

AVIS

Valeur thérapeutique de l'oxygénothérapie hyperbare chez les enfants avec une paralysie cérébrale

Une production de l'Institut national
d'excellence en santé
et en services sociaux (INESSS)

Direction des services de santé et de
l'évaluation des technologies



Valeur thérapeutique de l'oxygénothérapie hyperbare chez les enfants avec paralysie cérébrale

Rédigé par
Sylvie Lamy
Caroline Collette
Marilyn Fortin

Coordination scientifique
Véronique Gagné

Sous la direction de
Michèle de Guise

Le présent produit de connaissance a été présenté au Comité d'excellence clinique de santé de l'Institut national d'excellence en santé et en services sociaux (INESSS) lors de sa réunion du 22 novembre 2019.

Le contenu de cette publication a été rédigé et édité par l'INESSS.

Membres de l'équipe projet

Auteurs principales

Sylvie Lamy, Ph. D.
Caroline Collette, Ph. D.
Marilyn Fortin, Ph. D.

Collaborateurs internes

Jean-François Boivin, M.D., Sc. D.
Olivier Demers-Payette, Ph. D.
Stéphanie Roberge, Ph. D.
Isabelle Beaudoin, Ph. D.
Annie Tessier, Ph. D.
Mathieu Bujold, Ph. D., M. A., M. Sc.
Ana Gherghel, Ph. D.
Isabelle Ganache, Ph. D.
Carole-Line Nadeau, M. A.

Adjoints à la direction

Yannick Auclair, Ph. D.
Catherine Truchon, Ph. D., M. Sc. (administration)

Coordonnatrice scientifique

Véronique Gagné, M. Sc.

Directrice

Michèle de Guise, M.D., FRCPC

Repérage d'information scientifique

Caroline Dion, M.B.S.I.
Mathieu Plamondon, M.S.I.
Flavie Jouandon

Soutien administratif

Jacinthe Clusiau
Lolita Haddad
Christine Lemire

Équipe de l'édition

Patricia Labelle
Denis Santerre
Hélène St-Hilaire

sous la coordination de
Renée Latulippe, M. A.

avec la collaboration de
Madeleine Fex, B. A., révision linguistique
Christine Gervais, traduction

Dépôt légal

Bibliothèque et Archives nationales du Québec, 2020

Bibliothèque et Archives Canada, 2020

ISSN 1915-3104 INESSS (PDF) ISBN 978-2-550-86010-5 (PDF)

© Gouvernement du Québec, 2020

La reproduction totale ou partielle de ce document est autorisée à condition que la source soit mentionnée.

Pour citer ce document : Institut national d'excellence en santé et en services sociaux (INESSS). Valeur thérapeutique de l'oxygénothérapie hyperbare chez les enfants avec une paralysie cérébrale. Avis rédigé par Sylvie Lamy, Caroline Collette et Marilyn Fortin. Québec, Qc : INESSS; 2020. 86 p.

L'INESSS remercie les membres de son personnel qui ont contribué à l'élaboration de ce document.

Comité consultatif

Les membres du comité d'experts du présent projet sont :

D^r Dominique Buteau, médecin-chef du service de médecine hyperbare, Centre intégré de santé et de services sociaux (CISSS) de Chaudière-Appalaches (Hôtel-Dieu de Lévis); professeur agrégé de clinique, Département de médecine familiale et médecine d'urgence, Faculté de médecine, Université Laval

M^{me} Mélanie Caron, infirmière clinicienne, Institut de réadaptation en déficience physique de Québec (IRD PQ), Centre intégré universitaire de santé et de services sociaux (CIUSSS) de la Capitale-Nationale (CN)

M^{me} Chantale Ferland, physiothérapeute, Programme des atteintes cérébrales, IRDPQ, CIUSSSCN

M^{me} Karine Gagné, psychologue, chargée d'enseignement clinique, Programme de déficience motrice, Centre de réadaptation Marie Enfant – Centre hospitalier universitaire (CHU) Sainte-Justine

D^{re} Marie Laberge-Malo, pédiatre et physiatre, CHU Sainte-Justine

M^{me} Catherine Mercier, ergothérapeute, professeure titulaire, Département de réadaptation, Faculté de médecine, Université Laval; directrice scientifique, Centre interdisciplinaire de recherche en réadaptation et intégration sociale (CIRRIS), CIUSSSCN; titulaire de la Chaire de recherche en paralysie cérébrale de l'Université Laval

M^{me} Lynne Moore, professeure titulaire, Département de médecine sociale et préventive, Faculté de médecine, Université Laval; chercheuse régulière, Axe Santé des populations – Pratiques optimales en santé, Traumatologie – Urgence – Soins intensifs

D^{re} Maryam Oskoui, neuropédiatre, directrice adjointe, division de la neurologie pédiatrique, Hôpital de Montréal pour enfants – Centre universitaire de santé McGill (CUSM); professeure associée, Département de neurologie et de neurochirurgie, Département de pédiatrie, Faculté de médecine, Université McGill

D^{re} Nicole Pigeon, pédiatre, Centre hospitalier universitaire de Sherbrooke (CHUS) et Centre de réadaptation de l'Estrie

D^r Michel Sylvain, neuropédiatre, Centre mère-enfant Soleil – CHU de Québec

M^{me} Helen Trottier, professeure agrégée, Département de médecine sociale et préventive, École de santé publique de l'Université de Montréal (ESPUM); chercheuse, Centre de recherche CHU Sainte-Justine

Autres experts consultés

D^r Jacques Lacroix, pédiatre et chercheur, CHU Sainte-Justine; professeur titulaire, Département de pédiatrie, Faculté de médecine, Université de Montréal

D^r Pierre Marois, physiatre en pédiatrie, Centre de réadaptation Marie Enfant – CHU Sainte-Justine; professeur adjoint de clinique, médecine physique et réadaptation, Département de pédiatrie, Faculté de médecine, Université de Montréal

Lecteurs externes

Pr Bernard Dan, professeur de neurosciences, Université libre de Bruxelles (ULB); directeur médical du Revalidatieziekenhuis Inkendaal, Belgique

Pr Daniel Mathieu, professeur des universités – praticien hospitalier, chef du pôle de réanimation, responsable du centre hyperbare, Université de Lille et Centre Hospitalier Régional Universitaire de Lille, France; président de l'European Committee for Hyperbaric Medicine

Groupes rencontrés

Regroupement de parents pour l'oxygénothérapie hyperbare : [Paralysie cérébrale : intervention précoce et traitement hyperbare](#) (rencontre avec quatre représentants, soit des parents d'enfants avec une paralysie cérébrale)

Professionnels en centre de réadaptation physique (rencontre avec huit professionnels de la santé)

Responsables de centre de médecine hyperbare en établissement public au Québec (rencontre avec trois professionnels de la santé)

Responsables de clinique privée offrant l'oxygénation hyperbare (OHB) au Québec (rencontre avec cinq représentants de clinique privée)

Association de paralysie cérébrale du Québec (rencontre avec trois représentants)

Comité d'excellence clinique en services de santé

Présidence

M. Daniel La Roche, directeur de l'évaluation, de la qualité, de l'éthique, de la planification et des affaires juridiques, CHU de Québec – Université Laval

Vice-présidence

M. Serge Dumont, professeur titulaire, École de service social, Université Laval; directeur scientifique de l'Institut universitaire de première ligne en santé et services sociaux (IUPLSSS), CIUSSCN

Membres

M^{me} Danielle Boucher, infirmière praticienne spécialisée (IPS) en néphrologie, CHU de Québec – Université Laval

D^r Philippe Juvet, intensiviste pédiatre, CHU Sainte-Justine; professeur titulaire, Faculté de médecine, Université de Montréal

D^r Luigi Lepanto, radiologue; directeur des services professionnels (DSP), Direction des affaires médicales et universitaires, Centre hospitalier de l'Université de Montréal (CHUM); professeur titulaire de clinique, Faculté de médecine, ESPUM

M^{me} Aude Motulsky, pharmacienne et professeure adjointe, ESPUM; chercheuse, Centre de recherche (CR) du CHUM

M. Thomas Poder, professeur adjoint, Département de gestion, évaluation et politique de santé, ESPUM; chercheur, Centre de recherche de l'Institut universitaire en santé mentale de Montréal (IUSMM); professeur associé, Département d'économie et Département de médecine de famille et de médecine d'urgence, Université de Sherbrooke

Dr Martin Potter¹, médecin de famille, CISSS de la Gaspésie; directeur adjoint du programme de résidence de médecine familiale de l'Université de Montréal

D^{re} Charo Rodriguez, professeure titulaire, Département de médecine familiale, Université McGill

D^{re} Élise Sirois-Giguère¹, chirurgienne générale; professeure adjointe d'enseignement clinique, Faculté de médecine et des sciences de la santé, Université de Sherbrooke

D^r Jean-Claude Tardif², interniste et cardiologue; directeur, Centre de recherche de l'Institut de cardiologie de Montréal (ICM); professeur titulaire, Faculté de médecine, Université de Montréal

M. Pierre-Yves Therriault¹, ergothérapeute, professeur et directeur, Département d'ergothérapie, Université du Québec à Trois-Rivières (UQTR)

M^{me} Stéphanie Therrien, directrice de l'éthique et du développement durable, Revenu Québec

M^{me} Nathalie Thiffault, conseillère-cadre en soins infirmiers aux continuums de soins critiques, cardiologie et neurologie, CIUSSS de la Mauricie-et-du-Centre-du-Québec (MCQ)

D^{re} Chantal Vallée, interniste, CISSS de la Montérégie-Centre; professeure agrégée, Faculté de médecine et des sciences de la santé, Université de Sherbrooke

Membres citoyens

M. Guy Poulin

M^{me} Linda Xiang Wang

Autres contributions

L'INESSS tient également à remercier les personnes suivantes, qui ont contribué à l'élaboration de cet avis en fournissant soutien, information et conseils clés :

M^{me} Sara Beha, coordonnatrice scientifique, Unité d'évaluation des technologies innovantes en santé, Direction des services de santé et de l'évaluation des technologies, INESSS

M^{me} Alicia Framarin, professionnelle scientifique principale (jusqu'à la fin de novembre 2018), Unité d'évaluation des technologies innovantes en santé, Direction des services de santé et de l'évaluation des technologies, INESSS

¹ Membre du Comité d'excellence clinique en services de santé en fin de projet alors qu'a été présenté l'avis.

² Membre du Comité d'excellence clinique en services de santé au démarrage du projet.

M. Louis Lochhead, patient coordonnateur, Centre d'excellence sur le partenariat avec les patients et le public (CEPPP), INESSS

M. Khalil Moqadem, professionnel scientifique en santé, Unité de méthodologie, éthique et participation des citoyens, patients, usagers et proches aidants, Direction de la vice-présidence, science et gouvernance clinique, INESSS

Déclaration d'intérêts

Comité consultatif

D^r Dominique Buteau a reçu une subvention de recherche en tant que chercheur principal d'un projet relatif à l'oxygénothérapie hyperbare et à la médecine de plongée.

Autres experts consultés

D^r Jacques Lacroix est co-auteur d'une étude évaluée dans cet avis.

D^r Pierre Marois est co-auteur de trois études qui ont été évaluées dans cet avis; il déclare aussi avoir exprimé un point de vue critique dans des revues médicales, lors de conférences et devant les médias.

Responsabilité

L'INESSS assume l'entière responsabilité de la forme et du contenu définitifs du présent document; les conclusions et les recommandations qu'il contient ne reflètent pas forcément les opinions des lecteurs externes ou des autres personnes consultées aux fins de son élaboration.

TABLE DES MATIÈRES

RÉSUMÉ.....	I
SUMMARY.....	VII
SIGLES ET ABRÉVIATIONS.....	XII
GLOSSAIRE.....	XIV
1. MANDAT	1
2. DÉMARCHE D'ÉVALUATION	2
2.1. Question décisionnelle	2
2.2. Questions clés d'évaluation.....	2
2.3. Types de revue de la littérature et de synthèse	2
2.4. Données issues de la littérature	2
2.4.1. Stratégie de repérage d'information scientifique	2
2.4.2. Critères de sélection des documents	3
2.4.3. Sélection des études, extraction des données et évaluation de la qualité des données de la littérature	3
2.4.4. Élaboration d'une méta-analyse	3
2.4.5. Processus d'évaluation de la preuve.....	4
2.5. Données contextuelles et expérientielles	5
2.5.1. Consultations de parties prenantes	5
2.5.2. Consultations individuelles avec des parents d'un enfant avec une paralysie cérébrale et avec un jeune adulte atteint.....	6
2.5.3. Analyse des données issues des entretiens individuels et de groupe	7
2.6. Comités et processus de validation scientifique.....	8
2.6.1. Comité consultatif	8
2.6.2. Comité d'excellence clinique en services de santé	8
2.6.3. Lecteurs externes	8
2.7. Analyse et synthèse des données et processus de formulation des recommandations.....	8
2.8. Gestion des conflits d'intérêts.....	9
3. PARALYSIE CÉRÉBRALE ET BESOINS DE SANTÉ	10
3.1. Définition et comorbidité	10
3.2. Étiologie	11
3.3. Diagnostic de la paralysie cérébrale	11
3.4. Mesures des atteintes et classification	12
3.5. Prise en charge de la paralysie cérébrale	15
3.5.1. Services offerts au Québec	16
3.5.2. Perspective des parties prenantes	17
3.5.3. Perspective des parents	17
3.6. Conséquences de la paralysie cérébrale et qualité de vie.....	19

3.6.1. Perspective des parents	19
3.6.2. Perspective des parties prenantes	20
3.7. Besoins non comblés relativement aux traitements	20
4. OXYGÉNOTHÉRAPIE HYPERBARE.....	21
4.1. Description.....	21
4.1.1. Équipement.....	21
4.1.2. Sécurité et innocuité	21
4.1.3. Contre-indications.....	22
4.2. Indications reconnues.....	23
4.2.1. Mécanismes d'action de l'OHB.....	24
4.3. Contexte d'utilisation de l'OHB au Québec et perspective de parents et de parties prenantes	26
4.3.1. Expériences d'utilisation de la thérapie hyperbare au Québec	27
5. RÉSULTATS SUR L'EFFICACITÉ ET L'INNOCUITÉ ET EFFETS SUR LA QUALITÉ DE VIE	31
5.1. Données probantes tirées de la littérature scientifique	31
5.1.1. Résultats de la recherche documentaire	31
5.1.2. Qualité méthodologique des études	33
5.1.3. Méta-analyse	37
5.2. Efficacité de l'OHB.....	38
5.2.1. Évaluation de la fonction motrice – motricité globale	38
5.2.2. Évaluation de la fonction motrice – motricité fine	45
5.2.3. Évaluation de la spasticité – tonus musculaire.....	46
5.2.4. Évaluation de l'autonomie – réalisation des activités de la vie quotidienne.....	48
5.2.5. Évaluation de la communication.....	53
5.2.6. Évaluation des processus cognitifs et des habiletés sociales.....	55
5.2.7. Évaluation de la qualité du sommeil.....	59
5.3. Innocuité de l'intervention.....	60
5.3.1. Études ayant évalué les effets indésirables	60
5.4. Répercussions de l'OHB sur la qualité de vie	63
6. APPRÉCIATION DE LA VALEUR THÉRAPEUTIQUE.....	64
6.1. Efficacité de l'OHB.....	65
6.2. Innocuité de l'OHB.....	67
6.3. Qualité de vie des enfants traités par l'OHB et de leurs proches.....	68
6.4. Questions sociales, éthiques et de pratique.....	68
PRINCIPAUX CONSTATS	69
DÉLIBÉRATIONS DU COMITÉ D'EXCELLENCE CLINIQUE EN SERVICES DE SANTÉ.....	71
RECOMMANDATION DE L'INESSS.....	73
RÉFÉRENCES	74

LISTE DES TABLEAUX

Tableau 1	Classification topographique classique	13
Tableau 2	Classification neurophysiologique symptomatique classique.....	13
Tableau 3	Capacités relatives à la motricité globale – niveaux du système de classification de la motricité globale GMFCS chez les enfants de 6 à 12 ans	14
Tableau 4	Capacités relatives à la motricité fine (en position assise) – niveaux du système de classification (MACS) de la motricité fine chez les enfants de 4 à 18 ans	14
Tableau 5	Questions clés d'évaluation traitées dans les études sélectionnées et retenues	31
Tableau 6	Description des protocoles d'intervention	36
Tableau 7	Évaluation de l'efficacité de l'OHB pour améliorer la motricité globale	41
Tableau 8	Évaluation de l'efficacité de l'OHB pour améliorer l'autonomie	49
Tableau 9	Évaluation de l'efficacité de l'OHB pour améliorer l'attention visuelle et auditive des enfants (TOVA)	56

LISTE DES FIGURES

Figure 1	Graphique en forêt représentant l'écart entre les scores du GMFM-88, sous-groupes en fonction du devis et de la qualité des études.....	43
Figure 2	Graphique en forêt représentant l'écart entre les scores obtenus au PEDI, soit entre un groupe ayant reçu un traitement d'OHB et un groupe témoin (méthode des doubles différences).	52

RÉSUMÉ

Mandat

L'Institut national d'excellence en santé et en services sociaux (INESSS) a reçu du ministère de la Santé et des Services sociaux (MSSS) le mandat d'évaluer la valeur thérapeutique de l'oxygénothérapie hyperbare (OHB) chez les enfants avec une paralysie cérébrale, dans le but de soutenir une décision quant à un possible ajout à la gamme de services publics.

Démarche d'évaluation

Une revue systématique de la littérature a été réalisée pour repérer les données probantes en vue d'évaluer l'efficacité et l'innocuité de l'OHB ainsi que ses effets sur la qualité de vie des enfants avec une paralysie cérébrale et de leurs parents. Des méta-analyses ont été réalisées sur certains résultats d'intérêt lorsque les données scientifiques le permettaient.

Des données contextuelles et expérientielles issues de la consultation d'experts (cliniciens et chercheurs) et de parties prenantes (représentants d'un regroupement de parents, d'une association soutenant les personnes atteintes et leurs proches, de centres et de cliniques hyperbares, de centres de réadaptation physique) ont été présentées. Une collecte d'information visant à capter la perspective de parents d'enfants et de jeunes adultes avec une paralysie cérébrale a été effectuée au moyen de questionnaires et d'entrevues individuelles.

Paralysie cérébrale et besoins de santé

La paralysie cérébrale est la principale cause d'incapacité physique et de retard de développement chez les enfants. Bien que la prévalence globale mondiale soit évaluée à 2,11 pour 1000 naissances vivantes, elle n'est pas encore précisée au Canada. La paralysie cérébrale désigne un ensemble de troubles du développement du mouvement et de la posture, qui sont responsables de limitations d'activité. Ces troubles sont causés par des atteintes neurologiques non progressives survenues au cours du développement du cerveau pendant la grossesse, lors de la naissance ou durant les premières semaines de vie. Diverses affections y sont souvent associées : troubles de la cognition, du langage, de la perception ou du comportement; atteintes sensorielles; épilepsie; problèmes musculosquelettiques secondaires et de la fonction oromotrice.

Aucun traitement curatif de la paralysie cérébrale n'est disponible actuellement. Chaque personne touchée présente un profil clinique et un degré de gravité de l'atteinte différents, ce qui complexifie la démarche d'évaluation diagnostique. La prise en charge des enfants est effectuée par une équipe clinique interdisciplinaire (médicale et de réadaptation physique) en partenariat avec les parents et vise l'amélioration de la fonction musculaire, de la mobilité articulaire, des capacités d'expression verbale ainsi que des corrections orthopédiques (correction de déformations et de désalignements).

Les conséquences significatives de la paralysie cérébrale sur la qualité de vie de l'enfant et des parents ont été illustrées. Les parents interviewés ont mis en lumière leur grande implication dans les soins et les services à donner à leur enfant. Bien qu'ils soient généralement satisfaits des soins et des services reçus, des préoccupations relatives à la variabilité de l'offre de services de réadaptation ont été soulevées. Une bonification des services de soutien, de répit, d'information et d'aide financière est souhaitée par certains parents. De plus, la plupart d'entre eux gardent espoir qu'un traitement puisse contribuer encore plus à l'évolution positive de l'état de leur enfant et à améliorer leur qualité de vie.

Oxygénothérapie hyperbare

L'oxygénothérapie hyperbare (OHB) est une technologie qui permet d'administrer de l'oxygène pur ou un mélange de gaz suroxygéné à une ou plusieurs personnes à l'intérieur d'un caisson ou d'une chambre pressurisée (pression supérieure à la pression atmosphérique standard – 1 atmosphère absolue [ATA]). Santé Canada reconnaît actuellement l'efficacité de l'OHB pour traiter 14 types d'affection, mais la paralysie cérébrale n'en fait pas partie. Au Québec, comme dans la vaste majorité des systèmes de santé comparables, le traitement de la paralysie cérébrale par OHB n'est pas reconnu et ne peut pas être prescrit. Les deux centres hospitaliers (CH) du Québec qui sont équipés de chambres hyperbares à parois rigides ne peuvent traiter que les patients qui répondent aux indications reconnues au Canada.

Contexte d'utilisation au Québec

Au Québec, le recours à l'OHB chez les enfants avec une paralysie cérébrale remonte aux années 90. Au fil des ans, plusieurs parents ont choisi d'avoir recours à l'OHB pour traiter leur enfant. Quelques cliniques privées offrent ce traitement aux enfants avec une paralysie cérébrale et des entreprises privées louent ou vendent des caissons portatifs à parois souples. Ce type de caisson est généralement utilisé à domicile sans apport d'oxygène additionnel et à une pression d'air ambiant légèrement plus élevée que la pression atmosphérique (généralement à 1,3 ATA). Cette intervention est désignée davantage par AHB (air légèrement pressurisé; en anglais *hyperbaric air* ou HBA) que par OHB. Si les avis des professionnels de la santé sont partagés quant à l'utilisation de l'OHB ou de l'AHB, des parents utilisateurs interviewés se sont dits satisfaits des effets qu'ils ont perçus chez leur enfant.

Bien que le fonctionnement des chambres hyperbares à parois rigides homologuées par Santé Canada soit considéré comme sécuritaire pour autant que les précautions de sécurité qui s'imposent soient respectées, ce n'est pas le cas des enceintes hyperbares à parois souples, lesquelles ne sont pas homologuées par Santé Canada.

Résultats

La revue systématique de la littérature a permis de retenir dix études pour évaluer la valeur thérapeutique de l'OHB chez les enfants vivant avec une paralysie cérébrale, soit deux essais cliniques randomisés (ECR) dont la qualité méthodologique est jugée adéquate (moyenne et élevée), et huit études de faible qualité méthodologique

comportant plusieurs limites, soit deux ECR, une étude comparative avant-après (ECAA) et cinq études non comparatives avant-après (ENCAA).

De plus, trois évaluations des technologies de la santé (ETS) ont été publiées sur l'utilisation de l'OHB chez les enfants avec une paralysie cérébrale et aucune ne rapporte une efficacité à cet égard. Aucun des guides de pratique clinique repérés ne reconnaît la paralysie cérébrale comme une indication d'utilisation de l'OHB.

Efficacité

Parmi les sept résultats d'intérêt qui ont été repérés dans les études, la motricité globale est celui qui a été principalement évalué. L'autonomie des enfants à réaliser des tâches de la vie quotidienne, la communication, les processus cognitifs et les habiletés sociales, la qualité du sommeil, la motricité fine et la spasticité – tonus musculaire sont les autres résultats d'intérêt retenus.

Les données scientifiques disponibles montrent qu'il n'y a aucune différence entre l'OHB et l'AHB concernant l'efficacité sur l'amélioration de la motricité globale et de l'autonomie et que l'augmentation de la fraction inspirée en oxygène (FiO_2) n'a pas d'effet sur ces résultats d'intérêts. De plus, les limites des données scientifiques disponibles, qui sont peu nombreuses, ne permettent pas de reconnaître une efficacité de l'intervention relativement aux cinq autres résultats d'intérêt étudiés.

