des enfants porteurs d'atrésie de l'œsophage. Un échantillon plus important, d'enfants entre 6 mois et 6 ans, permettrait d'obtenir des données et une analyse qualitative plus précises et plus fiables.

Il est à noter que certains patients n'ont pu être inclus dans l'étude puisqu'ils ont été reçus autour de leur 18 mois, soit le mois précédent la consultation pluridisciplinaire, par un gastropédiatre. Dans quel cas, la consultation pluridisciplinaire n'a pas lieu et le questionnaire HME n'a pas pu être transmis aux parents. De plus, l'orthophoniste du service n'a pas pu être présent à toutes les consultations pluridisciplinaires effectuées entre le 14 mars 2018 et le 13 juillet 2022. Par conséquent, le questionnaire HME n'a pas été administré aux parents concernés. Ensuite, le contexte sanitaire lié à la Covid-19 a induit des consultations pluridisciplinaires en téléconsultation. De fait, le questionnaire HME n'a également pas été administré aux parents vus en visio-conférence. Enfin, quelques patients ont dû changer de région pour leur suivi et d'autres ont été perdus de vue par le CRACMO. Finalement, la somme de ces circonstances explique le manque d'exhaustivité des retours des questionnaires HME de l'ensemble des patients identifiés comme étant suivis au CRACMO (taux de 81.1% de participation).

2.2. Biais du questionnaire

En second lieu, les scores obtenus à l'échelle d'alimentation HME sont à nuancer.

D'une part, l'échelle HME est un outil de dépistage qui se base sur des éléments non spécifiques à l'âge de l'enfant mais plutôt sur des comportements applicables à tout âge et cela uniquement lorsque l'alimentation se fait par voie orale. Ainsi, nous ne retrouvons pas dans l'échelle d'alimentation HME d'items sur l'apport ou non d'une nutrition artificielle ou sur un vécu hospitalier difficile (opérations, détresse respiratoire, dystimulation, etc.). Par conséquent, ne

pouvant pas faire passer l'outil standardisé aux participants bénéficiant de nutrition artificielle au moment des consultations de suivi du CRACMO, nous n'avons pas pu analyser quantitativement et qualitativement la nature de leurs difficultés alimentaires.

D'autres part, nous relevons que certains signes d'alerte des troubles alimentaires pédiatriques relevés par la littérature ne sont pas explorés par les items du questionnaire HME. En effet, selon Lesecq (2019), les difficultés alimentaires peuvent s'accompagner d'un ou plusieurs signes sensoriels et/ou oro-moteurs et/ou psycho-comportementaux apparaissant comme des signes d'appel des troubles alimentaires pédiatriques. Cependant, l'échelle d'alimentation HME ne questionnent pas :

- l'hypertonie bucco-faciale ;
- l'hypotonie bucco-faciale ;
- la voix mouillée et les fausses-routes fréquentes ;
- la fatigabilité de l'enfant au cours du repas ;
- la limitation d'investissement de la sphère orale ;
- la recherche de stimulation excessive ;
- l'hypo-réactivité sensorielle globale ;
- l'hyper-réactivité sensorielle globale ;
- l'hypo-réactivité sensorielle orale ;
- les difficultés de changement de textures alimentaires ;
- la peur de l'enfant d'avaler ou de s'étouffer (signes d'appel listés par Lecoufle, 2019, cité dans Lesecq-Lambre (2019)).

En outre, le questionnaire semble peu adapté au recueil de données qualitatives, le répondant (le parent) ou l'administrateur (l'orthophoniste) ne pouvant ajouter de commentaires aux réponses quantitatives. Enfin, le questionnaire met en jeu la subjectivité du répondant (le parent).

3. Apports pour la pratique clinique orthophonique

Le champ de compétences des orthophonistes s'est élargi depuis ces vingt dernières années. En effet, depuis le 1er avril 2018, un acte spécifique de rééducation des anomalies des fonctions oro-myo faciales et de l'oralité a été ajouté dans la Nomenclature Générale des Actes Professionnels des orthophonistes. De fait, les orthophonistes peuvent à présent être amenés à prendre en soin des nouveau-nés ainsi que des enfants présentant des difficultés alimentaires. Ces difficultés d'alimentation sont aujourd'hui des motifs de plus en plus fréquents de consultation en orthophonie, et ce, à tout âge.