Innocuité

Des douleurs aux oreilles ou des blessures aux tympans (barotraumatismes de l'oreille moyenne) sont les événements indésirables rapportés le plus fréquemment dans quatre études, lesquelles comportent des limites quant à la façon dont les auteurs ont procédé à l'évaluation de l'innocuité et rapporté les résultats. Par conséquent, les données disponibles ne permettent pas de se prononcer sur l'innocuité de l'OHB, ou du comparateur AHB, lorsqu'elle est utilisée chez des enfants vivant avec une paralysie cérébrale.

Qualité de vie

Aucune des études retenues n'a rapporté de données sur la qualité de vie. Par conséquent, seules des données issues de consultations avec quelques parents d'un enfant avec une paralysie cérébrale et quelques professionnels en réadaptation ont permis de mettre en lumière l'importance accordée par les parents à toute amélioration perçue chez leur enfant, aussi minime soit-elle. Pour plusieurs parents utilisateurs, l'OHB – particulièrement lorsqu'elle est effectuée à domicile (AHB) – est un traitement facile, qui s'intègre bien à une vie de famille souvent complexe et intense, caractérisée par la gestion de nombreux rendez-vous pour des consultations médicales et des services de réadaptation, ainsi que par un soutien presque constant à offrir à leur enfant.

Appréciation de la valeur thérapeutique

Depuis la publication du rapport de l'Agence d'évaluation des technologies et des modes d'intervention en santé (AETMIS) en 2007 sur la place de l'OHB dans la prise en charge de la paralysie cérébrale, six nouvelles études ont été publiées. À la lumière de l'évaluation de l'INESSS et des experts consultés, ces nouvelles données ont une portée limitée et n'éclairent pas davantage sur l'efficacité et l'innocuité de l'OHB.

Les données scientifiques proviennent d'études dont la plupart comportent plusieurs limites. Tant les profils des sujets que les protocoles d'OHB (voire d'AHB) utilisés présentent une diversité qui rend ardue la comparaison entre études. Les questionnements et les préoccupations au regard des études publiées sont multiples : pertinence des groupes témoins ou du traitement simulé utilisés dans les ECR; limites des plans d'étude; peu d'ajustement des groupes en fonction des principaux facteurs de confusion.

Les parents consultés perçoivent de leur côté des effets positifs des traitements, surtout sur le plan cognitif; des effets qui sont moins évalués dans les études publiées et qui s'attardent davantage sur la motricité globale.

Bien que peu d'effets indésirables associés à l'OHB ou à l'AHB soient rapportés dans les études ainsi que par diverses parties prenantes rencontrées et par des parents utilisateurs interviewés, des préoccupations subsistent, autant chez les agences réglementaires que chez des professionnels de la santé consultés, y compris des spécialistes en médecine hyperbare.

Aucune étude n'a rapporté de données sur la qualité de vie des enfants, alors qu'il s'agit de l'une des données importantes dans l'évaluation d'une intervention telle que l'OHB chez les enfants avec une paralysie cérébrale.

Par conséquent, la démonstration de la valeur thérapeutique n'a pu être établie à la lumière des données disponibles.

Principaux constats

- La complexité de la paralysie cérébrale requiert :
 - une information et un soutien adaptés aux besoins des enfants et de leurs proches;
 - selon la gravité des atteintes, une diversité de soins et de services pour la prise en charge de l'enfant, tels que des traitements médicaux, médicamenteux, chirurgicaux et de réadaptation;
 - une coordination entre les différents professionnels de la santé, services et établissements (CH, centre local de services communautaires (CLSC), centre de réadaptation) concernés pour assurer le suivi de l'enfant;
 - des services appropriés, à chacune des étapes de la vie de l'enfant.
- Dans l'espoir d'améliorer davantage l'évolution de leur enfant, certains parents recherchent une option thérapeutique de remplacement ou complémentaire aux traitements usuels.

- Aucune agence réglementaire ou société savante en médecine hyperbare n'a encore reconnu l'efficacité de l'OHB pour traiter cette affection et aucun régime d'assurance publique au Canada, aux États-Unis ou autre système de santé comparable ne rembourse le traitement d'OHB pour traiter la paralysie cérébrale.
- Les données scientifiques actuellement disponibles (10 études publiées) ne permettent pas de reconnaître que l'OHB est efficace pour améliorer divers aspects de l'état des enfants avec une paralysie cérébrale.
- Aucune donnée scientifique robuste ne permet présentement de soutenir un effet thérapeutique de l'OHB (ou de son comparateur, l'AHB) chez les enfants avec une paralysie cérébrale. Toutefois, les résultats d'intérêt auxquels des effets sont perçus et rapportés par quelques parties prenantes et parents utilisateurs ne sont pas nécessairement les mêmes que ceux analysés dans la littérature.
- Les données disponibles ne permettent pas de se prononcer sur l'innocuité de l'OHB chez les enfants avec une paralysie cérébrale.
- Alors que la paralysie cérébrale peut avoir des répercussions importantes sur la qualité de vie des enfants touchés et celle de leur famille, aucune étude ayant évalué l'effet de l'OHB sur cet aspect n'a été repérée.
- Au Québec, l'AHB est souvent utilisée à domicile pour traiter des enfants avec une paralysie cérébrale, dans un caisson portatif à parois souples où l'air est légèrement pressurisé et sans apport additionnel d'oxygène pur. Davantage de données sont toutefois requises pour évaluer l'efficacité et l'innocuité de ce type d'intervention (AHB) et ses effets sur la qualité de vie des enfants vivant avec une paralysie cérébrale. À cet égard, Santé Canada a publié, à l'automne 2019, une mise en garde relativement à l'utilisation des caissons hyperbares à parois souples, qui ne sont pas homologués et qui pourraient présenter des risques pour la santé

Délibérations du Comité d'excellence clinique en services de santé

Les données scientifiques, contextuelles et expérientielles ont fait l'objet de délibérations avec les membres du Comité d'excellence clinique (CEC) en services de santé pour statuer sur la valeur thérapeutique de l'OHB chez les enfants avec une paralysie cérébrale.

Les membres du CEC ont soulevé des préoccupations concernant :

- les limites et la qualité des études retenues;
- l'importance de l'ampleur des effets rapportés;
- la façon dont ont été mesurés les résultats analysés, notamment en raison des outils qui ont été utilisés et dont la validité doit, dans plusieurs cas, être démontrée;
- les conditions d'observation des enfants, qui ne sont pas précisées en détail et qui peuvent avoir une incidence sur les résultats constatés;
- l'évolution naturelle de l'enfant, laquelle n'est pas non plus considérée;
- et l'utilisation actuelle, chez des enfants, d'une technologie qui n'est pas nécessairement sans risque.

De plus, les membres sont perplexes quant à l'absence de preuve scientifique solide sur l'efficacité de l'OHB et ses mécanismes d'action potentiels alors que cette technologie est utilisée chez des enfants avec une paralysie cérébrale depuis plusieurs années.

En se basant sur ces données, les membres du CEC s'entendent de façon unanime pour conclure que les informations disponibles ne permettent pas de reconnaître une valeur thérapeutique à l'OHB. Ils sont également d'avis que les données disponibles ne permettent pas davantage de reconnaître une valeur thérapeutique à l'AHB.

Recommandation de l'INESSS

À la lumière des données scientifiques, contextuelles et expérientielles colligées, et en l'absence de démonstration d'une valeur thérapeutique, l'INESSS est d'avis que l'ajout de l'OHB ou de l'AHB à la gamme de services publics pour traiter les enfants avec une paralysie cérébrale ne constitue pas une option juste et raisonnable.

SUMMARY

The therapeutic value of hyperbaric oxygen (HBO) on children with cerebral palsy

Mandate

The *Institut national d'excellence en santé et en services sociaux* (INESSS) was mandated by the *Ministère de la Santé et des Services sociaux* (MSSS) to assess the therapeutic value of hyperbaric oxygen (HBO) on children with cerebral palsy for the purpose of supporting a decision with respect to possibly adding this form of therapy to the range of public services.

Assessment process

A systematic literature review was conducted to identify evidence-based findings relevant to the evaluation of the efficacy and innocuity of HBO and its impact on the quality of life of children with cerebral palsy and their parents. Meta-analyses were performed on outcomes of interest when the scientific data so permitted.

Contextual and experiential data gathered through consultations with experts (clinicians and scientists) and stakeholders (representatives of a group of parents, an association supporting people with cerebral palsy and their relatives, hyperbaric centers and clinics, physical rehabilitation centers) were presented. Information was gathered from parents of children and young adults with cerebral palsy through the conduct of questionnaires and individual interviews with the aim of understanding their perspective and views.

Cerebral palsy and health needs

Cerebral palsy is the most common cause of physical disability and developmental delay in children. While the global prevalence is estimated at 2.11 per 1,000 live births, that of the Canadian population has not yet been defined. Cerebral palsy is a group of developmental disorders affecting movement and posture and responsible for activity limitation. These disorders are caused by non-progressive neurological dysfunctions, which occurred during the baby's brain development during pregnancy, at birth or in the newborn's first weeks of life. Various disorders are associated with cerebral palsy: cognitive, speech, perception or behavioral impairment; sensorial dysfunctions; epilepsy; and secondary musculoskeletal and oral-motor function problems.

There exists no curative treatment for cerebral palsy. Clinical profiles and disorder severity levels differ from one person with cerebral palsy to another, thus making diagnostic assessments more complex. Care management of children with clinical palsy is provided by interdisciplinary clinical teams (medical and physical rehabilitation) in partnership with the parents. It aims at improving the child's muscular function, articular mobility and oral expression capacity and at making orthopedic corrections (correction of malformation and malalignment).

Cerebral palsy has profound effects on the quality of life of the children and their parents as highlighted through interviews with parents. The parents interviewed clearly indicated their full involvement in the care and services to be given to their child. While they are generally satisfied with the care and services provided, they voiced concerns on the issue of variability of rehabilitation services. Some parents expressed a wish to see support, respite, information and financial aid services enhanced. Most of them still remain hopeful that a treatment will contribute even more to the positive evolution of their child's condition and quality of life.

Hyperbaric oxygen therapy

Hyperbaric oxygen (HBO) therapy is a technology in which pure oxygen or a mixture of gas with greater oxygen is administered to one or many persons inside a pressurized chamber (the pressure is greater than standard atmospheric pressure - one (1) atmosphere absolute [ATA]). Health Canada now recognizes the effectiveness of HBO in the treatment of 14 types of disorders, but cerebral palsy is not one of them. Under the Quebec health system, as for the vast majority of comparable health systems, HBO treatment for cerebral palsy is not recognized and, therefore, cannot be prescribed. The two health centers in Quebec equipped with hard-shell hyperbaric chambers can only use them to treat patients who meet indications approved in Canada.

Context of use in Quebec

In Quebec, the use of hyperbaric oxygen therapy on children with cerebral palsy goes back to the 1990s. Over the years, many parents have turned to HBO treatment. A few private clinics offer this type of treatment for children with cerebral palsy, and private enterprises rent or sell portable soft-shell chambers. In general, soft-shell chambers are used at home without an additional source of oxygen; the ambient air pressure is slightly superior to atmospheric pressure (generally 1.3 ATA). The acronym used for this type of treatment is HBA, for hyperbaric air, rather than HBO. While health professionals are divided in their opinions regarding the use of HBO or HBA treatments for cerebral palsy, the parents interviewed who use either treatment expressed satisfaction with perceived effects on their children.

While hard-shell hyperbaric chambers recognized by Health Canada are considered safe to use provided that all necessary safety precautions are well respected, this is not the case for soft-shell hyperbaric chambers, which are not recognized by Health Canada.

Results

The systematic review of the literature on this topic identified ten studies, which helped assess the therapeutic value of HBO treatment on children with cerebral palsy: two (2) randomized clinical trials (RCT), the methodology of which was found to be of adequate quality (average to high); and eight (8) studies, the methodology of which was found to be of poor quality due to their many limitations: two (2) RCTs, one (1) pre-post comparative study (PPCS), and five (5) pre-post non-comparative studies (PPNCS).

Three (3) health technology assessments on HBO treatment on children with cerebral palsy were published, but none of them has reported on its effectiveness. None of the clinical practice guidelines identified recognized cerebral palsy as an indication to the use of HBO treatment.

Efficacy

Of all seven (7) outcomes of interest identified in the studies, gross motor skills were measured the most. The other outcomes of interest identified are the child's autonomy to perform tasks of daily living, ability to communicate and the child's cognitive processes, social skills, quality of sleep, fine motor skills and spasticity (muscle tone).

The scientific data available show no difference between HBO and HBA therapy in terms of efficacy in improving gross motor skills and autonomy, and no impact from an increase in the fraction of inspired oxygen (FiO₂) on these outcomes of interest. Furthermore, given the limitations of the very few scientific data available, it is not possible to recognize the efficacy of the treatment with regard to the other five outcomes of interest under review.

Innocuity

Earaches or eardrum injuries (middle ear barotrauma) are the most common adverse events reported in four (4) studies; these studies have limitations related to how their authors assessed the innocuity and reported the results. Based on the data available, it is therefore not possible to rule on the innocuity of HBO and HBA treatment on children with cerebral palsy.

Quality of life

None of the studies conducted reported data relating to the aspect of quality of life. Consequently, only data collected from consultations with some parents of a child with cerebral palsy and a few rehabilitation professionals brought to light the importance given by parents to perceived improvement, however minimal, in their child's condition. For many user parents, HBO treatment – especially when used at home (HBA) – is simple to perform and easily integrates into a family life that is complex and intense and requires managing multiple appointments for medical consultation and rehabilitation and providing almost constant support to their child.

Therapeutic value appreciation

After the *Agence d'évaluation des technologies et des modes d'intervention en santé* (AETMIS) published a report in 2007 on HBO treatment of cerebral palsy, six (6) studies were published. In the light of the assessment by the INESSS and experts consulted, the new data are limited in scope and fail to shed further light on HBO effectiveness and innocuity.

The scientific data were compiled from studies that, in most cases, have many limitations. The profiles of the subjects under study and the HBO (or HBA) protocols used are very diverse, thus making studies difficult to compare. There are multiple questions

and concerns with regard to the studies published: pertinence of control groups or of simulated (sham) treatment used in RCTs; limits of study plans; and limited adjustment for main confounding variables.

For their part, the parents consulted find the treatment to have positive effects on their child, in particular on the cognitive level; these effects were assessed to a lesser degree in the studies published, which focused more on gross motor skills.

While only a few undesirable effects associated with HBO and HBA treatment are reported in the studies or by the stakeholders and user parents consulted, concerns persist among the regulatory agencies and health professionals consulted (including hyperbaric physicians).

Not a single study reported data on the quality of life of children despite the importance of this factor in the assessment of HBO treatment on children with cerebral palsy.

Consequently, demonstration of the therapeutic value has failed to be established on the basis of the data available.

Main observations

- The complexity of cerebral palsy requires the following:
 - Access to information and support adapted to the needs of the children and their family;
 - Depending on the severity of the disorders, a variety of care and services for the treatment of the children, including medical treatment, medication, surgery and rehabilitation;
 - Coordinated action between various health professionals, services and institutions (hospital centers, local community service centers (CLSC), rehabilitation centers) to ensure medical follow-up of children with cerebral palsy; and
 - Appropriate services at every stage of life of the child.
- In the hope of improving their child's condition, some parents keep looking for a therapeutic option to replace or complement standard treatments.
- There is as yet no regulatory agency or learned hyperbaric medicine society that recognizes the efficacy of HBO in the treatment of cerebral palsy, and not a single public insurance plan in Canada, in the U.S.A. or any other comparable health system reimburses HBO treatment used to treat cerebral palsy.
- With the scientific data currently available (10 published studies), it is not possible to recognize that HBO treatment is effective in improving various aspects of the health condition of a child with cerebral palsy.
- There presently is no robust scientific data to support the efficacy of HBO (or HBA) treatment on children with cerebral palsy. However, the outcomes of interest revealing effects perceived and reported by some stakeholders and user parents are not necessarily the same as those assessed in scientific literature.
- Based on data currently available, it is not possible to rule on the innocuity of HBO to treat children with cerebral palsy.

Main observations
• Although cerebral palsy can have serious repercussions on the quality of life of children concerned and their family, no study assessing the effects of HBO treatment in this regard could be found. • In Quebec, HBA is often used at home to treat children with cerebral palsy. Such equipment consists of a portable soft-shell chamber in which air is lightly pressured, with no additional source of pure oxygen. More data are needed to assess the efficacy and innocuity of this type of intervention (HBA) and its effects on the quality of life of children with cerebral palsy. Regarding soft-shell hyperbaric chambers, Health Canada issued a warning in the fall of 2019 stating that these chambers are not recognized and may pose health risks.
Deliberations of the Comité d'excellence clinique en services de santé
The members of the Comité d'excellence clinique (CEC) in health services deliberated on the scientific, contextual and experiential data at hand in order to decide on the therapeutic value of HBO treatment on children with cerebral palsy. The committee members raised concerns regarding the following: • The limitations and quality of the studies selected; • The magnitude of the effects reported; • The manner in which the results analyzed were measured, in particular because of the tools used, the validity of which in many cases remains to be demonstrated; • The conditions under which the children were observed, which are not detailed and may have some impact on findings; • The child's natural evolution, which is not taken into consideration; and • The ongoing use, on children, of a technology that is not necessarily risk-free. Furthermore, the committee members are puzzled by the fact that there is no solid scientific evidence on the efficacy of HBO and its potential mechanisms of action although the technology has been used on children with cerebral palsy for many years. Based on the above data, the committee members have a common understanding that the available information does not allow them to recognize the therapeutic value of HBO. They also share the opinion that the data available do not allow to recognize a therapeutic value to HBA.
Recommendation of the INESSS
In the light of the scientific, contextual and experiential data gathered and given the lack of evidence of any therapeutic value, the INESSS considers that adding HBO or HBA to the range of public services to treat children with cerebral palsy is not a fair and reasonable option.

SIGLES ET ABRÉVIATIONS

ACMHS/CUHMA	Association canadienne de médecine hyperbare et subaquatique/Canadian Undersea and Hyperbaric Medical Association
AETMIS	Agence d'évaluation des technologies et des modes d'intervention en santé (Québec)
AHB	air légèrement pressurisé
AHRQ	Agency for Healthcare Research and Quality (États-Unis)
APCQ	Association de paralysie cérébrale du Québec
ASPC	Agence de la santé publique du Canada
ATA	atmosphère absolue
AVC	accident vasculaire cérébral
CEC	Comité d'excellence clinique
CETS	Conseil d'évaluation des technologies de la santé (Québec)
CFCS	Communication Function Classification System
CH	centre hospitalier
CIRRIIS	Centre interdisciplinaire de recherche en réadaptation et intégration sociale (Québec)
CISSS	centre intégré de santé et de services sociaux
CIUSSS	centre intégré universitaire de santé et de services sociaux
CLSC	centre local de services communautaires
CPRS-R	Conners' Parent Rating Scale – Revised
CREDIS	Cadre éthique d'intégration des savoirs en santé et services sociaux
CRDI	centres de réadaptation en déficience intellectuelle
CRDP	centre de réadaptation en déficience physique
DI-TSA	déficience intellectuelle – trouble du spectre de l'autisme
DP	déficience physique
ECAA	étude comparative avant-après
ECHM	European Committee for Hyperbaric Medicine
ECR	essai clinique randomisé
EDACS	Eating and Drinking Ability Classification System
ENCAA	étude non comparative avant-après
ETS	évaluation des technologies de la santé
FIM	Functional Independence Measure
g	gramme
GMAE	Gross Motor Ability Estimator
GMFCS	Gross Motor Function Classification System

GMFM	Gross Motor Function Measure
GMFMER	Gross Motor Function Measure Evolution Ratio
GPC	guide de pratique clinique
GRADE	Grading of Recommendations, Assessment, Development and Evaluation
HBA	<i>hyperbaric air</i>
INAHTA	International Network for Health Technology Assessment
INESSS	Institut national d'excellence en santé et en services sociaux (Québec)
IRM	imagerie par résonance magnétique
kPa	kilopascal
LPV	leucomalacie périventriculaire
MACS	Manual Ability Classification System
mmHg	millimètre de mercure
MOOSE	Meta-analyses Of Observational Studies in Epidemiology
MSSS	Ministère de la Santé et des Services sociaux (Québec)
NICE	National Institute for Health and Care Excellence (Royaume-Uni)
OHB	oxygénothérapie hyperbare
OMS	Organisation mondiale de la Santé
ORL	otorhinolaryngologie
PEDI	Paediatric Evaluation of Disability Inventory
PICO	<i>population, intervention, comparison, outcome</i>
PST	Picture Span Test
QI	quotient intellectuel
SDSC	Sleep Disturbance Scale for Children
SPECT	<i>single photon emission computed tomography</i>
TCC	traumatisme cranio-cérébral
TDA	trouble déficitaire de l'attention
TDAH	trouble déficitaire de l'attention avec hyperactivité
TDM	tomodensitométrie
TEMP	tomographie par émission monophotonique
TOVA	Test of Variables of Attention
TSIs	Total Sleep Items
UHMS	Undersea and Hyperbaric Medical Society (États-Unis)
VFCS	Visual Function Classification System
WST	Word Span Test

GLOSSAIRE

AHB (en anglais *hyperbaric air* ou *HBA*)³

Intervention pratiquée dans un caisson hyperbare utilisant de l'air légèrement pressurisé sans augmentation de la fraction inspirée d'oxygène (FiO₂) et où la pression partielle d'oxygène est légèrement augmentée par rapport à celle de l'air ambiant.

Barotraumatisme

Lésion tissulaire provoquée par une variation brusque (augmentation ou diminution) de la pression externe à laquelle un organe contenant des cavités d'air est soumis [Bove, 2017].

Chambre hyperbare (également appelée caisson)

Enceinte étanche dans laquelle une ou plusieurs personnes peuvent recevoir un traitement par inhalation d'oxygène dont la pression est supérieure à la pression atmosphérique⁴.

Fonctionnement cognitif

Qui se rapporte aux processus mentaux de perception, d'apprentissage, de mémoire, de compréhension, de conscience, de raisonnement, de jugement, d'intuition et de langage [American Psychological Association (APA), 2018].

Comorbidité

Atteinte concomitante à un problème de santé pré-existant⁵.

Essai clinique randomisé

Étude expérimentale dans laquelle une intervention est comparée à une autre intervention (p. ex : un placebo, une absence d'intervention) et dont les participants sont aléatoirement répartis entre les groupes d'intervention et témoins afin d'obtenir une répartition homogène des individus et une comparabilité initiale entre les groupes [Last, 2004].

Étude avant-après

Étude épidémiologique dans laquelle des observations sont faites avant et après une intervention (ou une exposition à un facteur donné) dans un groupe qui reçoit l'intervention et parfois aussi dans un groupe témoin (sans intervention) [ASPC, 2014].

³ Définition de l'INESSS aux fins du présent avis.

⁴ COST Action B14 Working Group. A European code of good practice for hyperbaric oxygen therapy. 2004. Disponible à : <http://www.echm.org/documents/ECGP%20for%20HBO%20-%20May%202004.pdf> (traduction libre).

⁵ HeTOP – CisMeF. Comorbidité (Descripteur MeSH) [site Web]. Disponible à : https://www.hetop.eu/hetop/#rr=MSH_D_015897&q=comorbidit%C3%A9 (consulté le 5 décembre 2019; traduction libre).

Facteur de risque

Attribut, caractéristique ou exposition d'une personne qui augmente la probabilité de développer une maladie ou de souffrir d'un traumatisme⁶.

Fraction inspirée d'O₂ (FiO₂)

Concentration d'oxygène dans l'air inspiré par une personne [Guay *et al.*, 2012].

Hémoglobine

Protéine qui se retrouve dans les globules rouges, contenant principalement du fer et ayant pour fonction de transporter l'oxygène dans l'organisme⁷.

Hypoxie

Qui se rapporte à une quantité insuffisante d'oxygène disponible dans les tissus de l'organisme, souvent engendrée par une diminution d'oxygène dans le sang [Brooker, 2000].

Innocuité

Caractérise la qualité d'un traitement, ou d'un médicament qui n'est pas nuisible, qui ne provoque aucun effet néfaste sur l'individu [Marroun *et al.*, 2018].

Méta-analyse

Méthode statistique consistant à combiner de façon systématique les résultats de différentes études pour obtenir une estimation quantitative de l'effet global d'une intervention ou d'une variable particulière [Last, 2004].

Oxygénothérapie hyperbare (OHB)

Technique qui permet d'administrer de l'oxygène pur ou un mélange de gaz suroxygéné à des personnes à l'intérieur d'une chambre pressurisée (pression supérieure à la pression atmosphérique) pour suppléer l'apport insuffisant d'oxygène aux tissus en cas d'hypoxie et/ou d'utiliser les effets cellulaires et tissulaires des pressions élevées d'oxygène [Mathieu, 2002].

Placébo

Procédé (ou substance) inactif qui est administré à une personne, généralement pour comparer ses effets à ceux d'une autre substance (ou intervention) reconnue efficace, et qui peut permettre à la personne croyant recevoir un traitement de ressentir des effets psychologiques positifs⁸.

⁶ Organisation mondiale de la Santé (OMS). Facteurs de risque [site Web]. Disponible à : https://www.who.int/topics/risk_factors/fr/ (consulté le 21 novembre 2019).

⁷ Medline Plus. Hémoglobine [site Web]. Disponible à : <https://medlineplus.gov/ency/article/003645.htm> (consulté le 28 novembre 2019; traduction libre).

⁸ Cochrane Community — Glossary [site Web]. Disponible à : <https://community.cochrane.org/glossary#letter-P> (consulté le 28 novembre 2019; traduction libre).

Plasma sanguin

Partie liquide du sang composée d'eau et d'autres composants, notamment des protéines⁹.

Pneumothorax

Présence d'air ou de gaz dans la cavité pleurale (entre les poumons et la cage thoracique), survenant spontanément à la suite d'une maladie ou d'une blessure pulmonaire¹⁰.

Pression partielle d'O₂

Pression exercée par l'oxygène dans le mélange gazeux dans lequel il est présent¹¹.

Prévalence

Nombre de cas d'une maladie ou d'un trouble de santé dans une population donnée, à un moment donné [Last, 2004].

Radicellectomie sensitive partielle ou rhizotomie dorsale sélective

Intervention chirurgicale qui consiste à sectionner les nerfs qui contribuent à la spasticité des membres inférieurs chez les enfants avec une paralysie cérébrale. Elle vise généralement l'amélioration de la marche [Letellier *et al.*, 2013].

Revue systématique

Approche méthodologique rigoureuse qui permet de repérer, d'évaluer et de synthétiser les preuves scientifiques pour répondre à une question de recherche par des méthodes objectives de recherche documentaire, par l'application de critères prédéterminés d'inclusion ou d'exclusion des articles, par l'évaluation critique des publications pertinentes ainsi que par l'extraction et la synthèse des données probantes qui permettent de formuler des conclusions¹².

Spasticité

État caractérisé par une hypertonie des muscles¹³.

Traitement simulé (en anglais *sham treatment*)

Intervention effectuée auprès d'un groupe de personnes, qui diffère de l'intervention réellement examinée dans un essai clinique comparatif mais produit tout de même des effets chez les personnes qui y sont soumises [Sutherland, 2007].

⁹ Merriam-Webster Dictionary. Blood plasma [site Web]. Disponible à : <https://www.merriam-webster.com/dictionary/blood%20plasma> (consulté le 5 décembre 2019; traduction libre).

¹⁰ Merriam-Webster Dictionary. Pneumothorax [site Web]. Disponible à : <https://www.merriam-webster.com/dictionary/pneumothorax> (consulté le 5 décembre 2019; traduction libre).

¹¹ Merriam-Webster Dictionary [site Web]. Disponible à : <https://www.merriam-webster.com/dictionary/partial%20pressure> (consulté le 5 décembre 2019; traduction libre).

¹² Institut national d'excellence en santé et en services sociaux (INESSS). Glossaire en ETS [site Web]. Disponible à : <http://htaglossary.net/Accueil> (consulté le 28 novembre 2019).

¹³ Merriam-Webster Dictionary. Spastic [site Web]. Disponible à : <https://www.merriam-webster.com/dictionary/spastic> (consulté le 5 décembre 2019; traduction libre).

1. MANDAT

Le ministère de la Santé et des Services sociaux (MSSS) a mandaté l'Institut national d'excellence en santé et en services sociaux (INESSS) pour procéder à la mise à jour de l'avis réalisé par l'Agence d'évaluation des technologies et des modes d'intervention en santé (AETMIS) en 2007, intitulé *Place de l'oxygénothérapie hyperbare dans la prise en charge de la paralysie cérébrale*. Cet avis était une mise à jour du rapport du Conseil d'évaluation des technologies de la santé (CETS) sur l'efficacité de l'oxygénothérapie hyperbare (OHB) pour traiter la paralysie cérébrale. Considérant le peu de littérature scientifique publiée depuis la production de cet avis et pour avoir un point de vue global des données probantes disponibles, il a été convenu que l'ensemble des études publiées au moment de produire l'actuelle mise à jour serait considéré pour mener à bien ce mandat.

L'objectif du présent avis est d'évaluer la valeur thérapeutique de l'OHB pour traiter les enfants avec une paralysie cérébrale, afin d'éclairer une prise de décision quant à l'ajout de cette technologie à la gamme de services publics. Outre la littérature scientifique, la perspective des parents d'enfants et de jeunes adultes vivant avec une paralysie cérébrale sur différents aspects de leur expérience a été examinée. La perspective de diverses parties prenantes, soit des professionnels de centres de réadaptation en déficience physique (CRDP) et des spécialistes en médecine (hyperbare et autres), a également été prise en compte.

2. DÉMARCHE D'ÉVALUATION

Pour remplir le mandat confié par le MSSS, une revue de la littérature scientifique sur le sujet et des consultations auprès de parties prenantes et de parents d'enfants et de jeunes adultes vivant avec une paralysie cérébrale ont été effectuées.

2.1. Question décisionnelle

Quelle est la valeur thérapeutique de l'OHB pour traiter les enfants avec une paralysie cérébrale?

2.2. Questions clés d'évaluation

1. Quelle est l'efficacité de l'OHB pour améliorer les fonctions cognitives, motrices, sensorielles et les autres variables cliniques des enfants avec une paralysie cérébrale?
2. Quelle est l'innocuité de l'OHB chez les enfants avec une paralysie cérébrale?
3. Quels sont les effets de l'OHB sur la qualité de vie des enfants et de leurs parents et/ou des proches aidants?

Si une valeur thérapeutique était reconnue à l'OHB, les volets organisationnel et économique seraient examinés.

2.3. Types de revue de la littérature et de synthèse

Pour répondre aux trois questions d'évaluation, une revue systématique de la littérature scientifique publiée jusqu'en 2019 a été réalisée. Une recherche de la littérature grise, soit les guides de pratique clinique (GPC) et les rapports d'évaluation des technologies (ETS), a aussi été réalisée. Pour mieux comprendre l'offre et l'expérience de soins et de services ainsi que les besoins des enfants et des parents concernés qui ne sont pas comblés, des consultations ont été effectuées.

2.4. Données issues de la littérature

2.4.1. Stratégie de repérage d'information scientifique

La stratégie de recherche de l'information a été élaborée en collaboration avec un spécialiste en information scientifique. Ainsi, deux séries étendues de mots clés (différentes terminologies), l'une en lien avec l'OHB et l'autre, avec la paralysie cérébrale, ont été utilisées (voir l'annexe A). Les bases de données suivantes ont été interrogées : PubMed (NLM), Evidence-Based Medicine Reviews (EBMR, Ovid), Embase (Ovid), PsycINFO (Ovid) et CINAHL (EBSCO). Une revue de la littérature grise a également été réalisée par les professionnelles attitrées au projet (SL, CC et MF) dans

les sites Web d'organismes gouvernementaux, les sites des principales agences d'ETS ainsi que sur les sites Web des organismes pertinents en ce qui a trait aux GPC. Les registres ClinicalTrials.gov et International Clinical Trials Registry Platform Search Portal (Organisation mondiale de la Santé [OMS]) ont aussi été consultés afin de repérer des essais cliniques en cours, le cas échéant. Les listes de références des articles clés ont également été consultées afin de répertorier d'autres documents pertinents. Les moteurs de recherche Google et Google Scholar ont été utilisés pour repérer toute publication appropriée qui ne l'aurait pas été et toute autre publication jugée nécessaire.

2.4.2. Critères de sélection des documents

Les critères d'inclusion et d'exclusion utilisés pour circonscrire la recherche documentaire portant sur l'efficacité, l'innocuité et la qualité de vie (Q1 à Q3) sont tirés du modèle PICO, à savoir la population (P), le type d'intervention (I), le comparateur (C) et les résultats d'intérêts (O : en anglais *outcomes*), et présentés dans l'annexe B.

2.4.3. Sélection des études, extraction des données et évaluation de la qualité des données de la littérature

La sélection des études a été effectuée de façon indépendante par trois professionnelles (SL, CC et MF) selon les critères de sélection définis. Un premier tri des études repérées a été effectué à partir des titres et des résumés, alors qu'un second tri des études restantes a été réalisé à la lecture complète des documents. Le processus de sélection des études est présenté sous forme de diagramme de flux dans l'annexe C. Les raisons d'exclusion des études qui n'ont pas été retenues lors du second tri sont documentées dans l'annexe D. L'évaluation de la qualité des études retenues a été effectuée de façon indépendante par trois professionnelles (SL, CC et MF) à l'aide de l'outil Quality Assessment Tool for Quantitative Studies élaboré dans le cadre du projet Effective Public Health Practice Project de l'Université McMaster (Ontario, Canada) concernant les études comparatives avant-après (ECAA) et de l'Outil d'évaluation critique de l'Agence de la santé publique du Canada (ASPC) pour une étude analytique concernant les essais cliniques randomisés (ECR) (voir l'annexe E). L'extraction des données a été effectuée par une professionnelle (SL) à l'aide d'une grille préétablie et validée par deux autres professionnelles (CC et MF). Des tableaux de synthèse des données, élaborés à partir des grilles d'extraction, sont présentés dans l'annexe F.

Certaines publications portant sur l'OHB ou la paralysie cérébrale qui ne répondaient pas aux critères de sélection ont tout de même été retenues pour mettre en contexte le sujet d'étude et l'atteinte examinée (voir les chapitres 3 et 4). Toutefois, la qualité méthodologique de ces études n'a pas été évaluée.

2.4.4. Élaboration d'une méta-analyse

Une méta-analyse des ECR pouvant être considérés a été réalisée pour évaluer l'effet potentiel du traitement d'OHB sur la motricité, le développement des compétences fonctionnelles ainsi que l'attention chez les enfants avec une paralysie cérébrale. En seconde analyse, l'exercice a été fait en incluant les ECAA; les résultats sont présentés dans l'annexe G. Les résultats d'intérêt retenus sont la motricité globale, évaluée à l'aide

des outils GMFM (Gross Motor Function Measure) 88 et 66, les compétences fonctionnelles ayant trait aux soins personnels, à la mobilité et au fonctionnement social évaluées à l'aide du PEDI (Paediatric Evaluation of Disability Inventory) et l'attention visuelle (réponses correctes et incorrectes), évaluée à l'aide du test TOVA (Test of Variables of Attention). Les études incluses dans la méta-analyse devaient être comparables; le groupe expérimental devait avoir reçu un traitement constitué d'oxygène à une concentration de près de 100 % à une pression supérieure à la pression atmosphérique normale. Les études ayant fait appel à un groupe témoin ont été incluses si les sujets du groupe avaient reçu de l'air légèrement pressurisé, sans augmentation de la fraction inspirée d'oxygène (FiO₂), suivaient un traitement de réadaptation ou ne recevaient aucun traitement. Les enfants devaient avoir moins de 18 ans et toutes les définitions de paralysie cérébrale étaient acceptées. Les études fournissant des données comparables d'un point de vue statistique ont été combinées et incluses dans la méta-analyse. Lorsque des données étaient manquantes, les auteurs des études étaient contactés. La qualité de la méta-analyse a été validée à l'aide de l'outil MOOSE (Meta-analyses of Observational Studies in Epidemiology), présenté dans l'annexe G [Stroup *et al.*, 2000].

2.4.4.1. Analyses statistiques

La combinaison statistique a été réalisée en évaluant 1) l'écart entre les cotes moyennes avant et après l'intervention d'OHB et 2) la double différence (*differences in difference*) des cotes moyennes, avant et après, du groupe expérimental (OHB) comparé à un groupe témoin. Les résultats sont présentés selon les moyennes de la cote, plus ou moins l'écart type, et les résultats globaux, selon une moyenne de la cote et des intervalles de confiance à 95 %. Une valeur de p inférieure à 0,05 était considérée statistiquement significative. Pour considérer la variabilité, les analyses ont été réalisées à l'aide de la méthode à effet aléatoire de DerSimonian et Laird [1986]. L'hétérogénéité a été calculée à l'aide de l' I^2 de Higgins et considérée comme importante lorsque la valeur était supérieure à 50 % [Higgins *et al.*, 2002]. Des analyses de sensibilité ont été réalisées pour comparer le devis des études et la qualité; une valeur de p inférieure à 0,05 était considérée comme statistiquement significative. Un graphique en entonnoir a été utilisé pour évaluer la présence de biais de publication. Des graphiques en forêt ont été réalisés pour donner une représentation visuelle des résultats combinés. Les analyses ont été réalisées à l'aide du logiciel Review Manager, version 5.3 (Cochrane Collaboration, Oxford, Royaume-Uni).

2.4.5. Processus d'évaluation de la preuve

Pour évaluer la qualité de la preuve scientifique découlant de l'analyse des données de la littérature et la valeur de l'ensemble de la preuve, une approche inspirée de celle proposée par le groupe de travail GRADE (Grading of Recommendations Assessment, Development and Evaluation) [Guyatt *et al.*, 2011] a été utilisée; les résultats sont présentés dans l'annexe H. Les auteurs ont été contactés pour obtenir des résultats ou des renseignements additionnels, lorsque ceux-ci étaient jugés nécessaires.

2.5. Données contextuelles et expérientielles

Des consultations ont été réalisées auprès de parties prenantes, de parents d'enfants avec une paralysie cérébrale et de jeunes adultes qui en sont également atteints pour rassembler de l'information contextuelle et expérientielle sur la paralysie cérébrale (voir le chapitre 3), les soins et les services offerts par le réseau de la santé et des services sociaux québécois et reçus par ces usagers (voir le chapitre 3), ainsi que l'offre de traitements par OHB et le recours à ces traitements (ou à une intervention en caisson hyperbare où l'air est légèrement pressurisé [AHB]) (voir le chapitre 4). L'approche qualitative est présentée en détail dans l'annexe I.

2.5.1. Consultations de parties prenantes

Des entretiens de groupe avec des représentants de diverses parties prenantes ont été organisés avec les objectifs de consultation suivants :

- Regroupement de parents pour l'oxygénothérapie hyperbare¹⁴ (quatre parents d'enfants avec une paralysie cérébrale et cofondateurs du groupe)¹⁵ :
Connaître leur expérience des soins et des services actuellement disponibles au Québec et destinés aux enfants avec une paralysie cérébrale, leurs besoins qui ne sont pas comblés et leur expérience de l'OHB.
- Professionnels en CRDP de diverses régions du Québec (trois physiothérapeutes, une coordonnatrice physiothérapeute, deux ergothérapeutes, une psychologue et une directrice intérimaire des programmes sociaux)¹⁶ :
Connaître les soins et les services actuellement offerts au Québec aux enfants avec une paralysie cérébrale, la disponibilité de ces soins et de ces services, les préoccupations associées à cette offre et les besoins qui ne sont pas comblés.
- Responsables de centres de médecine hyperbare en établissement public au Québec (deux infirmières et un médecin spécialisé en médecine hyperbare)¹⁷ :
Connaître la clientèle desservie actuellement, le fonctionnement de ces centres, les services offerts, les risques généraux associés à l'OHB et les coûts estimés de cette offre de services.

¹⁴ Paralysie cérébrale : intervention précoce et traitement hyperbare : Ce regroupement de parents désire que l'OHB soit reconnue comme un traitement ayant fait ses preuves, sur le plan de l'efficacité, chez les enfants avec une paralysie cérébrale et ainsi le rendre accessible à ces enfants.

¹⁵ La perspective des représentants de ce groupe est présentée sous l'intitulé « représentants de parents d'enfants avec une paralysie cérébrale ».

¹⁶ La perspective des représentants de ce groupe est présentée sous l'intitulé « professionnels de la santé ».

¹⁷ La perspective des représentants de ce groupe est présentée sous l'intitulé « professionnels de la santé ».

- Responsables de cliniques privées offrant l'OHB au Québec (cinq représentants; l'une des cliniques offre des traitements d'OHB et l'autre loue ou vend des caissons hyperbares pour un usage à domicile)¹⁸ :

Connaître la clientèle desservie actuellement, les services offerts et les coûts estimés de cette offre de service.

- Association de paralysie cérébrale du Québec (APCQ)¹⁹ (un président, un vice-président et un autre membre du conseil d'administration)²⁰ :

Connaître les problèmes auxquels est confrontée la clientèle vivant avec une paralysie cérébrale au Québec, ses besoins qui ne sont pas comblés et les services offerts par l'Association.

Des guides d'entretien spécifiques ont été élaborés en vue de chacune de ces rencontres, en fonction des objectifs visés (voir un exemple dans l'annexe J). Tous les entretiens de groupe ont été enregistrés, avec l'accord des participants, ce qui a permis de capter l'ensemble des propos et de faciliter la transcription des échanges. Chacun des participants a signé un formulaire de consentement de participation aux consultations.

2.5.2. Consultations individuelles avec des parents d'un enfant avec une paralysie cérébrale et avec un jeune adulte atteint

Des entrevues semi-dirigées ont été effectuées, par voie téléphonique ou en présentiel, ayant pour objectif de mieux comprendre l'expérience des parents et des jeunes adultes concernant les soins et les services offerts pour la prise en charge de la paralysie cérébrale dans le réseau et, s'il y a lieu, l'OHB, ainsi que les besoins non comblés.

Plusieurs modes de recrutement ont été utilisés, soit par l'intermédiaire du site Web de l'INESSS (du 3 janvier au 30 avril 2019), de la page Web de l'APCQ et par l'intermédiaire des experts et des professionnels des CRDP consultés relativement au présent avis. Un questionnaire de présélection accessible en ligne par la plateforme Web Survey Monkey a été rempli par l'ensemble des personnes intéressées à participer à la consultation. Des 40 personnes qui ont répondu à l'appel²¹, 15 ont été sélectionnées en fonction de leur provenance géographique, du profil clinique et sociodémographique de leur enfant, de leurs connaissances sur l'OHB et de leur recours (ou non) à l'OHB, simultanément (ou

¹⁸ La perspective des représentants de ce groupe est présentée sous l'intitulé « représentants des cliniques privées ».

¹⁹ Association de paralysie cérébrale du Québec : organisme sans but lucratif qui a pour objectifs de voir à la défense et à la promotion des droits des personnes vivant avec une paralysie cérébrale ou d'une autre déficience motrice, et à améliorer les conditions de vie et l'intégration sociale de ces personnes (<https://paralysiecerebrale.com/about-us/notre-mission/>).

²⁰ La perspective de ce groupe est présentée sous l'intitulé « représentants de parents d'enfants avec une paralysie cérébrale ».

²¹ Les personnes intéressées à participer au projet devaient avoir un enfant avec une paralysie cérébrale ou être le proche aidant d'un enfant avec une paralysie cérébrale ou avoir une paralysie cérébrale, et être âgées de 18 ans et plus.

non) avec d'autres approches thérapeutiques usuelles²². Ces personnes ont été jointes par courriel par l'équipe de projet afin de confirmer leur intérêt à participer à la consultation et de les informer des étapes en préparation à l'entrevue. Un court questionnaire a été envoyé à celles toujours intéressées à participer afin de recueillir quelques renseignements de base sur leur situation familiale, scolaire et professionnelle, le profil clinique de leur enfant vivant avec une paralysie cérébrale, leur implication dans le processus de soins de leur enfant, le soutien social et financier obtenu, les professionnels consultés et les types d'installations visitées pour la prise en charge de leur enfant. Le questionnaire devait être rempli à la maison par les participants dont la date d'entretien était confirmée et être retourné à l'équipe de projet au moins deux jours avant la date prévue d'entretien. Un guide d'entretien a été utilisé pour conduire les entrevues, portant sur : 1) l'expérience des soins et des services de santé; 2) les besoins qui ne sont pas comblés; et 3) la connaissance de l'OHB et l'expérience personnelle du recours à l'OHB, le cas échéant (voir l'annexe J).

Des entretiens individuels ont été menés auprès de 9 parents²³ d'un enfant avec une paralysie cérébrale et de 1 jeune adulte atteint (≈ 18 à 35 ans)²⁴ issus de plusieurs régions du Québec (Montréal, Québec, Estrie, Chaudière-Appalaches, Bas-Saint-Laurent et Gatineau). Tous les entretiens ont été enregistrés, avec l'accord des participants, ce qui a permis de capter l'ensemble des propos et facilité la transcription des échanges. Chacun des participants sélectionné et intéressé à participer à un entretien individuel a signé un formulaire de consentement.

2.5.3. Analyse des données issues des entretiens individuels et de groupe

Le contenu de l'ensemble des entretiens individuels et de groupe a été transcrit par un service professionnel de transcription, et complété par les professionnelles scientifiques attitrées au projet (CC et MF). L'analyse de l'ensemble des transcriptions a ensuite été réalisée séparément à l'aide du logiciel Nvivo12, permettant de dégager et de confirmer les principaux thèmes du contenu qualitatif et de faire ressortir, par une approche consensuelle, les principales perspectives concordantes et divergentes des participants entre les deux types d'entretien (voir l'annexe I). Lorsque des citations ou des phrases verbatim étaient jugées pertinentes, par concertation entre les professionnelles scientifiques (CC et MF), elles ont été retenues pour illustrer les propos [Paillé et Mucchielli, 2016].

²² Au total, à l'exclusion des questions sociodémographiques, 10 questions en lien avec la paralysie cérébrale et l'OHB ont été posées. Certaines questions étaient de nature dichotomique (oui ou non), d'autres, de nature nominale ou catégorielle (échelle de Likert à cinq points allant de « très en accord » à « très en désaccord »). Certaines questions ont laissé place aux commentaires des parents. Ce préquestionnaire a guidé le recrutement de parents de manière à obtenir un échantillon le plus diversifié possible quant à leur expérience des soins et à leur utilisation ou à leur perception de l'OHB.

²³ Aucun proche aidant n'a répondu à l'offre de participation.

²⁴ Un seul jeune adulte avec une paralysie cérébrale a pu être recruté pour participer à la consultation individuelle. Comme les questionnaires d'entretien avec des parents et de jeunes adultes étaient très similaires, les données issues de l'entretien avec le jeune adulte sont regroupées dans les sections où la perspective des parents est rapportée.