Le rôle de l'orthophoniste dans les troubles alimentaires pédiatrique est **de prévenir, d'évaluer et de prendre en charge les difficultés alimentaires** ainsi que **d'accompagner l'enfant et ses parents** lors des périodes sensibles du développement alimentaire : la tétée lors de l'alimentation lactée exclusive (à la naissance), la diversification alimentaire au moment du passage à la cuillère (entre 4 et 6 mois) et l'introduction des morceaux fondants (à partir de 8 mois).

Bien qu'il soit aujourd'hui admis que les conséquences de l'opération chirurgicale des enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage constituent d'importants facteurs de risque d'apparition d'un trouble alimentaire pédiatrique, la littérature reste encore pauvre sur le sujet.

Notre étude permet donc d'en connaître davantage sur la prévalence et la nature des difficultés alimentaires spécifiquement retrouvées chez ces enfants. Finalement, les résultats de notre étude mettent en avant des difficultés alimentaires plus importantes chez les enfants opérés à la naissance d'une atrésie de l'œsophage que chez les enfants tout-venant. Néanmoins, les résultats tendent également à démontrer que ces difficultés ont tendance à diminuer avec le temps et qu'un suivi orthophonique dès la naissance permet une limitation des troubles. Au vu de l'ensemble de ces éléments, **il apparaît comme nécessaire de sensibiliser les professionnels de santé à l'importance de l'accompagnement de ces enfants par un orthophoniste ainsi que de mettre à disposition des postes d'orthophonistes au sein des différents centres de compétences des malformations œsophagiennes de France.** Un travail de prévention et de sensibilisation paraît également comme nécessaire auprès des prescripteurs afin d'orienter les enfants le plus tôt possible.

Il est à noter que cet accompagnement ne pourra se faire sans **un travail pluriprofessionnel dans une vision globale des compétences de l'enfant** et sans **un partenariat étroit avec la famille.** L'orthophoniste se trouve au cœur de la prise en soin multidisciplinaire de l'enfant porteur d'une atrésie de l'œsophage. Finalement, l'investissement positif de la sphère orale et le développement des compétences alimentaires ne pourront se faire qu'à travers la multiplication des expériences positives pour l'enfant porteur d'une atrésie de l'œsophage.

4. Pistes de recherches

Cette étude a finalement permis de définir et caractériser les difficultés alimentaires observées chez certains enfants opérés à la naissance d'une atrésie de l'œsophage. Cependant, elle présente également différents biais méthodologiques présentés dans la partie «Critique méthodologique de l'étude». Par conséquent, afin de pallier ce manque, plusieurs études pourraient poursuivre ce travail afin d'améliorer la connaissance du lien entre l'atrésie de l'œsophage et l'alimentation. Tout d'abord, il pourrait être pertinent de réaliser cette même étude sur un échantillon plus conséquent afin de confirmer nos premiers résultats. Puis, il pourrait être intéressant de développer un outil d'évaluation des troubles alimentaires pédiatriques disponible pour les enfants présentant des pathologies congénitales et/ou malformatives telle que l'atrésie de l'œsophage et bénéficiant de nutrition artificielle. Enfin, de futures études pourraient élargir la population d'étude en étudiant les difficultés alimentaires présentées chez les enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage de moins de 6 mois.

Conclusion

Aujourd'hui, le suivi des enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage est systématique, longitudinal et multidisciplinaire (pédiatres, diététiciens, psychologues, orthophonistes, psychomotriciens et auxiliaires de puériculture) et ce jusqu'à l'âge adulte. Parmi les nombreuses complications à long-terme de cette pathologie congénitale, des difficultés alimentaires sont fréquemment retrouvées. L'analyse d'articles et d'ouvrages issus de la littérature scientifique nous a permis de recueillir des informations sur les différents facteurs de risque pouvant perturber le développement alimentaire des enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage et sur les outils disponibles pour les évaluer.