2.6. Comités et processus de validation scientifique

2.6.1. Comité consultatif

Un comité consultatif interdisciplinaire réunissant divers experts (cliniciens et chercheurs) a été formé pour accompagner l'équipe de projet de l'INESSS à différentes étapes de la production scientifique. Sa composition est présentée dans les pages liminaires du présent document. Le mandat principal du comité consultatif était de soutenir l'équipe de projet, notamment dans l'évaluation et l'interprétation des données de la littérature scientifique, et de fournir des informations contextuelles et expérientielles utiles à la réalisation des travaux. Le comité s'est réuni trois fois et a été contacté par voie électronique à quelques reprises. Les trois rencontres ont été enregistrées sur un support audio, avec l'accord préalable des participants, ce qui a permis de capter l'ensemble des discussions et de contre-valider les propos, au besoin. Certains membres du comité ont également été contactés individuellement par voie téléphonique pour répondre à des besoins précis d'information.

2.6.2. Comité d'excellence clinique en services de santé

Le Comité d'excellence clinique (CEC) en services de santé de l'INESSS est composé de leaders cliniques et scientifiques, de gestionnaires, de citoyens, d'économistes de la santé et d'éthiciens. Le rôle de ce comité permanent de l'INESSS est d'assurer la justesse des recommandations ainsi que la rigueur scientifique et l'acceptabilité professionnelle et sociale des productions. Ce comité a été rencontré à deux reprises, soit au début du projet puis durant le processus de délibération ayant mené à l'élaboration des recommandations présentées dans le présent avis.

2.6.3. Lecteurs externes

Un spécialiste de l'OHB et un spécialiste de la paralysie cérébrale ont été invités à lire et à commenter l'avis avant le processus de délibération du CEC en services de santé.

2.7. Analyse et synthèse des données et processus de formulation des recommandations

La preuve scientifique extraite des études retenues a été résumée sous forme de tableaux et d'une synthèse narrative. Les données issues des consultations ont été analysées, présentées sous forme de synthèse narrative et appuyées par des phrases verbatim, au besoin. L'ensemble des données collectées a été regroupé dans une grille multicritère réflexive (CREDIS – Cadre éthique d'intégration des savoirs en santé et services sociaux), qui a soutenu la délibération pour évaluer la valeur thérapeutique de l'OHB pour traiter les enfants avec une paralysie cérébrale au Québec.

À la lumière de l'ensemble de la preuve, des constats sont ressortis, lesquels ont donné lieu à des propositions de recommandations. Le tout a été soumis, par étapes, aux experts du comité consultatif. L'ensemble des données collectées par l'équipe de projet ainsi que les recommandations préliminaires ont également été soumises au CEC en services de santé pour la délibération en vue de l'élaboration des recommandations finales.

2.8. Gestion des conflits d'intérêts

La prévention, la déclaration et la gestion des conflits d'intérêts et de rôles dans le présent projet suivent différentes règles, en accord avec les codes d'éthique applicables, pour assurer l'intégrité des travaux d'évaluation menés et des recommandations formulées, et ainsi préserver la confiance du public envers l'INESSS, ses membres et ses collaborateurs.

- Toute personne appelée à collaborer aux travaux relatifs à ce projet (experts, représentants des parties prenantes consultés, lecteurs externes) a déclaré les intérêts personnels qui la placent dans une situation susceptible de représenter un conflit d'intérêts, que ces intérêts soient commerciaux, financiers, professionnels, relationnels ou de toute autre nature. Elle a également déclaré les différentes activités professionnelles ou les rôles qui la placent dans une situation susceptible de représenter un conflit de rôles.
- Les déclarations rédigées par les collaborateurs au projet ont fait l'objet d'une évaluation par la Direction des services de santé et de l'évaluation des technologies de l'INESSS. Les critères pris en considération sont notamment la nature du conflit, la personne concernée par le conflit, le statut temporel, les conséquences potentielles et la perception par l'évaluateur externe. L'évaluation de ces critères a permis de déterminer les mesures à appliquer, notamment des rencontres individuelles avec certains collaborateurs potentiels. De plus, des mesures ont été prises pour s'assurer d'une diversification des perspectives dans les différents groupes consultés (comité consultatif, parties prenantes et lecteurs externes). Enfin, les experts du comité consultatif ont été invités à mettre à jour leur déclaration de conflits d'intérêts et de rôles au début de chacune des rencontres tenues.
- Les délibérations en vue de formuler des recommandations ont été structurées à l'aide de processus et de critères clairs, bien définis et transparents, qui ont permis de traduire les positions prises par leurs membres.

3. PARALYSIE CÉRÉBRALE ET BESOINS DE SANTÉ

La paralysie cérébrale – aussi nommée déficit moteur cérébral²⁵ ou infirmité motrice cérébrale²⁶ – est la principale cause d'incapacité physique et de retard de développement²⁷ chez les enfants [Graham *et al.*, 2016]. Elle a des conséquences majeures sur la qualité de vie des jeunes enfants qui en sont atteints ainsi que sur leur famille, en plus des coûts sociaux importants en soins médicaux et en services de réadaptation et d'éducation qui y sont associés [Guyard *et al.*, 2011].

Une revue systématique récente regroupant 49 études [Oskoui *et al.*, 2013a] estime la prévalence globale mondiale à 2,11 pour 1000 naissances vivantes. La prévalence de la paralysie cérébrale est d'environ 2 enfants pour 1000 naissances vivantes en Europe [Sellier *et al.*, 2016] et de 3 à 4 enfants pour 1000 naissances vivantes aux États-Unis [Van Naarden Braun *et al.*, 2016]. Par contre, on ne connaît pas encore avec précision le nombre d'enfants avec une paralysie cérébrale au Canada et, plus précisément, au Québec. Toutefois, en 2010, la prévalence de la paralysie cérébrale dans 6 régions sociosanitaires de la province (Capitale-Nationale, Estrie, Montréal, Outaouais, Lanaudière et Laurentides) a été estimée à 2,3 pour 1000 enfants âgés de 9 à 11 ans [Oskoui *et al.*, 2013b].

3.1. Définition et comorbidité

La paralysie cérébrale regroupe un ensemble de troubles permanents du développement des mouvements et de la posture résultant d'atteintes cérébrales non progressives au motoneurone supérieur, survenus lors du développement du cerveau chez le fœtus ou le nourrisson, lésions qui causent des limitations d'activité [Shepherd *et al.*, 2018; Harch, 2017a; Shepherd *et al.*, 2017; Kurt, 2016; McIntyre *et al.*, 2013; Rosenbaum *et al.*, 2007]. En raison du caractère généralement diffus des lésions cérébrales, les déficits moteurs de la paralysie cérébrale chez les enfants peuvent s'accompagner de divers troubles et déficiences : déficience intellectuelle, troubles cognitifs (p. ex : troubles du développement du langage et de la communication), trouble développemental de la coordination, troubles de la perception, trouble d'apprentissage, dont le trouble du déficit de l'attention, avec ou sans hyperactivité (TDAH ou TDA), et déficiences sensorielles (visuelle, auditive). La paralysie cérébrale peut aussi être associée à des troubles épileptiques, des problèmes musculosquelettiques secondaires, des troubles de la fonction oromotrice, (mastication, déglutition, salivation), des troubles gastro-intestinaux (p. ex : du reflux gastrique), des troubles pulmonaires, et des troubles du sommeil [Novak

²⁵ CHU Sainte-Justine. Déficit moteur cérébral [site Web]. Disponible à : <https://www.chusj.org/fr/soins-services/D/Deficit-moteur-cerebral> (consulté le 25 juillet 2019).

²⁶ APF France handicap. La paralysie cérébrale (ou infirmité motrice cérébrale) [site Web]. Disponible à : <https://www.apf-francehandicap.org/IMC-infirmité-motrice-cerebrale-1549> (consulté le 25 juillet 2019).

²⁷ Le registre canadien de la paralysie cérébrale [site Web]. Disponible à : <https://www.registrepc.ca/a-propos-de-nous> (consulté le 28 novembre 2019).

et al., 2012; Pruitt et Tsai, 2009; Rosenbaum *et al.*, 2007; Bax *et al.*, 2005]. Cette définition met en évidence la complexité de la paralysie cérébrale et le fait qu'il ne s'agit pas que d'un trouble isolé, mais plutôt d'un ensemble de troubles de causes diverses.

3.2. Étiologie

Les causes de la paralysie cérébrale sont multiples et le plus souvent difficiles à établir. Les facteurs de risque peuvent se manifester à différents stades du développement du cerveau durant la période prénatale (avant l'accouchement, y compris la période préconceptionnelle), la période périnatale²⁸ (durant l'accouchement) et la période postnatale (après la naissance et la première année de vie), modifiant sa maturation et conduisant à des séquelles développementales de paralysie cérébrale, notamment une lésion de la substance blanche (leucomalacie périventriculaire ou LPV) [Michael-Asalu *et al.*, 2019; Shepherd *et al.*, 2018; Harch, 2017a; Shepherd *et al.*, 2017; Kurt, 2016; McIntyre *et al.*, 2013], une hémorragie de la matrice germinale accompagnée d'une extension intraventriculaire, et une lésion du cortex, des ganglions de la base et du thalamus [Folkerth, 2005]. Mentionnons qu'une proportion plus élevée de cas (75 %) surviennent durant de la période prénatale [Reddihough, 2011].

Des facteurs tels qu'une asphyxie à la naissance, un accident vasculaire cérébral (AVC) ou une infection du cerveau en développement ont longtemps été considérés comme les principales causes de la paralysie cérébrale. Cependant, certaines études indiquent que l'asphyxie à la naissance n'explique que de 10 % à 15 % des cas d'encéphalopathie néonatale [Graham *et al.*, 2016; Ellenberg et Nelson, 2013; Nelson et Ellenberg, 1986]. De plus, plusieurs éléments soutiennent l'hypothèse selon laquelle de multiples facteurs génétiques peuvent contribuer à l'émergence d'une paralysie cérébrale congénitale [Oskoui *et al.*, 2015].

Parmi l'ensemble des facteurs de risque possibles, la prématurité et le faible poids à la naissance sont ceux qui conduisent à une plus grande incidence de paralysie cérébrale, parce qu'ils entraînent un risque plus élevé de lésions cérébrales aiguës [Himpens *et al.*, 2008; Platt *et al.*, 2007]. Il a été rapporté qu'effectivement, la prévalence de la paralysie cérébrale est 28 fois plus élevée chez les nouveau-nés de très faible poids (1 000 g à 1 499 g) que dans la population en général. De plus, la prévalence de la paralysie cérébrale augmente de 58 à 82 pour 1000 naissances vivantes chez les nouveau-nés de 28 semaines d'âge gestationnel [Oskoui *et al.*, 2013a].

3.3. Diagnostic de la paralysie cérébrale

La paralysie cérébrale est un état (une anomalie, un trouble ou un ensemble de troubles) et non une maladie. Chaque personne qui en est atteinte présente un profil clinique et un degré d'atteinte différents.

²⁸ Selon l'OMS, la période périnatale est la période qui commence 22 semaines (154 jours) après le début de la gestation (c'est-à-dire au moment où le poids de naissance est normalement de 500 grammes) et se termine 7 jours révolus après la naissance [WHO, 2004].

Aucun test diagnostique spécifique n'est disponible actuellement. Le diagnostic, qui prend plusieurs mois, repose sur des observations et des investigations tenant compte des antécédents médicaux, personnels et familiaux de l'enfant, des observations des parents, de la présence de signes neuromoteurs, du degré d'atteinte et des causes possibles ainsi que de la présence de problèmes associés [O'Shea, 2008].

Les outils diagnostiques les plus utilisés sont l'imagerie par résonance magnétique (IRM), par ultrasons ou par tomodensitométrie (TDM), qui permettent de mettre en évidence une lésion ou une anomalie du cerveau ou d'exclure la possibilité d'une maladie neurologique progressive [Graham *et al.*, 2016]. Des tests génétiques et métaboliques peuvent aussi être envisagés dans certaines situations [Ashwal *et al.*, 2004].

Peu de nourrissons présentent une incapacité évidente à la naissance et les atteintes motrices associées à la paralysie cérébrale deviennent généralement apparentes dans les 18 premiers mois de vie, à la lumière des grandes étapes du développement de l'enfant [Bax *et al.*, 2005]. Généralement, le diagnostic médical est posé avant l'âge de deux ans, mais il peut maintenant être établi avant un âge corrigé²⁹ de six mois, notamment grâce à des avancées dans les techniques d'imagerie et les outils d'évaluation des atteintes.

3.4. Mesures des atteintes et classification

Les divers troubles associés à la paralysie cérébrale varient selon la nature, l'étendue et l'emplacement des lésions au cerveau. Pour faciliter la description des différents profils cliniques possibles, des systèmes de classification ont été élaborés.

Les principaux systèmes actuellement utilisés sont complémentaires. Le tableau clinique est souvent défini à l'aide de deux classifications, l'une topographique et l'autre neurophysiologique symptomatique [O'Shea, 2008]. La première est établie en fonction des membres atteints et est largement utilisée. Les catégories les plus fréquentes sont la diplégie, l'hémiplégie et la quadriplégie (voir le tableau 1). La deuxième classification catégorise les enfants selon l'anormalité motrice prédominante et comprend trois formes classiques : spastique, dyskinétique et ataxique (voir le tableau 2) [Amiel-Tison et Gosselin, 2010].

²⁹ Âge obtenu par la soustraction du nombre de semaines de prématurité de l'âge calculé à partir de la date de naissance de l'enfant. CHU Sainte-Justine. Âge corrigé des prématurés [site Web]. Disponible à : <https://www.chusj.org/fr/soins-services/P/Prematures/Age-corrige> (consulté le 28 novembre 2019).

Tableau 1 Classification topographique classique

Formes	Caractéristiques
Diplégie	Les quatre membres sont atteints légèrement, mais prédominance très franche aux membres inférieurs. Le tronc est souvent hypotonique. Forme la plus répandue
Quadriplégie	Les quatre membres sont atteints de façon assez comparable. Atteinte grave de la motricité buccofaciale. Souvent accompagnée de déficience intellectuelle et d'épilepsie. Forme la plus grave
Hémiplégie	Le membre supérieur et le membre inférieur sont atteints du même côté, mais prédominance au membre supérieur.
Hémiplégie double	Les quatre membres sont atteints, mais prédominance aux membres supérieurs.
Triplégie	Membres supérieurs atteints; en fait, souvent quadriplégie associée à une atteinte subnormale d'un des membres inférieurs.
Monoplégie	Un membre supérieur est atteint; en fait, souvent hémiplégie associée à une atteinte subnormale d'un membre inférieur.

Adapté du Portail Enfance et Familles, Catégorisation et classification (PC) [site Web], disponible à : <http://www.portailenfance.ca/wp/modules/troubles-du-developpement/volet-2/la-paralysie-cerebrale/categorisation-et-classification-pc/>.

Autre source : Déficience motrice cérébrale : document pour les parents [Ferland *et al.*, 2005].

Tableau 2 Classification neurophysiologique symptomatique classique

Formes	Caractéristiques
Spastique	Réponse anormale à l'étirement rapide, généralement accompagnée de clonus et de réflexes ostéotendineux vifs Forme la plus répandue
Dyskinétique	Présence de mouvements involontaires rapides ou lents Incapacité d'organiser et d'exécuter correctement un mouvement volontaire, de coordonner des mouvements automatiques et de maintenir une posture
Ataxique	Présence de mouvements involontaires non contrôlés Tension musculaire réduite Forme la moins répandue
Mixte	Combinaison des types de troubles et d'atteintes décrits ci-dessus

Adapté du Portail Enfance et Familles, Catégorisation et classification (PC) [site Web], disponible à : <http://www.portailenfance.ca/wp/modules/troubles-du-developpement/volet-2/la-paralysie-cerebrale/categorisation-et-classification-pc/> et du CNFS – volet Université d'Ottawa, Paralysie cérébrale [site Web], disponible à : <https://cnfs.ca/pathologies/paralysie-cerebrale>.

Le degré de gravité de l'atteinte est généralement évalué à l'aide de la classification des fonctions de la motricité globale GMFCS (sigle de Gross Motor Function Classification System) [Amiel-Tison et Gosselin, 2010; Wood et Rosenbaum, 2000; Palisano *et al.*, 1997] (voir le tableau 3). Le GMFCS a été élaboré à partir de l'outil de mesure de la fonction motrice, le GMFM (88 ou 66). Le GMFCS considère les mouvements volontaires et met l'accent sur la position assise, les transferts et la marche lors d'activités de la vie quotidienne. Les capacités changent en fonction de l'âge de l'enfant; le GMFCS permet

d'évaluer la progression de l'enfant dans les différentes tranches d'âge suivantes : moins de 2 ans, 2 à 4 ans, 4 à 6 ans, 6 à 12 ans et 12 à 18 ans [Palisano *et al.*, 2008; Palisano *et al.*, 1997]. À partir du GMFM-66, des courbes de croissance motrice ont été élaborées, décrivant les profils de développement moteur des enfants à chacun des niveaux du GMFCS. Ces courbes permettent d'entrevoir le niveau de développement moteur de l'enfant avec une paralysie cérébrale³⁰, et de suivre, en fonction de son âge, sa progression et son développement moteur. Utilisées dans un contexte clinique ou de recherche, elles fournissent une mesure de l'amélioration qu'apporte une intervention donnée [Russell *et al.*, 2013; Rosenbaum *et al.*, 2002].

Tableau 3 Capacités relatives à la motricité globale – niveaux du système de classification de la motricité globale GMFCS chez les enfants de 6 à 12 ans

Niveau	Capacité
Niveau I	Aucune incapacité relative à la marche (aucune restriction de mouvements)
Niveau II	Marche sans assistance (aide technique), mais incapacité relative à la déambulation extérieure
Niveau III	Marche avec assistance (aide technique), incapacité relative à la déambulation intérieure
Niveau IV	Mobilité autonome, accompagnée de restrictions de mouvements (fauteuil roulant électrique)
Niveau V	Aucune mobilité, même avec une aide technique (fauteuil roulant poussé par un tiers)

Adapté du Portail Enfance et Familles, Catégorisation et classification (PC) [site Web], disponible à : <http://www.portailenfance.ca/wp/modules/troubles-du-developpement/volet-2/la-paralysie-cerebrale/categorisation-et-classification-pc/>.

Le système de classification de la motricité fine MACS (sigle de Manual Ability Classification System) permet de classer les capacités relatives à la motricité fine [Krumlinde-Sundholm, 2013; Eliasson *et al.*, 2006] (voir le tableau 4). Cet outil vise les enfants âgés de 4 à 18 ans et sert à classer l'enfant selon la manière dont celui-ci utilise ses mains pour manier des objets utilisés dans la vie quotidienne.

Tableau 4 Capacités relatives à la motricité fine (en position assise) – niveaux du système de classification (MACS) de la motricité fine chez les enfants de 4 à 18 ans

Niveau	Capacité
Niveau I	L'enfant manipule les objets facilement et obtient un résultat satisfaisant.
Niveau II	L'enfant sait manipuler la plupart des objets, mais la qualité et/ou la vitesse d'exécution est quelque peu limitée.
Niveau III	L'enfant manipule les objets avec difficulté et a besoin d'aide pour préparer et/ou adapter les activités.

³⁰ CanChild. Resources – GMFM Scoring [site Web]. Disponible à : <https://www.canchild.ca/en/resources/321-gmfm-scoring> (consulté le 31 juillet 2019).

Niveau IV	L'enfant peut manipuler une sélection limitée d'objets faciles à manipuler dans des situations adaptées et requiert une aide constante.
Niveau V	L'enfant ne peut pas manipuler de petits objets et sa capacité à effectuer même les tâches simples est très limitée et requiert une aide totale.

Adapté du Portail Enfance et Familles, Catégorisation et classification (PC) [site Web], disponible à : <http://www.portailenfance.ca/wp/modules/troubles-du-developpement/volet-2/la-paralysie-cerebrale/categorisation-et-classification-pc/>.

Autre source : Krumlinde-Sundholm, 2013.

D'autres systèmes de classification fonctionnelle sont disponibles, dont le CFCS (Communication Function Classification System) [Hidecker *et al.*, 2011], l'EDACS (Eating and Drinking Ability Classification System) [Sellers *et al.*, 2014] et le VFCS (Visual Function Classification System) [Baranello *et al.*, 2020].

3.5. Prise en charge de la paralysie cérébrale

Aucun traitement curatif de la paralysie cérébrale n'est disponible actuellement [Graham *et al.*, 2016]. Les objectifs de traitement sont de réduire au maximum l'incapacité occasionnée par les atteintes et de développer chez l'enfant une autonomie maximale. La prise en charge doit débuter dès le diagnostic chez le jeune enfant. Elle est effectuée par une équipe clinique interdisciplinaire, en partenariat avec les parents [Trabacca *et al.*, 2016]. L'équipe clinique est composée de spécialistes issus de disciplines diverses, dont la pédiatrie ou la neuropédiatrie, la pédopsychiatrie, l'orthopédie, la physiothérapie, l'ergothérapie, la psychologie, l'orthophonie, la nutrition, le travail social et l'éducation spécialisée [Bulekbayeva *et al.*, 2017]. La prise en charge vise l'amélioration de la fonction musculaire, de la mobilité articulaire et des capacités d'expression verbale ainsi que la correction des déformations et des désalignements. Elle est assurée dès l'âge préscolaire et durant le cheminement scolaire de l'enfant pour améliorer la communication et atténuer les symptômes qui posent un problème sur le plan social.

Les thérapies non médicamenteuses, dont la physiothérapie, l'ergothérapie et l'orthophonie, permettent le maintien, voire l'amélioration de la mobilité musculo-articulaire [Shamsoddini *et al.*, 2014; Koman *et al.*, 2004]. Des injections de toxines botuliniques A, notamment, peuvent atténuer la rigidité musculaire [Lucena-Anton *et al.*, 2018; Strobl *et al.*, 2015]. L'usage des médicaments (anticonvulsivants ou qui favorisent la détente musculaire, dont le baclofène et le diazépam) permet de contrôler les crises d'épilepsie ou de réduire la spasticité [Goyal *et al.*, 2016]). La chirurgie orthopédique et les orthèses peuvent être utilisées pour améliorer la motricité ou réaligner les articulations [Sharan, 2005]. Enfin, des dispositifs modernes peuvent aussi être utilisés pour aider la personne qui a une paralysie cérébrale, notamment des appareils de synthèse vocale, pour l'aider à parler, ou un fauteuil roulant électrique, pour l'aider à se déplacer³¹.

³¹ Cerebral Palsy Guidance. *Assistive technology and adaptive equipment for children with cerebral palsy* [site Web]. Disponible : <https://www.cerebralpalsyguidance.com/cerebral-palsy/living/assistive-technology/> (consulté le 25 juillet 2019).

3.5.1. Services offerts au Québec

Le diagnostic chez les enfants chez lesquels une paralysie cérébrale est suspectée requiert des compétences et des connaissances médicales que l'on trouve dans les centres hospitaliers (CH) spécialisés et les CRDP, situés dans les grandes régions urbaines. Une fois le diagnostic posé, l'enfant et ses parents seront orientés vers un établissement de santé et de services sociaux de sa région, soit un centre intégré de santé et de services sociaux (CISSS) ou un centre intégré universitaire de santé et de services sociaux (CIUSSS) ou un autre établissement, pour y recevoir les services de réadaptation et les soins généraux que requiert son état. Le CH spécialisé continue à lui offrir les soins médicaux spécialisés requis (p. ex. en neurologie).

Au Québec, le programme DI-TSA et DP (Déficience intellectuelle – Trouble du spectre de l'autisme et Déficience physique) s'assure de répondre aux besoins des enfants avec une paralysie cérébrale. Ce programme s'adresse entre autres aux personnes présentant une déficience physique qui entraîne des incapacités significatives et persistantes, ainsi qu'à ses proches, et vise l'organisation des services à offrir à cette clientèle pour soutenir la personne dans le développement et le maintien de ses capacités, la compensation des incapacités de même que la facilitation de l'autonomie fonctionnelle [MSSS, 2017]. Les services offerts aux enfants avec une paralysie cérébrale comprennent des services spécifiques, spécialisés et surspécialisés.

Les centres de réadaptation offrent généralement les services spécialisés interdisciplinaires, alors que les centres locaux de services communautaires (CLSC) offrent plutôt les services spécifiques. Les services spécialisés tels que la physiothérapie, l'ergothérapie et l'éducation spécialisée visent à répondre aux besoins plus complexes de réadaptation et d'adaptation des enfants qui exigent le savoir-faire d'un expert, et permettent le développement des capacités des enfants, une adaptation à leur environnement ainsi qu'une attribution des aides techniques lorsqu'elles sont requises. Les services spécifiques s'adressent aux personnes demeurant dans leur communauté et visent à répondre à des besoins de maintien dans le milieu de vie (p. ex : adaptation de domicile, aide psychosociale), ou encore à des besoins ressentis par les proches (p. ex : soutien pour obtenir du répit, aide à domicile) [MSSS, 2017]. Les services surspécialisés en réadaptation et intégration sociale sont offerts dans les établissements désignés ayant une mission suprarégionale. Il peut s'agir d'une chirurgie orthopédique ou d'une radicellectomie sensitive partielle chez un enfant avec une paralysie cérébrale [MSSS, 2007].

Un plan d'intervention individualisé est élaboré dès que l'enfant est pris en charge dans un centre de réadaptation, ce qui permet une continuité et une coordination des soins et des services à lui offrir. Un intervenant pivot pourra être désigné pour soutenir cette coordination dans et entre les établissements de santé [MSSS, 2008]. Si des services ne peuvent pas être offerts dans la région de résidence d'un enfant, des ententes de services entre des établissements régionaux existent généralement. De nombreux partenaires communautaires des établissements de santé publics peuvent aussi offrir une diversité de services, tels que du répit, une aide financière ou du soutien. Enfin, en vertu d'une entente de complémentarité entre le réseau de l'éducation et celui de la

santé et des services sociaux, des services particuliers peuvent être offerts aux enfants d'âge scolaire (18 ans et moins) par une concertation et une mise en commun des ressources [MSSS, 2017].

3.5.2. Perspective des parties prenantes

Les professionnels de la santé consultés ont rapporté que l'offre de services en réadaptation varie selon la région, mais aussi en fonction des besoins de l'enfant et de son potentiel de réadaptation. De plus, les ressources professionnelles semblent plus nombreuses et diversifiées dans les grands centres. Des spécialistes de différentes disciplines, dont la physiothérapie, l'ergothérapie, l'orthophonie, le travail social, la psychoéducation, la psychologie, les soins infirmiers ainsi que l'éducation spécialisée, collaborent à cette offre de service interdisciplinaire. De nombreux efforts sont déployés pour offrir des services dans le milieu de vie de l'enfant (p. ex. déplacement d'un intervenant à la garderie; partenariat entre les centres spécialisés de réadaptation et le CISSS). Toutefois, bien que la téléconsultation, la téléadaptation ou la téléconférence soit utilisée dans certains milieux éloignés pour soutenir les équipes et éviter les déplacements des familles, on mentionne que dans certains cas, les enfants avec une paralysie cérébrale et leurs parents doivent se déplacer, parfois sur de longues distances, pour accéder à des services de réadaptation ou plus spécialisés. Les représentants de parents d'enfants avec une paralysie cérébrale soulignent également que certains parents auraient des difficultés financières à se procurer du matériel spécialisé et trouvent insuffisants les crédits d'impôt actuellement accordés.

Selon des représentants chez les professionnels de la santé, il y a de nombreuses collaborations entre professionnels, notamment entre ceux travaillant dans les CRDP et ceux travaillant dans les centres de réadaptation en déficience intellectuelle (CRDI). Les professionnels des services en déficience auditive et en déficience visuelle peuvent également contribuer à l'offre de service. Au besoin, des collaborations entre des centres de réadaptation en régions éloignées et en régions urbaines peuvent être mises de l'avant pour offrir un meilleur soutien professionnel. Les professionnels des centres de réadaptation offrent également du soutien aux écoles et aux garderies, en proposant des recommandations sur les équipements, les exercices à offrir aux enfants ou l'adaptation du milieu pour optimiser le plan d'intervention de l'enfant. En ce qui concerne les enfants qui fréquentent une école spécialisée, leur dossier peut être transmis à l'équipe scolaire en place par les professionnels des CRDP, selon la région où ils habitent.

3.5.3. Perspective des parents

De façon générale, les parents interviewés ont rapporté que le réseau de la santé et des services sociaux avait rapidement pris en charge leur enfant et fait une évaluation, dès qu'un problème important était suspecté. Le processus de diagnostic s'est échelonné sur une durée variable, selon le cas, et s'est précisé au fur et à mesure que les différents tests ont été effectués. Une mère explique (participant 4) : « Le diagnostic officiel, ça s'est fait petit à petit. [...] En fait, ils font un diagnostic, je dirais, précaire avec des données qu'ils ont. [...] progressivement, on apprend à vivre avec la réalité puis on

apprend les diagnostics au fur et à mesure qu'on les vit. Ça fait que c'est parfait comme ça, c'est bien comme ça ».

D'après l'expérience des parents interviewés, l'enfant est habituellement suivi à l'hôpital par un pédiatre et d'autres spécialistes, au besoin. Selon le CH, une infirmière coordonnatrice est responsable d'organiser les rendez-vous avec les différents spécialistes. Toutefois, des parents auraient apprécié un plus grand soutien à la suite de l'annonce du diagnostic visant leur enfant, notamment d'ordre psychologique, de même que plus d'information en temps opportun sur la paralysie cérébrale. Un parent explique (participant 5) « [...] quand tu apprends ça, tu es sous le choc. Tu ne sais pas où est-ce qu'il faut que tu ailles vraiment. Donc, ce n'était pas vraiment approprié. [...] [le professionnel] ne nous a pas fourni les informations dont on avait besoin pour aller plus loin [...]. J'ai toujours trouvé que quand tu reçois un diagnostic comme ça, ils devraient nous donner [...] une fiche, quelque chose, des renseignements de nos options [...] [et également] du soutien [...] psychologique [...] ».

De façon générale, les parents interviewés ont souligné que le personnel de l'hôpital fait les démarches pour assurer le suivi de l'enfant en centre de réadaptation et qu'un partage des dossiers est effectué. Pour leur part, toutefois, il ne serait pas sans failles, car certains ont dû faire un suivi pour s'assurer du bon partage d'informations. Pour la majorité des parents consultés, l'accès aux services de réadaptation et aux suivis spécialisés a été rapide à la suite de l'obtention du diagnostic de paralysie cérébrale. Une évaluation a été réalisée et un plan d'intervention a été établi avec les parents.

Les parents consultés se sont dits généralement satisfaits des services de réadaptation que leur enfant reçoit, comme l'explique celui-ci (participant 2) : « Ils sont très bons [...], ils nous donnent des trucs, des fiches [...] comme des fiches d'exercices, des plans d'intervention, on se rencontre à peu près aux six mois, là, tu sais, pour faire des plans d'intervention [...], ils sont très bons, là, pour remettre les choses en perspective, remettre les choses à jour ». Plusieurs sont toutefois d'avis que l'offre de service pourrait être bonifiée dans certaines régions et que l'intensité pourrait être accrue. Des parents ont aussi rapporté avoir eu besoin de se déplacer pour accéder à certains services plus spécialisés, par exemple pour avoir accès plus rapidement à certaines interventions chirurgicales pratiquées notamment dans des CH.

Les parents ont rapporté la collaboration entre le centre de réadaptation et le CLSC et les différents services offerts par le CLSC selon les besoins des enfants avec une paralysie cérébrale et la disponibilité des services : formations diverses (p. ex : en orthophonie), information, services de répit, soutien par un travailleur social, etc. Certains parents ont cependant eu de la difficulté à accéder aux services de leur CLSC, et un parent (participant 1) déplore en particulier le manque de lien entre le centre de réadaptation et le CLSC : « ça a été plus difficile d'avoir accès [au CLSC]. C'est comme si hôpital, clinique de paralysie cérébrale, ensuite référence au Centre de réadaptation, tout est beau, et oups, là [...] on est tombés entre deux chaises par rapport au CLSC ». Plusieurs parents apprécieraient être mieux informés sur l'offre de services de répit et sur l'aide financière disponible dans leur communauté pour combler leurs besoins. De plus, à partir du moment où l'enfant fréquente l'école, les parents rapportent une diminution des

services donnés au centre de réadaptation. Toutefois, les parents rapportent que les centres de réadaptation font des recommandations aux écoles primaires et secondaires non spécialisées si l'enfant fréquente ce type d'établissement. Les enfants peuvent également y recevoir quelques services du centre de réadaptation, au besoin. Tandis que dans les écoles spécialisées, les services de réadaptation sont donnés sur place.

Enfin, certains parents ont rapporté consulter des physiothérapeutes et des ergothérapeutes en clinique privée pour obtenir davantage de traitements, une variabilité de traitements ou essayer de nouvelles approches (équitation, ski alpin) pour donner « le plus de chances possibles » à l'enfant, ou « aller le plus loin possible pour [son] enfant », pour « améliorer sa qualité de vie ». Il arrive également que des parents consultent un psychologue en clinique privée pour mieux vivre au quotidien avec un enfant qui a une paralysie cérébrale.

3.6. Conséquences de la paralysie cérébrale et qualité de vie

3.6.1. Perspective des parents

Les parents interviewés ont témoigné des répercussions de la paralysie cérébrale dans leur vie. Ils ont mis en lumière leur grande implication dans les soins et les services à donner à leur enfant. Si certains enfants présentent moins d'incapacités et sont capables de réaliser des activités de la vie quotidienne avec un peu d'aide seulement, plusieurs présentent toutefois une autonomie réduite, dont une mobilité limitée, de la difficulté à parler, à manger et à boire, des problèmes de sommeil ou de l'incontinence. Ces enfants sont totalement dépendants de leurs parents ou ont besoin d'une supervision et d'un soutien constants. Un participant adulte avec une paralysie cérébrale (participant 10) déclare que ses parents sont encore impliqués dans ses soins : « j'ai encore besoin d'assistance [...] aujourd'hui et toujours, parce que je ne pense pas pouvoir couper ma nourriture d'ici ma retraite ». Outre l'implication qui est requise des parents dans les soins et la réalisation des exercices prescrits à leur enfant, ceux-ci doivent aussi voir à coordonner les nombreux rendez-vous pour des consultations médicales et des services de réadaptation.

Les répercussions de la paralysie cérébrale sur la qualité de vie de l'enfant qui en est atteint ont aussi été illustrées. Cette qualité de vie est variable. Certains enfants ne se rendent pas compte de leurs incapacités parce qu'ils sont encore trop jeunes, qu'ils n'en sont pas conscients ou que leurs parents s'organisent pour les pallier. Toutefois, d'autres enfants, plus âgés, sont conscients de leur différence et cela est souvent difficile à vivre : frustration liée à une mobilité réduite ou pleurs parce qu'ils ne peuvent pas aller jouer avec les autres enfants. Un jeune adulte (participant 10) avec une paralysie cérébrale raconte : « [...] ma qualité de vie, elle m'a affecté moi plus que mes parents. Parce que, moi, je ne pouvais pas faire tout ce que je voulais faire, en voyant mes sœurs faire, ou en voyant [ce que] mes amis normaux [...] pouvaient faire ». Ce jeune adulte remarque que l'acceptation de son état a été très longue.

Bien que quelques parents interviewés aient mentionné avoir une belle qualité de vie malgré les exigences de vivre avec un enfant dont l'autonomie est limitée, plusieurs

reconnaissent que leur vie au quotidien est différente de celle d'autres parents ayant des enfants en santé. L'annonce du diagnostic de la paralysie cérébrale provoque souvent un choc. Et depuis la naissance de leur enfant, les parents doivent être constamment présents pour lui et s'adapter continuellement. Leurs journées sont organisées en fonction des besoins de leur enfant, et plusieurs parents ont rapporté devoir s'absenter fréquemment du travail pour se rendre aux divers rendez-vous de leur enfant. Cela en a conduit certains à abandonner leur travail ou à travailler à temps partiel. Il est aussi rare pour ces parents de trouver des moments d'intimité, et certains disent vivre de l'épuisement, du stress, être tombés malades ou avoir fait une dépression.

3.6.2. Perspective des parties prenantes

Des représentants de parents d'enfants avec une paralysie cérébrale ainsi que certains professionnels de la santé consultés ont mentionné qu'avoir un enfant vivant avec une paralysie cérébrale est coûteux en temps, en déplacements et en adaptation de toutes sortes (p. ex : de la maison et du véhicule). Certains rapportent les répercussions des soins à apporter à cet enfant sur la qualité de vie de ses parents : inquiétude à propos du développement et de l'avenir de leur enfant, stress associé à la gestion des nombreux rendez-vous, épuisement, déstabilisation en raison des humeurs changeantes et extrêmes de l'enfant ou détresse si l'enfant cesse de progresser.

3.7. Besoins non comblés relativement aux traitements

Bien que les parents consultés dans le cadre du présent projet aient soulevé certains manques quant à l'offre actuelle de service, ils ont pour la plupart mentionné être satisfaits des services de réadaptation ainsi que de la prise en charge médicale de leur enfant. Toutefois, la plupart d'entre eux gardent l'espoir qu'un traitement puisse contribuer encore plus à l'évolution de l'état de leur enfant et à améliorer leur qualité de vie. Par ailleurs, un certain nombre de parents interviewés et un jeune adulte avec une paralysie cérébrale ont mentionné avoir essayé, ou vouloir essayer, l'OHB (ou l'AHB) pour ne pas regretter un jour de n'avoir pas tout tenté, de ne pas avoir essayé toute option disponible : « on veut tout essayer [...] on veut tout faire, c'est certain » (participant 1). « C'est rare qu'on va explorer d'autres options que qu'est-ce qui se fait [en médecine traditionnelle]. On reste dans les standards. Tu sais, nous, les parents, on veut évoluer, on veut trouver de nouvelles avenues [...], parce que ça change nos vies » (participant 5). Aux premières loges, plusieurs professionnels de la santé consultés se disent bien au fait de ces désirs et conviennent que certains parents sont continuellement à la recherche de nouvelles solutions pour améliorer l'état et l'autonomie de leur enfant, notamment dans des sphères autres que motrices (p. ex : fonctions cognitives).

4. OXYGÉNOTHÉRAPIE HYPERBARE

4.1. Description

L'OHB est une technique qui permet d'administrer de l'oxygène pur ou un mélange de gaz suroxygéné à une ou plusieurs personnes à l'intérieur d'une chambre ou d'un caisson pressurisé (pression supérieure à la pression atmosphérique) pour suppléer l'apport insuffisant d'oxygène aux tissus en cas d'hypoxie et/ou d'utiliser les effets cellulaires et tissulaires des pressions élevées d'oxygène.

La Undersea and Hyperbaric Medical Society ou UHMS (États-Unis) définit l'OHB comme une intervention au cours de laquelle une personne respire, par intermittence, de l'oxygène concentré à près de 100 % lorsqu'elle se trouve dans une chambre hyperbare où la pression est supérieure à celle du niveau de la mer (pression atmosphérique standard, soit 1 ATA ou 101,325 kilopascals [kPa]). L'UHMS précise qu'à des fins cliniques, la pression doit être égale ou supérieure à 1,4 ATA (141,86 kPa) et l'apport en oxygène, à une concentration près de 100 % et que les traitements, dans les indications reconnues, se font généralement à 2,0 ATA et plus [UHMS, 2014].

4.1.1. Équipement

Deux types de chambres hyperbares sont disponibles : monoplace et multiplace. Ces chambres peuvent être faites d'acier, d'aluminium ou de polymères.

La chambre monoplace est habituellement entièrement pressurisée à 100 % d'oxygène, comparativement à une chambre multiplace où l'oxygène est administré au patient à l'aide d'un masque ou d'un casque. Les chambres peuvent être fixes ou portatives.

Des caissons portatifs légèrement pressurisés sont utilisés à domicile, sans apport d'oxygène additionnel et à une pression ambiante légèrement plus élevée que la pression atmosphérique (généralement à 1,3 ATA).

4.1.2. Sécurité et innocuité

Dans la littérature, l'OHB est généralement reconnue comme étant sécuritaire, particulièrement dans les indications reconnues et dans les populations dans lesquelles le traitement a été étudié, et notamment à des pressions inférieures à 1,75 ATA [Heyboer *et al.*, 2017; Hailey, 2003]. En général, le fonctionnement des chambres hyperbares est sécuritaire, pour autant que les précautions de sécurité qui s'imposent soient respectées [Jain, 2017b]. Certains risques doivent toutefois être pris en considération lors de toute utilisation [Santé Canada, 2019a; Jain, 2017f], dont les risques liés à l'hyperpression sur les organes, principalement dans la sphère de l'otorhinolaryngologie (ORL), ou ceux liés à l'intoxication par l'oxygène de certains organes (cerveau, poumon, œil) [Jain, 2017c; Reich *et al.*, 2016]. Des risques d'explosion et d'incendie sont aussi à considérer. Pour certains, dès l'instant où une atmosphère enrichie en oxygène est présente dans une chambre hyperbare (à savoir supérieure à 27 %; à 1,3 ATA, la pression partielle d'oxygène est ainsi de 0,27 ATA), il y a un risque d'inflammation en présence d'objets pouvant servir à l'ignition (notamment les objets électroniques; [Fife *et al.*, 2017]).

Au Canada, les chambres doivent être conformes aux normes dictées par Santé Canada [2019a]. Diverses recommandations sont aussi émises, tant par des organismes règlementaires que par des organismes spécialisés en médecine hyperbare, et ce, pour encadrer l'utilisation sécuritaire des chambres (entretien, formation du personnel, gestion des urgences, etc.). Un guide de pratique a été produit à cet effet par l'Association canadienne de médecine hyperbare et subaquatique (ACMHS) [CUHMA, 2015], qui propose une diversité de conditions pour assurer un usage sécuritaire des chambres hyperbares (compétences des professionnels, équipe de soins, équipement requis, etc.). L'ACMHS met notamment en garde contre l'utilisation de caissons portatifs destinés à un usage domestique et à une utilisation dans des indications qui ne sont pas reconnues et par des professionnels qui ne sont pas accrédités. Santé Canada [2019b] a également procédé récemment (octobre 2019) à une mise à jour de sa mise en garde à cet effet, indiquant que l'utilisation des caissons hyperbares à parois souples, non homologués, peut présenter de graves risques pour la santé, tels qu'un incendie³² ou une explosion résultant d'une décharge électrostatique dans un environnement où la concentration d'oxygène est élevée; la propagation de maladies par contamination croisée entre les utilisateurs; des lésions aux oreilles, aux yeux, aux sinus, aux poumons et aux dents, et une modification du taux de glycémie.

4.1.2.1. Complications

Les complications les plus fréquentes associées à l'utilisation de l'OHB sont : le barotraumatisme de l'oreille moyenne, le barotraumatisme des sinus, les complications ophtalmiques (p. ex : la myopie réversible), le barotraumatisme pulmonaire, les convulsions en raison d'une intoxication à l'oxygène, le syndrome de décompression et la claustrophobie [Jain, 2017c].

4.1.3. Contre-indications

Un certain nombre de contre-indications reconnues sont associées à l'OHB et celles-ci peuvent être regroupées dans les trois catégories [Hôpitaux Universitaires Genève (HUG), 2018] suivantes : absolues (le patient ne peut pas suivre un traitement d'OHB), relatives (le patient doit pouvoir discuter des risques et des avantages avec le médecin spécialisé en médecine hyperbare) et temporaires (traitement d'OHB possible à la suite de la guérison) [HAS, 2007]. Parmi ces contre-indications, on trouve le pneumothorax, l'emphysème, la cardiopathie ischémique, l'asthme aigu, l'insuffisance cardiaque de même que des infections des voies respiratoires supérieures (p. ex : otite, sinusite), la claustrophobie et l'épilepsie mal contrôlée.

³² Ce risque d'incendie est considérablement accru lorsque l'appareil est utilisé en combinaison avec un dispositif de concentration d'oxygène.

4.2. Indications reconnues

À l'heure actuelle, l'OHB est généralement reconnue pour traiter les 14 affections suivantes [Mathieu *et al.*, 2017; UHMS, 2014] :

- embolie gazeuse artérielle ou veineuse compliquée;
- intoxication au monoxyde de carbone;
- gangrène gazeuse;
- lésion par écrasement, syndrome des loges (aussi appelé syndrome de compression des loges ou syndrome compartimental) et autres traumatismes ischémiques aigus;
- accident de décompression;
- plaie réfractaire (lésion diabétique ou ulcère veineux des jambes);
- anémie particulière;
- abcès intracrânien;
- nécrose infectieuse autre que la gangrène gazeuse;
- ostéomyélite réfractaire;
- ostéoradionécrose après une extraction dentaire en zone irradiée;
ostéoradionécrose mandibulaire, radionécrose des tissus mous et des greffes musculocutanées après une chirurgie majeure en zone irradiée, rectite hémorragique postradique et cystite hémorragique postradique;
- greffe cutanée et musculocutanée en zone ischémique;
- brûlure thermique;
- surdité soudaine neurosensorielle idiopathique.

Santé Canada reconnaît ces 14 indications, reconnues aux États-Unis [Santé Canada, 2019a; AETMIS, 2008].

Les protocoles et les procédures de traitement par OHB varient suivant les pathologies et les centres de soins où ces traitements sont offerts.

Le traitement peut être unique et de durée variable (p. ex : pour traiter une intoxication au monoxyde de carbone) ou peut s'étaler sur plusieurs jours, à raison d'une à deux séances quotidiennes dont la durée est prédéterminée (de 30 à 90 minutes) [CETS, 2000].

Au Québec, comme dans la vaste majorité des systèmes de santé comparables, le traitement de la paralysie cérébrale par OHB n'est pas reconnu et ne peut donc pas être prescrit. La seule exception repérée concerne la Chine, où l'OHB serait reconnue en deuxième intention comme traitement adjuvant de la paralysie cérébrale [Jain, 2017d; Yan *et al.*, 2015].

Ainsi, à l'heure actuelle, aucun des régimes publics d'assurance maladie au Canada ne rembourse les traitements d'OHB pour soigner la paralysie cérébrale. Il en va de même aux États-Unis [Carls et Sherry, 2014; Washington State Health Care Authority, 2013] et dans de nombreux autres systèmes de santé qui ne reconnaissent pas la paralysie cérébrale comme une indication de l'OHB. Au Québec, le ministère des Finances du Québec a introduit, dans les mesures du budget 2005-2006, un crédit d'impôt pour les dépenses relatives à l'OHB et à l'AHB^{33, 34}.

4.2.1. Mécanismes d'action de l'OHB

À 1 ATA d'air, soit 760 millimètres de mercure (mmHg), la pression partielle de l'oxygène est de 0,21 ATA, soit 160 mmHg; l'hémoglobine du sang est alors saturée à 97 % d'oxygène [Bakker, 1992]. Un apport additionnel d'oxygène par l'effet d'une pression atmosphérique accrue et/ou d'une concentration accrue d'oxygène dans l'air permettra d'abord une saturation de l'hémoglobine et l'oxygène n'ayant pu se lier aux cellules sanguines sera dissous dans le plasma sanguin [Jain, 2017e]. La conséquence physiologique de l'OHB est une augmentation de la concentration d'oxygène dans le sang et, par conséquent, une plus grande disponibilité pour les cellules.