L'objectif principal de notre recherche était donc de déterminer la prévalence des troubles alimentaires pédiatriques, chez les enfants âgés de 6 mois à 6 ans porteurs d'une atrésie de l'œsophage, à l'aide d'une échelle standardisée. L'objectif secondaire de cette étude était de réaliser un recueil de données descriptif des compétences et difficultés alimentaires de ces enfants. L'échelle d'alimentation HME, un outil validé afin de détecter les difficultés alimentaires des enfants entre 6 mois et 6 ans, a été sélectionnée comme outil d'évaluation pour notre étude.

Les premiers résultats supposent que 26% des enfants opérés à la naissance d'une atrésie de l'œsophage, ayant bénéficié d'un suivi orthophonique dès la naissance, présentent un trouble alimentaire pédiatrique lorsqu'ils sont évalués entre 6 mois et 6 ans. De fait, l'atrésie de l'œsophage a un impact fonctionnel négatif sur les compétences alimentaires de ces enfants. Les principales difficultés relevées semblent essentiellement porter sur : l'impact de l'alimentation de l'enfant dans les relations familiales ; le domaine sensoriel (signes d'hypersensibilité orale) ; le domaine oro-moteur (difficultés de succion ou de mastication) ; l'inquiétude des parents. Toutefois, les résultats tendent également à démontrer l'efficacité et l'importance d'une prise en soin orthophonique précoce chez les enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage. De plus, ces difficultés alimentaires ont tendance à s'améliorer avec l'âge.

Partant de ces conclusions, il est plus aisé d'orienter l'accompagnement et la prise en soin précoce en orthophonie de ces enfants et de leurs familles. Il paraît aujourd'hui indispensable de mettre en place des actions précoces de prévention, dès la naissance de l'enfant, afin de minimiser l'impact de cette malformation congénitale sur le développement sensoriel, oro-moteur et psycho-socio-comportemental de l'enfant. Enfin, il semble important de rappeler aux parents la possibilité d'une prise en charge psychologique ainsi que l'existence des associations de patients. Ces associations permettent aux parents d'enfants porteurs d'une atrésie de l'œsophage d'échanger sur leurs inquiétudes et sur leurs questionnements au sujet de l'alimentation de leur enfant.