L'absorption d'un gaz dans le sang est directement liée à la pression partielle du gaz. Respirer de l'oxygène concentré à 100 % à une pression de 1 ATA accroît l'oxygénation du sang d'environ 5 fois celle qu'apporte la respiration d'air ambiant normal [McDonagh, 2018]. En respirant de l'air à 21 % d'oxygène à 3 ATA, la pression partielle de l'oxygène correspond à 0,63 ATA; à cette même pression, soit 3 ATA, environ 15 à 20 fois plus d'oxygène peut être transporté dans le sang lorsqu'un patient respire de l'oxygène à 100 %.

L'effet thérapeutique de l'OHB (à des concentrations d'oxygène de 100 %) s'appuie sur l'augmentation de la pression partielle de l'oxygène dans le sang et sur la propriété de la pression hydrostatique élevée à l'intérieur de la chambre hyperbare, c'est-à-dire celle de générer une pression élevée d'un fluide (le plasma sanguin) pour briser les bulles de gaz (p. ex : lors d'embolies gazeuses) [Hadanny *et al.*, 2018; Furger *et al.*, 2017]. Dans les indications de nature chronique et les traitements d'hypoxies locales, l'OHB a pour effet d'améliorer l'élasticité des globules rouges et d'augmenter la pression partielle d'oxygène dans le sang pour optimiser la fixation de l'oxygène à l'hémoglobine; arrivé à saturation dans le sang, l'oxygène est dissous dans le plasma, créant ainsi une réserve pour les tissus [Furger *et al.*, 2017]. L'OHB induit également une vasoconstriction réactionnelle des vaisseaux sanguins périphériques et une vasodilatation dans les tissus hypoxiques, sans baisse significative du contenu en oxygène livré aux tissus, contribuant ainsi à

³³ Ministère des Finances du Québec. Budget 2005-2006. Renseignements additionnels sur les mesures du budget. Disponible à : <http://www.budget.finances.gouv.qc.ca/budget/2005-2006/index.asp>.

³⁴ Selon une brochure officielle [Revenu Québec, 2006], les frais admissibles sont ceux engagés « pour des séances d'oxygénothérapie hyperbare suivies par la personne si elle est atteinte d'un trouble neurologique grave et prolongé et si une personne compétente atteste que la personne a une déficience grave et prolongée des fonctions mentales ou physique ». Cette brochure ne mentionne pas explicitement la paralysie cérébrale, mais une note dans le document du budget 2005-2006 (p. 15) précisait ceci : « p. ex., certains cas de paralysie cérébrale ».

augmenter le flux microcirculatoire et à réduire l'apoptose et l'œdème dans les cas de traumatisme aigu (p. ex : AVC, traumatisme crânio-cérébral [TCC] [Hadanny *et al.*, 2018; Rosario *et al.*, 2018; Boussi-Gross *et al.*, 2013], ou de lésion chronique à un membre [Jain, 2017e]). Ces effets varient cependant selon la pression induite, la durée de l'exposition et la condition physique du patient [Jain, 2017a]. L'OHB favorise, entre autres, la diminution de l'inflammation, la revascularisation et la cicatrisation des tissus lésés, greffes et organes [Hadanny et Efrati, 2015; Efrati et Ben-Jacob, 2014b; Bhutani et Vishwanath, 2012], la croissance des fibroblastes, la formation de collagène et l'angiogenèse [Furger *et al.*, 2017; Tal *et al.*, 2017], par la modulation de mécanismes cellulaires impliqués notamment dans la synthèse de facteurs de croissance, dans l'induction de protéines anti-inflammatoires et/ou d'enzymes antioxydants [Camporesi et Bosco, 2014; Thom, 2011; Thom, 2009].

4.2.1.1. Hypothèses relatives aux mécanismes d'action de l'OHB sur le tissu cérébral dans les cas de paralysie cérébrale

L'une des théories sous-tendant l'utilisation de l'OHB chez les enfants avec une paralysie cérébrale est que dans les lésions cérébrales, des cellules inactives seraient aptes à récupérer leur fonction [McDonagh, 2018]. Cette théorie s'appuie sur l'hypothèse de la présence de cellules dites « dormantes » dans une zone appelée « pénombre ischémique », qui se trouve à la jonction des cellules définitivement mortes (zone nécrotique) et des cellules saines, et où ces cellules ne seraient pas fonctionnelles, mais viables [Blanc, 2017; Harch, 2017b; Neubauer *et al.*, 1990]. L'oxygénation accrue permettrait notamment d'améliorer le débit sanguin cérébral, de régénérer les axones de la substance blanche et de stimuler leur croissance, de diminuer l'œdème cérébral et d'accroître le métabolisme général des cellules cérébrales³⁵ [Efrati et Ben-Jacob, 2014a]. Les cellules en dormance s'activeraient métaboliquement ou électriquement lors de l'utilisation de l'OHB, stimulées par la présence accrue d'oxygène [McDonagh, 2018]. Cette « remise en fonction » de ces cellules serait visible à la tomographie par émission monophotonique (TEMP; en anglais SPECT, sigle de *single photon emission computed tomography*), une technique d'imagerie permettant de visualiser les capacités fonctionnelles d'un organe [Uszler, 2017]. Cette hypothèse laisse supposer que, chez les personnes qui ont une paralysie cérébrale, les régions cérébrales touchées sont en hypoxie chronique et qu'une restauration de l'oxygénation par OHB, parfois durant plusieurs années après la survenue des lésions initiales, pourrait permettre aux cellules en dormance de retrouver leur fonctionnement normal.

Une seconde hypothèse concerne les cellules souches [Thored *et al.*, 2006]. L'OHB favoriserait le recrutement et la mobilisation des cellules souches neurales vers les

³⁵ Des processus similaires auraient lieu dans le cerveau de patients ayant subi un AVC ou un TCC; des études portant sur ces populations sont régulièrement citées pour expliquer les effets potentiels de l'OHB chez les enfants avec une paralysie cérébrale [Efrati et Ben-Jacob, 2014a]. En effet, par des techniques d'imagerie cérébrale, Efrati et Ben-Jacob auraient démontré que l'OHB permet d'améliorer le métabolisme neuronal dans ces populations, concluant que l'OHB peut induire la neuroplasticité chez les personnes atteintes d'une lésion cérébrale en phase chronique.

zones cérébrales lésées, leur différenciation en neurones et leur contribution au processus de réparation du tissu cérébral [Heyboer *et al.*, 2014; Wang *et al.*, 2008].

Une troisième théorie, plutôt controversée et sans démonstration scientifique [McDonagh, 2018], est que les neurones sont inactifs par privation d'innervation causée par la lésion et que l'OHB permettrait de réactiver le développement de connexions synaptiques des cellules lésées [National Institutes of Health (NIH), 1999].

Enfin, d'autres hypothèses ont aussi été proposées sur la neuroplasticité induite par l'OHB, telles que l'amélioration du métabolisme mitochondrial (production d'énergie); un renforcement de l'intégrité de la barrière hémato-encéphalique; l'activation des astrocytes, la remyélinisation, la néovascularisation, la neurogenèse, l'angiogenèse ainsi que la diminution des cytokines pro-inflammatoires [Blanc, 2017; Tal *et al.*, 2017; Peng *et al.*, 2014; Harch, 2013; Lin *et al.*, 2012; Liberto *et al.*, 2004].

4.3. Contexte d'utilisation de l'OHB au Québec et perspective de parents et de parties prenantes

Au Québec, deux CH (Hôtel-Dieu de Lévis, Hôpital du Sacré-Cœur de Montréal) sont équipés de chambres hyperbares pour traiter les patients admissibles, c'est-à-dire ceux qui répondent aux indications reconnues au Canada. Actuellement, ces chambres servent à traiter les cas urgents, tels que les victimes d'accident de plongée sous-marine ou d'intoxication au monoxyde de carbone, ainsi que d'autres indications médicales où les effets d'une thérapie hyperbare ont été scientifiquement reconnus. Pour assurer une utilisation sécuritaire de l'OHB, diverses mesures d'encadrement sont mises en place : supervision constante des traitements par un médecin adéquatement formé en thérapie hyperbare, présence de personnel bien formé, normes claires en matière d'électricité et de sécurité, surveillance constante des patients durant le traitement et des effets indésirables potentiels (toxicité de l'oxygène, barotraumatisme, accentuation d'une myopie, etc.).

Au Québec, l'intérêt envers l'utilisation de l'OHB dans la prise en charge des enfants avec une paralysie cérébrale date des années 90. À cette époque, un intérêt similaire s'était développé aux États-Unis et en Angleterre, notamment. Quelques cliniques privées anglaises, entre autres, offraient des traitements d'OHB à cette jeune clientèle. Informés de ce nouveau traitement potentiel, notamment par des parents, quelques cliniciens et chercheurs québécois ont mis en œuvre des protocoles de recherche pour en évaluer l'efficacité [Muller-Bolla *et al.*, 2006; Hardy *et al.*, 2002; Collet *et al.*, 2001; Montgomery *et al.*, 1999]. Au fil des ans, la couverture médiatique sur le sujet a encouragé plusieurs parents à avoir recours à l'OHB pour leur enfant. Quelques cliniques privées ont décidé d'offrir ce traitement aux enfants qui ont une paralysie cérébrale. De plus, des entreprises privées louent ou vendent des caissons portatifs³⁶.

³⁶ Les coûts d'une séance en chambre hyperbare (OHB) en clinique privée serait d'environ 120 \$. La location d'un caisson à domicile serait d'environ 2 000 \$ à 2 500 \$ pour une période de 40 jours, selon le modèle, tandis que l'achat d'un caisson à usage domestique est estimé à environ 20 000 \$, également selon les modèles.

Des parents québécois ont choisi de donner, à domicile, des traitements d'AHB³⁷ à leur enfant vivant avec une paralysie cérébrale. Lorsqu'il est effectué à domicile, dans un caisson portatif où l'air est légèrement pressurisé, le traitement consiste généralement à soumettre l'enfant, pendant une durée variable (généralement 60 à 90 minutes), à une pression légèrement augmentée (1,3 ATA) au moyen d'un compresseur d'air, souvent sans apport additionnel d'oxygène (donc à l'air ambiant). Il faut cependant préciser qu'aucun protocole clair de traitement n'a été établi relativement à cette indication et à cette clientèle; ainsi, il n'existe aucune norme en ce qui a trait à la durée de chacune des séances de traitement ou d'un nombre total de séances par traitement [McDonagh, 2018]. Au Québec, l'intérêt soulevé par cette approche thérapeutique chez certains parents et certaines personnes vivant avec une paralysie cérébrale ainsi que l'absence de cadre clair génère de la confusion autour de cette pratique et de la place qu'elle devrait occuper dans la prise en charge des enfants avec une paralysie cérébrale.

4.3.1. Expériences d'utilisation de la thérapie hyperbare au Québec

4.3.1.1. Perspective des parents

Parmi les parents interviewés, ceux ayant eu recours à la thérapie hyperbare pour traiter leur enfant avec une paralysie cérébrale (n = 7) ne connaissaient pas ou ne se rappelaient pas, pour la plupart, du protocole utilisé (niveau de pression et d'oxygène) lors des séances (en clinique privée : n = 4; à la maison : n = 3). Les enfants traités par l'OHB (ou l'AHB, le cas échant) ont commencé cette thérapie entre l'âge de 11 mois et 14 ans et ont reçu un nombre variable de traitements comprenant de 20 à 40 séances (durée de 90 minutes, y compris 30 minutes de compression et de décompression). Dans tous les cas, un parent accompagnait son enfant dans l'appareil, sécurisant ainsi l'enfant pendant le traitement. Parmi les 10 participants, 7 ont eu recours à la thérapie hyperbare, notamment pour les raisons suivantes : limites des traitements usuels, option de remplacement ou complémentaire à ces traitements pouvant améliorer l'état de leur enfant, approche s'intégrant facilement dans la vie de famille et amélioration de la qualité de vie. Parmi les parents interviewés, trois ont choisi de ne pas utiliser l'OHB ou l'AHB en raison des commentaires ou des recommandations de leur médecin ou parce qu'ils ne croyaient pas en son utilité et en son efficacité pour traiter leur enfant. Une mère interviewée (participante 1) dénonce d'ailleurs ce type de traitement et « trouve très déplorable » l'investissement des parents dans cette technologie – sans preuve scientifique – pour les enfants avec une paralysie cérébrale.

Bien que pour certains parents utilisateurs de la thérapie hyperbare, les traitements soient considérés exigeants, coûteux et épuisants, plusieurs rapportent être globalement satisfaits de leur expérience. Parmi les effets positifs perçus, le plus fréquemment mentionnés par de nombreux parents utilisateurs de la thérapie hyperbare, se trouvent l'amélioration de l'éveil, des fonctions cognitives ainsi que de la qualité du sommeil des enfants. En ce qui a trait à l'éveil, ils ont rapporté des exemples d'enfants qui se sont mis à sourire, à avoir davantage d'interactions avec leurs parents, à avoir une acuité

³⁷ Nommé aussi séance en chambre hyperbare légèrement pressurisée par le Regroupement de parents pour l'oxygénothérapie hyperbare.

intellectuelle et une capacité d'attention améliorée. Une mère (participante 3) interviewée raconte : « On se disait “[...] probablement qu’il y a vraiment quelque chose qui se passe”, parce que son éveil était de plus en plus grand ». Une mère (participante 8) ajoute : « [...] quand on revenait après nos 20 traitements, je trouvais qu’elle était plus allumée, plus spontanée, plus éveillée. Même que c’est là qu’elle a commencé à faire des petites *jokes*. Ça fait qu’il y avait comme quelque chose d’autre de plus que le physique qui avait travaillé ».

En ce qui concerne le sommeil, le fait de voir son enfant dormir une nuit complète sans se réveiller est l’un des exemples rapportés en entrevue. Une mère (participante 4) résume ainsi l’effet de l’AHB sur le sommeil de sa fille : « [...] après une semaine qu’on l’a utilisée, elle faisait ses nuits. Ce qu’elle n’avait jamais fait avant, une nuit complète d’un bon sommeil ».

Certains parents interviewés ont mentionné d’autres effets positifs par rapport à leur expérience de soins par la thérapie hyperbare, notamment sur la spasticité. Une mère (participante 8) par exemple, a mentionné que sa fille avait les jambes « moins raides » et marchait mieux à la suite des séances d’OHB, alors qu’une autre (participante 7) a mis l’accent sur le fait que la réduction de la spasticité permettait à sa petite fille « de jouer avec ses jambes [...] [et d’] essayer de manger [ses] orteils ». Un autre parent (participant 8) a rapporté ceci : « [...] à ma fille [...] ça lui enlevait des raideurs dans les muscles. [...] ses jambes étaient moins spastiques, plus molles. [...] après nos 20 rencontres [...] elle reprenait des forces. [...] je trouvais qu’il y avait une différence dans sa marche [...] [et] qu’elle était plus allumée, plus spontanée, plus éveillée. [...] J’aurais aimé que ça continue ». Le jeune adulte interviewé (participant 10) a également souligné qu’il n’aurait sûrement pas marché sans l’OHB : « [...] je serais peut-être plus spastique [sans ces traitements et], peut-être qu’aujourd’hui je serais en fauteuil à vie ». Une amélioration de la motricité fine a aussi été rapportée (participant 4) dans le cas d’une fillette qui a amélioré sa capacité d’ouverture des mains pour « prendre des petits objets ».

Plusieurs parents ont également rapporté une autonomie accrue de leur enfant pour manger à la suite des traitements hyperbares. Un parent (participant 6) a illustré ainsi le changement chez son fils : « [avant l’OHB, sa] nourriture [...] [devait être en] purée lisse parce qu’il s’étouffait, puis, là, tout d’un coup, il a été capable de manger, juste écrasée à la fourchette puis coupée en petits morceaux pour la viande [...] ».

Pour les parents utilisateurs de la thérapie hyperbare, tous les petits gains sont considérés comme excessivement importants; à long terme, ces gains apportent selon eux une meilleure qualité de vie à l’enfant et à l’ensemble de la famille. En effet, selon une mère (participante 3), le fait que sa fille soit maintenant capable de se tourner seule dans son lit, de boire et de manger seule « ça valait le 35 000 piastres [dépensé pour le caisson hyperbare] [...], [ça améliore la] qualité de vie autant pour elle que pour moi [...] ». La liberté de boire toute seule [...] ce n’est pas un luxe [...] ». Pour certains parents, il n’est toutefois pas clair de savoir si les effets perçus à la suite d’une thérapie hyperbare résulteraient spécifiquement des traitements hyperbares, des traitements usuels reçus simultanément ou encore de l’évolution normale de leur enfant.

Enfin, l'innocuité de l'OHB ou de l'AHB n'apparaît pas comme un sujet de préoccupation importante pour la plupart des parents utilisateurs interviewés. Ces personnes considèrent de façon générale que ces traitements sont sécuritaires, sans grands effets négatifs (outre quelques problèmes mineurs touchant les oreilles et les sinus).

4.3.1.2. Perspective des parties prenantes

Les personnes consultées sur leur perspective face à l'OHB/AHB ont des avis partagés. Certains professionnels de la santé consultés soutiennent qu'ils ne savent pas toujours quoi répondre aux parents qui demandent leur opinion sur la thérapie hyperbare : « C'est vraiment un mystère dans ma tête encore. Ça fait que quand le parent arrive avec cette question-là, je suis toujours un peu mal prise, puis c'est sûr qu'on n'a pas de ligne [directrice] claire dans l'établissement à ce sujet-là ».

Quelques professionnels de la santé consultés sont ouverts à la possibilité que l'OHB ou l'AHB puisse apporter des avantages aux enfants qui ont une paralysie cérébrale, mais se questionnent sur ses effets réels – l'amélioration des capacités des enfants étant, pour un certain nombre d'entre eux, peu (voire aucunement) perçue – et sur son utilisation à long terme chez cette clientèle, alors que d'autres se questionnent sur le profil clinique précis des enfants chez lesquels l'OHB ou l'AHB pourrait fonctionner.

Selon certains représentants de parents d'enfants avec une paralysie cérébrale et des représentants des cliniques privées d'OHB, les traitements hyperbares permettent d'obtenir de bons résultats chez les enfants, tout en constituant une expérience agréable pour la famille. Ils ont notamment souligné que l'OHB ou l'AHB pourrait améliorer les capacités motrices de certains enfants. Ils ont rapporté, par exemple, le cas d'un enfant n'ayant plus eu besoin de son fauteuil roulant après des séances d'OHB; celui d'un autre ayant amélioré son score au GMFCS, passant du niveau III au niveau II. De plus, des améliorations sur le plan langagier ont aussi été soulignées par certains des représentants de ces parties prenantes. En particulier, ils ont rapporté que des enfants ont commencé à prononcer des mots ou faire des phrases après un certain nombre de séances, alors que certains ne prononçaient pas du tout de mots avant les traitements.

Tant des professionnels de la santé consultés que des représentants de parents d'enfants avec une paralysie cérébrale et des représentants de cliniques privées d'OHB ont tenu toutefois à spécifier que plusieurs enfants continuent de recevoir leurs traitements usuels lorsqu'ils ont recours à la thérapie hyperbare, ce qui rend difficile la tâche de départager les effets, rejoignant ainsi la perspective de certains parents interviewés. Pour des professionnels de la santé et certains représentants de parents d'enfants avec une paralysie cérébrale consultés, il est possible que les traitements usuels puissent être plus efficaces lorsqu'ils sont combinés à l'OHB ou à l'AHB. Or, selon certains de ces professionnels, les effets perçus ont fort probablement un effet positif sur la qualité de vie des enfants et de leurs parents, comme l'illustre ce professionnel : « [...] le parent qui vit un mini-changement, [...] pour lui, ça fait toute la différence; ça fait des différences dans ses humeurs, ça fait de la différence sur son sentiment d'avoir pu faire quelque chose pour son enfant [...] c'est comme une cascade ».

En ce qui a trait à l'innocuité de l'intervention, des représentants des cliniques privées ont souligné que les traitements d'OHB offerts dans ces cliniques sont généralement bien

tolérés et entraînent très peu de complications (généralement des problèmes d'équilibre de la pression dans l'oreille moyenne). À leur avis, les complications seraient liées à trois causes principales, soit une formation insuffisante des opérateurs, une préparation inadéquate du patient et un taux de pressurisation ou de dépressurisation inapproprié.

Concernant les traitements donnés à domicile par les parents, des représentants des cliniques privées jugent minimes les risques et les effets indésirables associés à l'utilisation des caissons portatifs légèrement pressurisés (AHB) lorsque les parents comprennent bien le fonctionnement et le maîtrisent bien. À cet égard, ils ont souligné que, lors de la location, les parents seraient informés sur l'utilisation adéquate du caisson. Ces représentants ont toutefois reconnu que certaines personnes seraient plus sensibles à la pression dans les premiers jours d'utilisation (p. ex : barotraumatisme de l'oreille) mais qu'avec le temps, elles apprendraient à mieux contrôler l'appareil – notamment à la période de pressurisation – et à tolérer la pression. Un certain nombre de professionnels de la santé consultés ont toutefois exprimé des inquiétudes relatives aux effets indésirables potentiels associés à l'utilisation des caissons portatifs à domicile.

4.3.1.3. Forces et limites des consultations auprès de parents et de parties prenantes

Des entretiens de groupe auprès de parties prenantes et des entrevues individuelles auprès de parents d'un enfant avec une paralysie cérébrale et d'un jeune adulte qui en est atteint ont permis de réaliser ce portrait sommaire de l'expérience d'utilisation de l'OHB-AHB au Québec. Les données recueillies illustrent différentes perspectives à cet égard, mais également en ce qui a trait aux effets de cette intervention sur la qualité de vie des enfants avec une paralysie cérébrale et de leur famille ainsi que sur leur expérience de soins dans le système de santé et de services sociaux (présentée dans le chapitre 3). Bien que, globalement, le nombre total de répondants consultés ait été jugé suffisant (10 consultations individuelles et 5 consultations de groupe), il est impossible d'affirmer que l'ensemble des points de vue et expériences vécues au Québec en lien avec l'OHB dans la prise en charge d'enfants avec une paralysie cérébrale a été capté chez toutes les parties prenantes, jeunes adultes avec une paralysie cérébrale ou parents. La description de chaque idée associée à chacun des thèmes et l'analyse « transversale » de ces idées entre participants ne sont données qu'à titre indicatif³⁸.

³⁸ L'annexe I : *Forces et limites des consultations*, donne davantage de précisions.

5. RÉSULTATS SUR L'EFFICACITÉ ET L'INNOCUITÉ ET EFFETS SUR LA QUALITÉ DE VIE

5.1. Données probantes tirées de la littérature scientifique

5.1.1. Résultats de la recherche documentaire

Parmi les documents publiés au cours de la période couverte par la revue de la littérature, 10 études présentaient les critères d'inclusion établis et ont été retenues pour évaluer la valeur thérapeutique de l'OHB chez les enfants avec une paralysie cérébrale (voir le tableau 5). L'équipe de projet a choisi de retenir tout devis d'étude (randomisée ou avant-après, avec ou sans groupe comparatif), étant donné le peu de documents publiés sur le sujet. Parmi les études retenues figurent quatre ECR (dont une faisant l'objet de trois publications), une étude comparative avant-après (ECAA) et cinq études non comparatives avant-après (ENCAA). Toutes ces études évaluent l'efficacité de l'OHB, dont quatre études ont aussi pour objectif d'en évaluer l'innocuité. Cependant, aucune étude n'évalue les effets de l'intervention sur la qualité de vie (voir le tableau 5). Précisons que quatre études ont été réalisées en Amérique du Nord [Lacey *et al.*, 2012; Waalkes *et al.*, 2002; Collet *et al.*, 2001; Montgomery *et al.*, 1999]; les autres études ont été menées en Asie (Inde, Chine), au Moyen-Orient ou en Europe de l'Est.