Bibliographie

- Abadie, V. (2012). Développement de l'oralité alimentaire. Dans O. Goulet, M. Vidailhet et D. Turck (dir.), *Alimentation de l'enfant en situations normale et pathologique*, 2ème édition (p1-10). RueilMalmaison, France : Doin éditeurs.
- Antoine, M. (2021). Pathologies digestives du nourrisson. *Rééducation orthophonique*, 287, 81-96.
- Archer, L.-A., Rosenbaum, P.-L., & Streiner, D.-L. (1991). The children's eating behavior inventory: Reliability and validity results. *J Pediatr Psychol*, 16, 629-642.
- Bonnevale, M., Gottrand, F., Kacet, N., Michaud, L., Sfeir, R. & Storme, L. (2020). *Protocole de réalimentation chez les enfants opérés d'une atrésie de l'œsophage*. https://www.fimatho.fr/images/protocole_alimentation_et_Atresie_oesophage5138.pdf
- Braegger, C., Decsi, T., Dias, J. A., Hartman, C., Kolaček, S., Koletzko, B., Mihatsch, W., Moreno, L., Puntis, J., Shamir, R., Szajewska, H., Turck, D., & Van Goudoever, J. (2010). *Practical Approach to Paediatric Enteral Nutrition: A Comment by the ESPGHAN Committee on Nutrition*. *Journal of Pediatric Gastroenterology and Nutrition*, 51(1), 110-122. <https://doi.org/10.1097/MPG.0b013e3181d336d2>
- Crist, W., & Napier-Phillips, A. (2001). Mealtime behaviors of young children: a comparison of normative and clinical data. *J Dev Behav Pediatr*, 22(5), 279-286.
- Garabedian, C., Vaast, P., Bigot, J., Sfeir, R., Michaud, L., Gottrand, F., Verpillat, P., Coulon, C., Subtil, D., & Debarge, V.-H. (2014). Atrésie de l'œsophage : Prévalence, diagnostic anténatal et pronostic. *Journal de Gynécologie Obstétrique et Biologie de la Reproduction*, 43(6), 424-430. <https://doi.org/10.1016/j.jgyn.2013.11.014>
- Goday, P.-S., Huh, S.-Y., Silverman, A., Lukens, C.-T., Dodrill, P., Cohen, S.-S., & Phalen, J.-A. (2019). Pediatric Feeding Disorder: Consensus Definition and Conceptual Framework. *Journal of Pediatric Gastroenterology and Nutrition*, 68(1), 124.
- Gold, F., Aujard, Y., Dehan, M., Jarreau, P., Lejeune, C., Moriette, G., & Voyer, M. (2006). *Atrésie de l'œsophage*. Soins intensifs et réanimation du nouveau-né (2ème). Masson.
- Gottrand, F., Sfeir, R., Thumerelle, C., Gottrand, L., Fayoux, P., Storme, L., Lamblin, M.-D., Seguy, D., & Michaud, L. (2012). Devenir à moyen et long terme des enfants atteints d'atrésie de l'œsophage. *Archives de Pédiatrie*, 19(9), 932-938. <https://doi.org/10.1016/j.arcped.2012.06.012>
- Gottrand, F., Sfeir, R., Michaud, L., Lecoufle, A., Fayoux, P., Mur, S., Martin, C., Leclercq, L. & Edun, M.-E. (2020). *Propositions concernant l'alimentation des enfants présentant une atrésie de l'œsophage avec une anastomose différée*. https://www.fimatho.fr/images/protocole_anastomose_differe5139.pdf
- Haute Autorité de Santé. (2018). *Nutrition parentérale en néonatalogie - Recommandation de bonne pratique*. https://www.has-sante.fr/upload/docs/application/pdf/2018-06/argu_np_neonat_2018-06-28_11-18-23_280.pdf

- Haute Autorité de Santé. (2018). *Protocole National de Diagnostic et de Soins (PNDS) - Atrésie de l'œsophage*.
https://www.has-sante.fr/upload/docs/application/pdf/2018-12/20181212_pnds_atresie_de_oesophage_dec_2018_vf_charte.pdf
- Haute Autorité de Santé. (2022). *Protocole National de Diagnostic et de Soins (PNDS) - Sevrage de la nutrition entérale chez l'enfant*.
https://www.has-sante.fr/upload/docs/application/pdf/2022-10/pnds_sevrage_vf.pdf
- Lecoufle, A. (2012). Atrésie de l'œsophage : « oralité en période néonatale ». *Archives de Pédiatrie*, 19(9), 939-945. <https://doi.org/10.1016/j.arcped.2012.06.005>
- Lecoufle, A. & Leseq, E. (2016). Les troubles de l'oralité alimentaire et l'orthophonie. *L'orthophoniste*, 364, 19-26.
- Lecoufle, A. (2017). Atrésie de l'œsophage : une histoire d'oralité qui ne commence pas comme les autres. *Rééducation orthophonique*, 271, 29-42.
- Legrand, C., Michaud, L., Salleron, J., Neut, D., Sfeir, R., Thumerelle, C., Bonnevalle, M., Turck, D., & Gottrand, F. (2012). Long-term outcome of children with esophageal atresia type III. *Archives of Diseases in Childhood*, 97(9), 808-811.
- Leseq-Lambre, E. (2019). Sensibilisation des professionnels de santé aux troubles de l'oralité alimentaire. *Rééducation orthophonique*, 277, 105-120.
- Michaud, L., Guimber, D., Sfeir, R., Rakza, T., Bajja, H., Bonnevalle, M., Gottrand, F., & Turck, D. (2001). Sténose anastomotique après traitement chirurgical de l'atrésie de l'œsophage : Fréquence, facteurs de risque et efficacité des dilatations œsophagiennes. *Archives de Pédiatrie*, 8(3), 268-274.
- Michaud, L., Castelain, V., Sfeir, R., Turck, D., & Gottrand, F. (2008). Troubles de l'oralité après chirurgie digestive néonatale. *Archives de Pédiatrie*, 15, 840-841.
- Pham, A., Ecochard-Dugelay, E., Bonnard, A., Le Roux, E., Gelas, T., Rousseau, V., et al. (2021). Feeding disorders in children with œsophageal atresia: a cross-sectional study. *Arch Dis Child*, 107(1), 52-58. <https://doi.org/10.1136/archdischild-2020-320609>
- Prieux-Klotz, C., & Raynard, B. (2017). Nutrition parentérale : indications en gastroentérologie, modalités et complications. *EMC - Gastro-entérologie*, 12(2), 1-9.
- Ramsay, M., Martel, C., Porporino, M., & Zygmuntowicz, C. (2011). The Montreal Children's Hospital Feeding Scale: A brief bilingual screening tool for identifying feeding problems. *Paediatr Child Health*, 16(3), 147-151.
- 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.
- Thibault, C. (2007). *Orthophonie et oralité : la sphère oro-faciale de l'enfant*. Elsevier Health Sciences.
- Trofholz, A. C., Schulte, A. K., & Berge, J. M. (2017). How parents describe picky eating and its impact on family meals : A qualitative analysis. *Appetite*, 110, 36-43.