Tableau 5 Questions clés d'évaluation traitées dans les études sélectionnées et retenues

ÉTUDES		ÉVALUATION		
		EFFICACITÉ	INNOCUITÉ	QUALITÉ DE VIE
ECR				
1	Azhar <i>et al.</i> , 2017	X	X	
2	Lacey <i>et al.</i> , 2012	X	X	
3	Sethi et Mukherjee, 2003	X		
4	Collet <i>et al.</i> , 2001 Hardy <i>et al.</i> , 2002 Muller-Bolla <i>et al.</i> , 2006	X	X	
ECAA				
5	Mukherjee <i>et al.</i> , 2014	X		
ENCAA				
6	Jovanovic <i>et al.</i> , 2017	X		
7	Long <i>et al.</i> , 2017	X	X	
8	Katanani, 2012	X		
9	Waalkes <i>et al.</i> , 2002	X		
10	Montgomery <i>et al.</i> , 1999	X		

ECAA : étude comparative avant-après; ECR : essai clinique randomisé; ENCAA : étude non comparative avant-après

5.1.1.1. Évaluation des technologies de la santé (ETS)

En 2007, à la demande du MSSS, l'AETMIS a procédé à une mise à jour d'un rapport produit en 2000 par le CETS sur l'utilisation de l'OHB au Québec, et plus particulièrement pour le traitement de la paralysie cérébrale. Les principales conclusions du rapport de l'AETMIS [2007] étaient les suivantes :

- l'efficacité de l'OHB pour le traitement de la paralysie cérébrale n'a pas été démontrée scientifiquement à ce jour, et l'incertitude persiste;
- en l'absence de cette démonstration scientifique, ce traitement doit demeurer expérimental pour le moment;
- les résultats de l'ECR québécois [Collet *et al.*, 2001] indiquent toutefois qu'il est possible que la thérapie hyperbare (avec ou sans apport d'oxygène) soit associée à des améliorations significatives de l'état des enfants au chapitre des fonctions motrices et neuropsychologiques, du langage et de la parole ainsi que de la performance fonctionnelle;
- d'autres études comparatives rigoureuses devront s'ajouter aux études états-uniennes en cours pour apporter la réponse définitive à la question de l'efficacité de l'OHB pour le traitement de la paralysie cérébrale.

L'AETMIS recommandait notamment que l'OHB, pour la prise en charge de la paralysie cérébrale, fasse l'objet d'un projet de recherche subventionné.

Outre l'ETS de l'AETMIS, deux autres ETS pertinentes sur le sujet ont été publiées [Washington State Health Care Authority, 2013; McDonagh *et al.*, 2003]. Les auteurs des deux rapports ont jugé que les preuves scientifiques étaient insuffisantes pour recommander l'utilisation de l'OHB chez cette clientèle ou pour considérer que cette utilisation est efficace pour traiter ces enfants ou améliorer leur état.

5.1.1.2. Guides de pratique, lignes directrices et autres

Une recherche dans la littérature grise a permis de repérer les documents suivants : deux guides de pratique de l'OHB ont été publiés, sous forme de rapport de conférence consensuelle. L'ECHM (en 2016) [Mathieu *et al.*, 2017] et l'UHMS [2014] ont émis des recommandations sur les indications, les non-indications (indications non acceptées ou non recommandées) et la pratique de l'OHB. Au Canada, l'ACMHS a publié, en 2015, un guide de pratique sur la médecine hyperbare et les conditions d'encadrement requises [CUHMA, 2015]. Aucun des guides ne reconnaît la paralysie cérébrale comme une indication d'utilisation de l'OHB.

En ce qui a trait à la prise en charge de la paralysie cérébrale, en 2017, au Royaume-Uni, le National Institute for Health and Care Excellence (NICE) a publié des lignes directrices visant la clientèle de moins de 25 ans [NICE, 2017]. Le gouvernement de la Nouvelle-Galles-du-Sud (Australie) a aussi publié, en 2018, un guide destiné aux professionnels de la santé qui prennent en charge des enfants avec une paralysie cérébrale [NSW Ministry of Health, 2018]. Aucun d'eux ne mentionne l'utilisation de l'OHB pour traiter cette affection.

5.1.1.3. Études en cours

Une seule étude jugée pertinente a été repérée sur le site Prospero (enregistrée le 5 février 2019; CRD42019122706), soit une revue systématique avec méta-analyse, laquelle est toujours en cours.

5.1.2. Qualité méthodologique des études

La qualité méthodologique de la plupart des études, évaluée à l'aide d'outils validés, a été jugée faible; celle de deux ECR a toutefois été jugée adéquate (moyenne [Lacey *et al.*, 2012] et élevée [Collet *et al.*, 2001]) (voir l'annexe E).

Bien qu'elles présentent des forces appréciables (randomisation en double aveugle; intervention à l'insu des thérapeutes; observation à quatre moments différents [une fois avant l'intervention et trois fois après l'intervention]; outils de mesure valides et fidèles), quelques limites ont toutefois été relevées concernant ces deux ECR, dont les suivantes. Malgré qu'il soit admis que la paralysie cérébrale constitue en soi une situation clinique hétérogène, le profil clinique des participants sélectionnés présentait une hétérogénéité, en termes de topologie et de gravité de l'atteinte, qui complexifiait l'analyse des données. De plus, l'exclusion de certains profils remettait en question leur pertinence (p. ex. les cas d'encéphalopathie hypoxique-ischémique néonatale étaient exclus dans l'étude de Lacey [2012]). Par ailleurs, le groupe témoin était soumis à une intervention en caisson hyperbare où l'air est légèrement pressurisé (AHB)³⁹, et il peut être discutable que cela puisse ou non avoir des effets cliniques sur les enfants concernés⁴⁰. Selon la stratégie de recherche préconisée, Collet et ses collaborateurs [2001] ont requis la cessation de la médication et des thérapies de réadaptation, quelques semaines avant le début de l'étude, alors que Lacey et ses collaborateurs [2012] ne l'ont pas exigé. Quoique l'utilisation combinée de traitements de réadaptation et d'OHB soit davantage représentative de la réalité des enfants avec une paralysie cérébrale – soumis à une diversité de thérapies au quotidien –, cela pose problème dans les études parce qu'il est ainsi plus ardu de distinguer les effets de ces traitements de ceux pouvant être attribuables à l'OHB. De plus, bien que les auteurs de ces études aient pris le soin de calculer la taille minimale requise pour former les groupes à comparer pour obtenir le résultat d'intérêt principal – la motricité globale –, il faut préciser que la taille des échantillons est petite (111 sujets et 46 sujets respectivement). Pour effectuer l'évaluation des résultats d'intérêt secondaires (p. ex. l'autonomie), les conditions d'admissibilité pour l'utilisation des outils de mesure choisis (p. ex. l'âge minimal ou

³⁹ On désigne par AHB une intervention en caisson hyperbare (donc avec augmentation, généralement légère, de la pression ambiante), mais sans apport d'oxygène à une concentration élevée (soit autour de 100 %); les patients respirent donc l'air ambiant (concentration normale d'oxygène, soit autour de 21 %).

⁴⁰ La notion de placebo et de traitement simulé est un sujet de discussion intense concernant l'utilisation de l'OHB chez les enfants avec une paralysie cérébrale. Une intervention à l'aide d'un traitement simulé ou d'un placebo ne devrait pas produire d'effets directs sur l'état des patients concernés par l'étude, tout en ne permettant pas aux chercheurs (et aux participants) de distinguer cette intervention de celle à l'étude [Lansdorp et van Hulst, 2018; Bennett, 2014; Efrati et Ben-Jacob, 2014b].

maximal requis) faisaient en sorte qu'un nombre de participants encore plus restreint étaient retenus; par conséquent, les résultats s'en trouvaient moins précis.

En ce qui concerne les autres études, celles-ci comportaient plusieurs limites pouvant conduire à des biais de sélection, de mesure et de confusion⁴¹. Dans la seule ECAA, qui comporte quatre groupes comparateurs, le groupe témoin n'est soumis ni à l'OHB, ni à l'AHB et ne reçoivent que des thérapies de réadaptation. Il faut toutefois préciser que les groupes comparateurs ne comportent pas un nombre similaire de participants (faible nombre, variant de 20 dans le groupe témoin à 58), et qu'ils présentent des proportions variables de chaque type de paralysie cérébrale représenté⁴², ce qui peut conduire à des imprécisions statistiques. De plus, cette étude a été menée sur une période de 10 ans; l'intervention et le protocole étaient donc ceux alors en vigueur au moment de l'inclusion des participants à l'étude; les parents pouvaient choisir d'inclure ou non leur enfant dans le groupe expérimental. Enfin, tous les enfants recevaient des thérapies de réadaptation intensive en parallèle.

Les deux ECR de faible qualité méthodologique comportaient diverses limites, notamment en ce qui a trait à la clarté des critères de sélection et de randomisation des participants, du profil clinique des enfants inclus à l'étude, de la durée de suivi en post-intervention (notamment dans l'ECR de Azhar [2017]), des différents moments où les mesures ont été effectuées chez des enfants. La présentation des résultats manque de précisions.

Parmi les limites constatées dans l'ensemble des études avant-après sans groupe comparatif dont la qualité méthodologique est jugée faible, on trouve : des échantillons de petite taille, des outils de mesure dont certains ne sont pas validés (voire inconnus), la présence de traitements en concomitance avec l'OHB; à cela s'ajoutent le manque, l'imprécision ou l'inexactitude de certaines informations, telles que les caractéristiques des enfants inclus dans l'étude ainsi qu'un manque de concordance entre les données présentées dans le texte et celles incluses dans les tableaux. Un devis pré-intervention et un devis post-intervention limitent aussi l'interprétation possible des résultats, parce qu'on ne peut pas discerner l'évolution naturelle des enfants suivis.

Il importe aussi de préciser que divers éléments rendent ardue la comparaison des études entre elles : écarts entre les différents niveaux de pression et les concentrations d'oxygène dans les protocoles d'OHB, le nombre et la durée des séances de traitement, la durée et l'intensité du traitement d'OHB et la durée du suivi post-traitement (voir le tableau 6); variabilité dans les tranches d'âge incluses; divergences dans les critères d'inclusion et d'exclusion des participants (certaines études étant plus restrictives que d'autres, par exemple les causes de la paralysie cérébrale ou la présence de

⁴¹ Selon les experts consultés, les principaux facteurs de confusion à considérer sont : l'âge, le score GMFM initial ou le niveau de gravité de l'atteinte (GMFCS), le type de paralysie cérébrale ainsi que le niveau de développement cognitif. Toutefois, les interventions en concomitance, le niveau d'éducation de la mère ainsi que le niveau de gravité des déficiences peuvent aussi influencer les résultats.

⁴² Le groupe comportait la plus forte proportion d'enfants quadriplégiques, soit 60 %, alors que celui soumis au protocole de 1,3 ATA en comportait la plus faible (30 %).

comorbidité); diversité des topologies de paralysie cérébrale utilisées pour décrire les enfants inclus dans les études; diversité des outils de mesure utilisés pour un même résultat d'intérêt (voir l'annexe F pour obtenir plus de détails).

5.1.2.1. Perspective des experts

De façon générale, les experts consultés approuvent majoritairement la plupart des conclusions relatives aux limites des études ci-haut mentionnées et l'évaluation de la qualité méthodologique qui en a été faite, bien que certains soient d'avis que les ECR de Collet [2001] et de Lacey [2012] auraient difficilement pu être mieux conçus et réalisés. Ils mentionnent également que, dans l'ensemble des études retenues, la paralysie cérébrale et les groupes d'enfants évalués ne sont pas toujours clairement définis – notamment en ce qui a trait au type de paralysie cérébrale et aux atteintes concomitantes (comorbidité) associées qu'ils présentent (p. ex : le GMFCS est fort peu utilisé pour témoigner de la gravité de l'atteinte). Selon l'avis de certains experts, le profil clinique des enfants recrutés ne serait pas comparables au profil de ceux qui utilisent l'OHB (ou l'AHB) actuellement au Québec, notamment en ce qui a trait au type de paralysie cérébrale (les utilisateurs québécois sont généralement atteints d'une diplégie ou d'une quadriplégie, comparativement à l'hémiplégie évaluée dans les études d'Azhar [2017], de Mukherjee [2014], de Lacey [2012] et de Collet [2001]) et au degré de gravité (celui du GMFCS est souvent de III à V chez les utilisateurs québécois et non de I et II, comme il est évalué dans Jovanovic [2017], Long [2017] et Lacey [2012]).

De plus, certains experts ont soulevé le peu d'études de faible qualité dans lesquelles les groupes ont été ajustés en fonction des principaux facteurs de confusion.

Par ailleurs, les perspectives quant aux groupes témoins considérés comme adéquats sont divergentes parmi des experts consultés. Certains soutiennent que dans le domaine de la réadaptation, il est souvent difficile, voire impossible de réaliser des études en double aveugle et de faire des études comparatives. D'autres soulignent l'importance de considérer aussi bien les études avant-après que les ECR pour démontrer les effets réels de l'intervention (OHB ou AHB).

Enfin, certains ont relevé que la présence d'un parent auprès de l'enfant pendant les séances d'OHB (ou AHB) est fréquente dans les études, et un effet potentiel probablement favorable sur les effets observés ne peut être exclu.

Tableau 6 Description des protocoles d'intervention

ÉTUDES		PROTOCOLE			
		OXYGÈNE (%)	PRESSION (ATA)	SÉANCES (NOMBRE ET DURÉE)	SUIVI POST-TRAITEMENT
ECR					
1	Azhar <i>et al.</i> , 2017*	100 (OHB)	1,5 (OHB)	5 cycles de 40 séances/8 sem.; 1 séance = 60 min/jr; 5 jrs/sem.	—
2	Lacey <i>et al.</i> , 2012	100 (OHB) 14 (AHB)	1,5 (OHB ou AHB)	1 cycle de 40 séances/8 sem.; 1 séance = 60 min/jr; 5 jrs/sem.	3 et 6 mois (mesure après 40 séances)
3	Sethi et Mukherjee, 2003†	100 (OHB)	1,75 (OHB)	1 cycle de 40 séances; Une séance = 60 min/jr; 6 jrs/sem.	—
4	Collet <i>et al.</i> , 2001; Hardy <i>et al.</i> , 2002; Muller-Bolla <i>et al.</i> , 2006	100 (OHB) 21 (AHB)	1,75 (OHB) 1,3 (AHB)	1 cycle de 40 séances/8 sem.; 1 séance = 60 min/jr; 5 jrs/sem.	3 mois (mesure après 20 et 40 séances)
ECAA					
5	Mukherjee <i>et al.</i> , 2014‡	100 (OHB) 21 (AHB)	1,5 (OHB) 1,75 (OHB) 1,3 (AHB)	1 cycle de 40 séances/7 sem.; 1 séance = 60 min/jr; 6 jrs/sem.	4 et 6 mois (2 et 8 mois, si possible)
ENCAA					
6	Jovanovic <i>et al.</i> , 2017§	100 (OHB)	1,55 (OHB)	4 cycles de 30 séances/6 sem. + pause de 6 sem.; 1 séance = 60 min/jr; 5 jrs/sem.	3, 6, 9 et 12 mois (mesure après chaque traitement de 30 séances)
7	Long <i>et al.</i> , 2017	100 (OHB)	1,6 (OHB)	1 cycle de 15 à 20 séances/3 à 4 sem. 1 séance = 50 min/jr; 5 jrs/sem.	1 à 3 ans (mesure après 10 et 20 séances)
8	Katanani, 2012	100 (OHB)	1,3 (OHB) 1,75 (OHB)	1 cycle de 40 séances; 1 séance = 60 min	—

ÉTUDES		PROTOCOLE			
		OXYGÈNE (%)	PRESSION (ATA)	SÉANCES (NOMBRE ET DURÉE)	SUIVI POST-TRAITEMENT
9	Waalkes <i>et al.</i> , 2002	100 (OHB)	1,7 (OHB)	1 cycle de 80 séances; 1 séance = 60 min/jr; 5 jrs/sem.	— (Mesure après 20, 40, 60 et 80 séances, sauf dans le questionnaire maison : après 40 et 80 séances)
10	Montgomery <i>et al.</i> , 1999	100 (OHB)	1,75 (OHB)	<u>2 centres</u> : (a) 1 cycle de 20 séances/4 sem.; 1 séance = 60 min/jr; 5 jrs/sem. (b) 1 cycle de 20 séances/2 sem.; 1 séance = 2 x 60 min/jr; 5 jrs/sem.	—

AHB : air légèrement pressurisé (en anglais *hyperbaric air* ou HBA); ATA : atmosphère absolue; ECAA : étude comparative avant-après; ECR : essai clinique randomisé; ENCAA : étude non comparative avant-après; h : heures; jr(s) : jour(s); min : minutes; OHB : oxygénothérapie hyperbare; sem. : semaine

* Intervention concomitante : physiothérapie

† Intervention concomitante : ergothérapie

‡ Interventions concomitantes (2 h/jr – 4 x 30 min de chacune des thérapies suivantes pendant 6 mois) : physiothérapie, ergothérapie, orthophonie, éducation spécialisée en présence et en absence de l'intervention principale

§ Interventions concomitantes (4 h/sem.) : physiothérapie et ergothérapie

|| Interventions concomitantes : physiothérapie, ergothérapie et orthophonie

5.1.3. Méta-analyse

Des méta-analyses ont été réalisées, en incluant les deux ECR dont la qualité est jugée adéquate pour augmenter la puissance statistique [Lacey *et al.*, 2012; Collet *et al.*, 2001]. Considérant que les études avant-après étaient nombreuses, mais de faible qualité, elles ont été considérées à titre exploratoire, lorsqu'elles étaient pertinentes, dans une analyse secondaire présentée dans l'annexe G. Les résultats d'intérêt retenus selon la disponibilité des études sont l'évaluation de la motricité globale à l'aide du GMFM-88 ainsi que le développement des compétences fonctionnelles à l'aide du PEDI (soins personnels, mobilité et fonctionnement social). En raison du petit nombre d'études, les biais de publication n'ont pas pu être évalués à l'aide du graphique en entonnoir (*funnel plot*).

L'exercice demeure tout de même limité par un certain nombre de points, ce qui exige une interprétation prudente des résultats.

Les caractéristiques des populations et des protocoles de traitement utilisés dans les deux études ne sont pas les mêmes. De plus, des analyses de sensibilité selon des facteurs tels que les niveaux de pression utilisés et les traitements concomitants n'ont

pas pu être effectuées, alors que ces facteurs peuvent influencer sur l'efficacité. Par conséquent, il est impossible de déterminer leur effet sur les résultats de la méta-analyse.

5.2. Efficacité de l'OHB

5.2.1. Évaluation de la fonction motrice – motricité globale

La motricité globale est le résultat d'intérêt principal de l'ensemble des études retenues, à l'exception d'une ENCAA [Long *et al.*, 2017]. Elle correspond à l'une des cinq grandes sphères du développement de l'enfant⁴³ et regroupe les comportements moteurs qui sollicitent la participation de l'ensemble du corps et qui font appel à l'intervention de grands groupes musculaires [Rigal, 2003]. Si le GMFM (88 ou 66) a été l'outil de mesure de la motricité le plus couramment retenu, d'autres outils ont aussi été utilisés dans les études repérées, dont certains peuvent prêter à une interprétation subjective des résultats rapportés (voir le tableau 8).

5.2.1.1. Outils de mesure utilisés

Le test GMFM est l'instrument de mesure le plus utilisé pour évaluer la motricité fonctionnelle globale au fil du temps chez les enfants avec une paralysie cérébrale [Russell *et al.*, 2003; Rosenbaum *et al.*, 2002; Wood et Rosenbaum, 2000]. La fidélité et la validité du test initial, composé de 88 items, ont été démontrées par le groupe du CanChild Centre for Childhood Disability Research de l'Université McMaster (Ontario, Canada) [Rosenbaum *et al.*, 2002; Russell *et al.*, 1989] et aussi par d'autres auteurs [Nordmark *et al.*, 1997]. Une version plus récente, le GMFM-66, se compose de 66 items de la version originale (après une analyse selon le modèle Rash) et est aussi utilisée et validée [Alotaibi *et al.*, 2014; Russell *et al.*, 2003]. Ces outils évaluent la performance de l'enfant selon 5 dimensions : (1) se coucher et rouler; (2) s'asseoir; (3) ramper et s'agenouiller; (4) se tenir debout; (5) marcher, courir et sauter. Le GMFM-88 donne une cotation par domaine ainsi qu'une cotation totale, comparativement au GMFM-66 où seule une cotation globale est donnée et où le calcul du score requiert le logiciel GMAE (Gross Motor Ability Estimator).

L'utilisation du GMFM-88 doit être priorisée pour évaluer les enfants en bas âge ayant des incapacités motrices graves dans des domaines spécifiques ou encore lorsque l'on s'intéresse aux effets des aides ambulatories sur la motricité globale. Toutefois, l'utilisation du GMFM-66 doit être priorisée, notamment dans un contexte où l'enfant refusera de réaliser certains mouvements qu'il est normalement capable de faire, lorsque la période d'évaluation est courte, pour préciser un diagnostic ou établir un pronostic en utilisant les courbes d'évolution motrice [Beckers et Bastiaenen, 2015; Alotaibi *et al.*, 2014].

En complément du GMFM, un questionnaire a été utilisé par Waalkes et ses collaborateurs [2002], tout comme Montgomery et ses collaborateurs [1999]. Dans une

⁴³ Portail Enfance et Familles. Notions essentielles [site Web]. Disponible à : <http://www.portailenfance.ca/wp/modules/troubles-du-developpement/notions-essentielles/> (consulté le 12 juin 2019).

étude [Waalkes *et al.*, 2002], les parents remplissaient le questionnaire avant et après 40 séances puis 80 séances d'OHB afin de quantifier le niveau d'autonomie de l'enfant pour effectuer les mouvements suivants : s'asseoir par terre et sur une chaise, se traîner, marcher. Dans l'autre [Montgomery *et al.*, 1999], le questionnaire était administré à un parent par un physiothérapeute et cherchait aussi à quantifier le niveau d'autonomie de l'enfant pour effectuer les mêmes mouvements que ceux évalués par Waalkes [2002], y compris marcher sur les genoux.

Des enregistrements vidéo ont aussi été réalisés avant l'étude et à différentes étapes de l'étude pour permettre l'analyse, en fin d'étude, de la mobilité et de la motricité globale des enfants (exemples donnés : s'asseoir, se tenir debout, marcher et se rouler; [Waalkes *et al.*, 2002]). L'enregistrement vidéo a aussi été utilisé avant et après l'intervention par Montgomery [1999] pour que des physiothérapeutes en pédiatrie analysent à l'aveugle, en fin d'étude, la performance des enfants à accomplir diverses tâches de motricité globale (similaires à celles évaluées à l'aide du GMFM et par Waalkes [2002]).

Sethi et Mukherjee [2003] ont quant à eux utilisé l'échelle Norton's Basic Motor Evaluation Scale pour évaluer la motricité globale, un outil de mesure qui n'est pas décrit dans l'étude.