Van der Zee, D.C., Bagolan, P., Faure, C., Gottrand, F., Jennings, R., Laberge, J.-M., Martinez Ferro, M.H., Parmentier, B., Sfeir, R., & Teague, W. (2017). Position Paper of INoEA Working Group on Long-Gap Esophageal Atresia: For Better Care. *Frontiers in Pediatrics*, 5.

Wardle, J., Guthrie, C., Sanderson, S., & Rapoport, L. (2001). Development of the Children's Eating Behaviour Questionnaire. *J Child Psychol Psychiatry*, 42, 963-970.

Pages internet consultées :

Abadie, V. (2019). *Evaluation of ORALQUEST*. National Library of Medicine. Consulté le 16 mars 2023 sur <https://clinicaltrials.gov/ct2/show/study/NCT04133038>

AFAO Communication. (2021). *AO et alimentation*. Association française de l'atrésie de l'œsophage. Consulté le 4 mars 2023 sur <https://afao.asso.fr/vivre-au-quotidien-apres-une-atresie-de-loesophage/enrichir-les-repas/>

Dysphagie. (s. d.). Dans *le dictionnaire Larousse en ligne*. Consulté le 4 mars 2023 sur <https://www.larousse.fr/dictionnaires/francais/oesophage/55682>

Filière de Santé Maladies Rares Abdomino-Thoraciques. (2022). *Atrésie de l'œsophage*. FIMATHO. Consulté le 11 avril 2023 sur <https://www.fimatho.fr/maladies-rares/oesophagiennes/astresie-de-l-oesophage>

Métaplasie. (s. d.). Dans *le dictionnaire Larousse en ligne*. Consulté le 4 mars 2023 sur <https://www.larousse.fr/dictionnaires/francais/metaplasie/50900>

Œsophage. (s. d.). Dans *le dictionnaire Larousse en ligne*. Consulté le 5 avril 2022 sur <https://www.larousse.fr/dictionnaires/francais/oesophage/55682>

Péristaltisme. (s. d.). Dans *le dictionnaire Larousse en ligne*. Consulté le 12 avril 2022 sur <https://www.larousse.fr/encyclopedie/medical/peristaltisme/15277>

Liste des annexes

Annexe 1 : Échelle d'alimentation de l'Hôpital de Montréal (Ramsay et al., 2011).

Annexe 2 : Calendrier de suivi des enfants opérés d'une atrésie de l'œsophage proposé par le CRACMO (PNDS atrésie de l'œsophage, 2018).