5.2.1.2. Résultats tirés des études retenues

La majorité des études, quel qu'en soit le devis, montre une tendance à l'amélioration de la motricité globale après un traitement d'OHB, comparativement à avant ce traitement (voir le tableau 7 et l'annexe F). Dans l'ECR de Collet [2001], aucune différence significative entre les groupes n'a toutefois été observée, sauf concernant la dimension 5 (marcher, courir, sauter), à l'avantage du groupe AHB – ce qui pourrait s'expliquer par la proportion plus forte d'enfants quadriplégiques dans le groupe OHB. Les auteurs ont également relevé que les plus grands changements ont été observés chez les enfants dont le score au GMFM est relativement faible avant l'intervention. L'âge ne semble pas constituer un facteur d'influence sur les écarts dans les scores relevés. Dans l'ECR de Lacey [2012], aucune différence significative intra- et intergroupe relativement au score global ou au score associé à l'une ou l'autre des cinq dimensions mesurées à l'aide du GMFM n'a été rapportée. Seulement trois participants ont obtenu une variation de leur score de plus de 5 % (considéré par les auteurs comme le changement minimal requis pour être cliniquement significatif). Les auteurs spécifient qu'après un suivi de six mois, une différence statistiquement significative entre les scores a été rapportée concernant la dimension 5 du GMFM à l'avantage des enfants du groupe AHB (tout comme dans l'étude de Collet [2001]). Dans les deux ECR, bien que les mesures d'oxygène et de pression soient légèrement différentes dans le groupe témoin (1,3 ATA/21 % O₂ [Collet *et al.*, 2001]; 1,5 ATA et un mélange de gaz [14 % O₂] [Lacey *et al.*, 2012]), celui-ci s'améliore donc, tout comme dans le groupe traité par l'OHB.

D'autres études, où le risque de biais est élevé, ont rapporté une amélioration de la motricité globale des enfants ayant reçu l'OHB [Azhar *et al.*, 2017; Jovanovic *et al.*, 2017; Mukherjee *et al.*, 2014; Katanani, 2012; Sethi et Mukherjee, 2003; Waalkes *et al.*, 2002;

Montgomery *et al.*, 1999]. Mukherjee et ses collaborateurs [2014] ont rapporté, dans l'ensemble des groupes comparés, mais de façon plus marquée dans les trois groupes qui ont reçu l'AHB ou l'OHB, une amélioration des scores du GMFM dans le temps et, contrairement à ce que relevaient Lacey [2012], un effet de l'âge sur les changements. Montgomery et ses collaborateurs [1999], quant à eux, ont rapporté une amélioration plus importante du score global du GMFM (plus de 10 %) chez les enfants dont le score initial était faible, une amélioration aussi relevée par Collet [2001].

Tableau 7 Évaluation de l'efficacité de l'OHB pour améliorer la motricité globale

OUTIL DE MESURE	ÉTUDE (TYPE D'ÉTUDE)	N SUJETS; ÂGE	RÉSULTATS (Comme ils ont été présentés dans les articles)
Gross Motor Function Measure (GMFM)-88	Lacey <i>et al.</i> , 2012 (ECR)	46; 3 à 8 ans	<u>Post-OHB (40 séances)*</u> OHB : 1,5 (IC à 95 %; -0,3 à 3,3), p = 0,105 AHB : 0,6 (IC à 95 %; -1,0 à 2,2), p = 0,467 Intergroupe : 0,9 (IC à 95 % -1,5 à 3,3), p = 0,539
	Collet <i>et al.</i> , 2001 (ECR)	111; 3 à 12 ans	<u>Post-OHB (40 séances)*</u> OHB : 2,9 (IC à 95 %; 1,9 à 3,9) AHB : 3,0 (IC à 95 %; 2,1 à 3,9) Intergroupe : -0,4 (IC à 95 % -1,7 à 0,9), p = 0,544 <u>Après un suivi de 3 mois*</u> OHB : 3,4 (IC à 95 %; 2,2 à 4,5) AHB : 3,1 (IC à 95 %; 2,2 à 4,1) Intergroupe : 0,0 (IC à 95 %; -1,5 à 1,5), p = 0,966
	Jovanovic <i>et al.</i> , 2017 (ENCAA)	52; 3 à 7 ans	<u>Post-OHB (30, 60, 90 et 120 séances)</u> Scores globaux moyens avant et après l'intervention non disponibles p = 0,000 [†]
	Waalkes <i>et al.</i> , 2002 (ENCAA)	7; 1 à 16,8 ans	<u>Post-OHB (80 séances)</u> Amélioration du score global moyen : 0 à 20 séances : 26,7 %, 0 à 40 séances : 45,6 %, 0 à 60 séances : 48,0 %, 0 à 80 séances : 58,1 %; p < 0,05 [§]
	Montgomery <i>et al.</i> , 1999 (ENCAA)	25 [¶] ; 3 à 8 ans	<u>Post-OHB (20 séances)</u> Amélioration du score global moyen : 5,3 % p < 0,05
GMFM-66	Azhar <i>et al.</i> , 2017 (ECR)	193; 5 à 14 ans	<u>Post-OHB (5 x 40 séances)</u> Scores globaux moyens avant et après l'intervention non disponibles Amélioration du score chez 96 % des enfants du groupe OHB comparativement à 37 % des enfants du groupe témoin, p = 0,000
	Lacey <i>et al.</i> , 2012 (ECR)	46; 3 à 8 ans	<u>Post-OHB (40 séances)*</u> OHB : 1,2 (IC à 95 %; -0,1 à 2,4), p = 0,057 AHB : 1,1 (IC à 95 %; -0,1 à 2,4), p = 0,074 Intergroupe : 0,1 (IC à 95 %; -1,6 à 1,8), p = 0,921
	Mukherjee <i>et al.</i> , 2014 (ECAA)	150; 1 à 17 ans	<u>Post-OHB (40 séances)*</u> Amélioration des scores globaux après suivi de 4 mois : Groupe témoin : 1,4 1,3 ATA (AHB) : 6,6 1,5 ATA (OHB) : 5 1,7 ATA (OHB) : 4,7

OUTIL DE MESURE	ÉTUDE (TYPE D'ÉTUDE)	N SUJETS; ÂGE	RÉSULTATS (Comme ils ont été présentés dans les articles)
			Amélioration des scores globaux après suivi de 6 mois : Groupe témoin : 2,8 1,3 ATA (AHB) : 9 1,5 ATA (OHB) : 8,2 1,7 ATA (OHB) : 9,6 Amélioration dans le temps : $p < 0,001$
Norton's Basic Motor Evaluation Scale	Sethi et Mukherjee, 2003 (ECR)	30; 2 à 5 ans	<u>Post-OHB (40 séances)</u> Amélioration après suivi de 6 mois OHB : avant : 27,06; après : 50,72; écart + 23,66 Groupe témoin : avant : 20,86; après : 36,21; écart + 15,35 Valeur p intragroupe : $p < 0,001$ (chacun)
Enregistrements vidéo	Waalkes <i>et al.</i> , 2002 (ENCAA)	7; 1 à 16,8 ans	<u>Post-OHB</u> Amélioration de la fonction motrice globale chez 3 des 7 enfants
	Montgomery <i>et al.</i> , 1999 (ENCAA)	25 [†] ; 3 à 8 ans	<u>Post-OHB (20 séances)</u> Meilleure mobilité après l'OHB chez 16 des 24 enfants
Questionnaire maison	Katanani, 2012; (ENCAA)	12; 5 à 10 ans	<u>Post-OHB (40 séances)</u> Amélioration de la capacité d'équilibre, de marche et de mobilité (écart de score moyen : + 0,33; valeur p non disponible)
	Waalkes <i>et al.</i> , 2002 (ENCAA)	7; 1 à 16,8 ans	<u>Post-OHB (80 séances)</u> Améliorations de l'amplitude de mouvement rapportée par 5 parents
	Montgomery <i>et al.</i> , 1999 (ENCAA)	25 [†] ; 3 à 8 ans	<u>Post-OHB (20 séances)</u> Amélioration jugée significative de 4 dimensions (marcher, marcher sur les genoux, s'asseoir sur le sol et s'asseoir sur un banc) $p < 0,05$

AHB : air légèrement pressurisé (en anglais *hyperbaric air* ou HBA); ATA : atmosphère absolue; ECAA : étude comparative avant-après; ECR : essai clinique randomisé; ENCAA : étude non comparative avant-après; GMFM : Gross Motor Function Measure; IC : intervalle de confiance; OHB : oxygénothérapie hyperbare

* Écart moyen dans un même groupe (pré-intervention et post-intervention) relatif aux 5 dimensions du GMFM (score global)

† Valeur p de chacune des dimensions 1 et 2 du GMFM chez les enfants de niveau GMFCS V et des dimensions 4 et 5 chez les enfants de niveau GMFCS II

§ Valeur p de chacune des dimensions 1, 2, 3 et 5 du GMFM

|| Valeur p de chacune des dimensions 2, 4 et 5 du GMFM

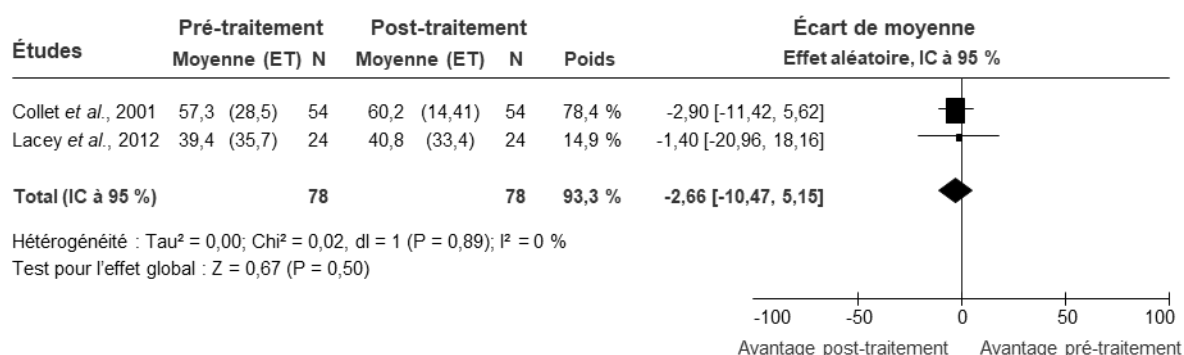
¶ Un enfant n'a pas été évalué post-OHB.

5.2.1.3. Résultats de la méta-analyse

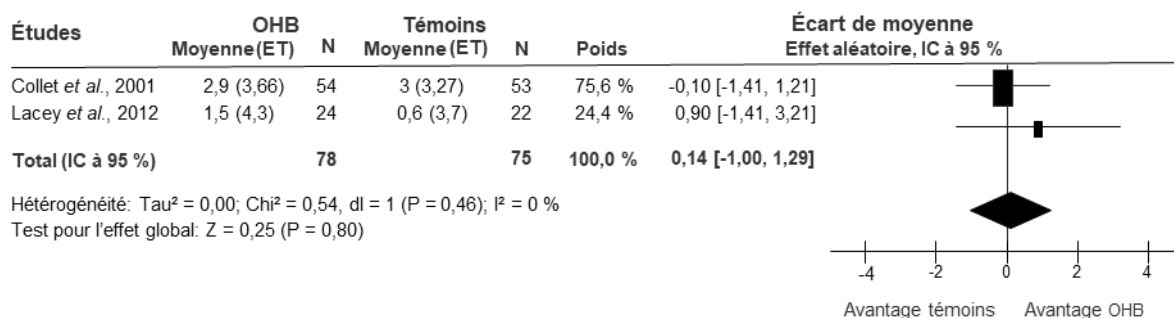
La méta-analyse comprend deux ECR qui ont été combinées [Lacey *et al.*, 2012; Collet *et al.*, 2001]. Les résultats obtenus des différentes analyses effectuées ne montrent aucune différence statistiquement significative entre les scores moyens du GMFM-88 avant et après l'intervention par OHB ou relativement au recours ou non à l'intervention par OHB (voir la figure 1). Les résultats des différentes analyses sont homogènes ($I^2 = 0\%$).

Figure 1 Graphique en forêt représentant l'écart entre les scores du GMFM-88, sous-groupes en fonction du devis et de la qualité des études

1.1. Pré-traitement comparé à l'OHB



1.2. Comparaison à un groupe témoin (méthode des doubles différences)



dl : degré de liberté; ET : écart-type; IC : intervalle de confiance; OHB : oxygénothérapie hyperbare

5.2.1.4. Perspective des experts

De l'avis des experts consultés, les propriétés métrologiques (fidélité et validité) du GMFM-88 et du GMFM-66 sont reconnues. Toutefois, il y a une incertitude concernant la valeur de l'outil Norton's Basic Motor Evaluation Scale, des questionnaires maison et des enregistrements vidéo qui comportent peu ou pas de détails. De plus, selon certains, l'utilisation quantitative qui est faite, dans plusieurs études, des scores des enfants au GMFM 66 ou 88 pour témoigner de l'évolution de leur fonction motrice pose problème, parce que les mesures et l'évaluation de l'évolution de l'enfant à l'aide de ces outils sont

plutôt qualitatives. D'autres mettent en garde aussi quant à l'interprétation des cotes du GMFM, un même écart obtenu à la cotation peut avoir une signification autre, selon les caractéristiques de l'enfant examiné, notamment son âge et la gravité de son état. De plus, l'évolution naturelle attendue, propre à chacun des enfants, ne serait pas bien prise en compte dans les études. Pour mieux distinguer les effets d'une intervention par rapport à l'évolution naturelle attendue, quelques auteurs [Duran *et al.*, 2019; Marois *et al.*, 2016] ont proposé des approches modélisées, telles que celle du Gross Motor Function Measure Evolution Ratio (GMFMER) [Marois *et al.*, 2016]. Cette méthode repose sur les courbes de progression de Rosenbaum [2002], qui ont été obtenues à partir de données d'un groupe témoin historique, groupe qui, selon certains experts consultés, ne correspond pas exactement à un échantillon standard d'aujourd'hui en raison de l'évolution des traitements offerts. Pour utiliser ces courbes, il faut présumer que la population, l'intervention, les traitements concomitants et l'environnement social sont comparables. Bien que, selon plusieurs experts consultés, l'intérêt d'élaborer cet outil est louable, qu'il réponde à une problématique bien réelle et qu'il présente un potentiel intéressant, selon plusieurs autres, l'utilisation du GMFMER apparaît prématurée (au moment de la consultation) en raison d'un manque de précision de la modélisation mathématique, de l'absence de validation de la méthode sur un échantillon indépendant d'enfants avec une paralysie cérébrale et de l'influence de divers facteurs susceptibles de conduire à une amplification de l'évaluation des effets.

5.2.1.5. Qualité de la preuve

Bien qu'il y ait une cohérence dans la direction de l'effet – pour un même outil de mesure utilisé –, des limites importantes associées à l'hétérogénéité des résultats sont relevées, notamment en raison de la diversité des protocoles d'intervention, des critères d'inclusion et d'exclusion ainsi que des caractéristiques des sujets inclus dans les études – caractéristiques par ailleurs rapportées de façon plutôt restreinte –, des outils de mesure utilisés et de la façon dont sont présentés les résultats. Les tranches d'âge des enfants inclus sont également variables. Par ailleurs, dans les études où des traitements usuels de réadaptation sont offerts aux enfants (en concomitance avec l'intervention par OHB ou comme traitements comparateurs), ceux-ci sont très rarement présentés en détail. Comme la plupart de ces études sont effectuées dans des contextes autres que nord-américain, il est difficile de connaître la nature exacte des traitements usuels. Ces limites font en sorte que, globalement, la qualité de la preuve scientifique est jugée faible.

Principaux constats

Les données disponibles montrent :

- *qu'il n'y a aucune différence entre l'effet de l'oxygénothérapie hyperbare (OHB) et celui d'une intervention dans un caisson hyperbare où l'air est légèrement pressurisé (AHB) sur l'amélioration de la motricité globale (niveau de preuve modéré);*
- *que l'augmentation de la fraction inspirée en oxygène (FiO_2) n'a aucun effet sur l'amélioration de la motricité globale (niveau de preuve faible).*

5.2.2. Évaluation de la fonction motrice – motricité fine

La motricité fine concerne des mouvements précis et coordonnés qui exigent que l'enfant utilise certains petits muscles des doigts et des mains pour atteindre, agripper et manipuler de petits objets afin d'effectuer certaines activités, telles que l'écriture et le dessin⁴⁴. Seulement deux ENCAA ont évalué ce type de résultats d'intérêt [Waalkes *et al.*, 2002; Montgomery *et al.*, 1999]. Dans l'une des études [Montgomery *et al.*, 1999], le test de Jebsen a été utilisé pour mesurer cette compétence (complété par un enregistrement vidéo et un questionnaire maison), alors que dans la seconde [Waalkes *et al.*, 2002], l'évaluation a été effectuée à partir d'enregistrements vidéo et d'un questionnaire maison.

5.2.2.1. Outils de mesure utilisés

Les propriétés métrologiques du test de Jebsen sont reconnues [Araneda *et al.*, 2019; Jebsen *et al.*, 1969]. Ce test évalue les capacités motrices fonctionnelles de la main, et est constitué de sept dimensions qui permettent de mesurer la motricité fine et les tâches fonctionnelles impliquant ou non des charges lourdes. Le test doit débiter par la main non dominante et chaque tâche est évaluée en fonction du temps que l'enfant met à l'accomplir.

L'enregistrement vidéo a aussi été utilisé par les deux groupes de chercheurs. Tout comme ils l'ont fait pour évaluer la motricité globale, Montgomery et ses collaborateurs [1999] ont analysé la performance des enfants au regard de tâches de motricité fine telles que la capacité d'attraper, une dimension également examinée par Waalkes et ses collaborateurs [2002] dans leurs enregistrements vidéo. Les questionnaires administrés tant par Montgomery [1999] que par Waalkes [2002] (voir la description dans la section *Motricité globale*) comportaient des catégories permettant aux parents de se prononcer sur l'autonomie de leur enfant en ce qui a trait à se nourrir (dans les deux études), à attraper et à tenir des objets [Waalkes *et al.*, 2002] et à se déshabiller [Montgomery *et al.*, 1999].

⁴⁴ Fondation Lucie et André Chagnon. Naître et grandir. 2½ à 3 ans : motricité fine [site Web]. Disponible à : https://naitreetgrandir.com/fr/etape/1_3_ans/developpement/31_36_mois/fiche.aspx?doc=ik-naitre-grandir-enfant-31-36-mois-motricite-fine (consulté le 25 juillet 2019).

5.2.2.2. Résultats tirés des études retenues

Les deux études rapportent une amélioration de divers aspects de la motricité fine des enfants. L'étude de Montgomery [1999] a examiné la motricité fine avant et après l'intervention par l'OHB à l'aide du test de Jebsen. Concernant trois des six dimensions qui ont été évaluées (tourner des cartes, déplacer des boîtes vides et pleines), une amélioration significative de la motricité fine a été observée ($p < 0,05$ relativement à la main non dominante et $p < 0,01$ relativement à la main dominante). Une amélioration des mouvements (de façon générale) a aussi été observée lors de l'analyse de l'enregistrement vidéo chez 67 % des enfants. Aucune amélioration statistiquement significative n'a été rapportée lors de l'analyse des réponses au questionnaire.

L'étude de Waalkes [2002] a évalué la motricité fine de 7 enfants âgés de 1 à 16,8 ans avec une paralysie cérébrale de différents types. Certaines améliorations de l'amplitude des mouvements liés aux extrémités (il n'est pas spécifié s'il s'agit ici de motricité fine) ont été rapportées chez 4 des 7 enfants évalués au moyen des enregistrements vidéo, mais aucune amélioration n'a été observée au-delà de 60 séances d'OHB. Bien que cinq parents aient également rapporté une amélioration de cette dimension, aucune amélioration statistiquement significative n'a été rapportée lors de l'analyse des réponses au questionnaire.

5.2.2.3. Perspective des experts

De l'avis de certains experts, les outils standards utilisés dans les études ne sont pas optimaux pour évaluer les progrès cliniques de moindre envergure, tels que la motricité fine, un progrès que rapportent certains professionnels de la santé et des parents, et qui sont généralement observés durant une longue période.

5.2.2.4. Qualité de la preuve

L'évaluation de la preuve portant sur la motricité fine ne repose que sur deux études avant-après de petite taille sans groupe comparateur, dont les sujets ont des profils cliniques différents (type de paralysie cérébrale, âge). De plus, l'une des deux études présente des résultats imprécis en raison de l'outil de mesure utilisé, résultats qu'il est difficile de comparer aux résultats obtenus à l'aide du test de Jebsen, lequel est un outil reconnu. En raison de ces limites jugées importantes, la qualité de la preuve scientifique au regard de l'efficacité de l'OHB pour améliorer la motricité fine est jugée très faible.

Constat retenu

Les données disponibles ne permettent pas de reconnaître une efficacité de l'oxygénothérapie hyperbare (OHB) pour l'amélioration de la motricité fine.

5.2.3. Évaluation de la spasticité – tonus musculaire

La paralysie cérébrale de type spastique est la plus courante et touche environ 75 % des personnes qui ont une paralysie cérébrale [Jan, 2006]. La spasticité est caractérisée par

un tonus musculaire accru pouvant entraver le mouvement volontaire et entraîner une incapacité [Shamsoddini *et al.*, 2014]. Les deux études qui ont évalué la motricité fine ont également examiné la spasticité à l'aide d'un même outil de mesure, l'échelle MAS (Modified Ashworth Scale).

5.2.3.1. Outil de mesure utilisé

L'échelle MAS, dont les propriétés métrologiques sont connues, évalue la résistance musculaire lors de la mobilisation passive d'un muscle ou d'un groupe de muscles. La validité de cet outil serait par contre mise en doute dans la littérature [Bauch et Steinberg, 2005], notamment en raison de sa faible fidélité d'un évaluateur à un autre et entre un essai et une répétition de cet essai (test re-test) [Alhusaini *et al.*, 2010]. Waalkes et ses collaborateurs [2002] ont aussi évalué la spasticité à l'aide d'un questionnaire maison administré aux parents.

5.2.3.2. Résultats tirés des études retenues

Dans les deux études retenues sur le sujet, des effets divergents sur la spasticité ont été obtenus. L'étude de Montgomery [1999] montre une réduction significative de la spasticité, lorsqu'elle est évaluée par le médecin ($p < 0,01$, tout membre considéré). En contrepartie, un physiothérapeute qui a également procédé à l'évaluation de la spasticité n'a considéré une amélioration significative que dans le groupe musculaire des quadriceps fémoraux ($p < 0,05$). Dans l'étude de Waalkes [2002], aucune amélioration à cet égard n'a été observée (tout membre considéré) chez la majorité des enfants évalués. De plus, cet aspect a aussi été évalué à l'aide d'un questionnaire maison, rempli par les parents; cinq des sept parents ont rapporté une réduction de la spasticité chez leur enfant.

5.2.3.3. Perspective des experts

Selon certains experts du comité consultatif, la validité de contenu de l'échelle MAS demeure critiquée dans la littérature en raison, notamment, du fait qu'elle ne tient pas compte de certains facteurs neuromusculaires nécessaires à la mesure de la spasticité (p. ex. : vitesse d'étirement).

5.2.3.4. Qualité de la preuve

La preuve portant sur la spasticité est basée sur les mêmes deux ENCAA sur lesquelles repose la preuve relative à la motricité fine, comportant ainsi les mêmes limites que celles citées précédemment. De plus, les résultats obtenus sont divergents, malgré le fait qu'un même outil de mesure ait été utilisé dans les deux études. La qualité de la preuve scientifique est donc jugée très faible.

Constat retenu

Les données disponibles ne permettent pas de reconnaître une efficacité de l'oxygénothérapie hyperbare (OHB) pour l'amélioration de la spasticité.

5.2.4. Évaluation de l'autonomie – réalisation des activités de la vie quotidienne

L'autonomie est la capacité des enfants à réaliser des tâches de la vie quotidienne, notamment leur capacité à assurer leur hygiène personnelle, à s'habiller et à s'alimenter. Une autonomie plus grande peut également, chez certains, représenter une meilleure qualité de vie. Les capacités fonctionnelles à réaliser les activités quotidiennes ont été évaluées à l'aide de l'un des outils validés suivants, selon les études retenues : l'indice de Barthel des activités de la vie quotidienne (en anglais Barthel Index of ADL [Azhar *et al.*, 2017], PEDI [Lacey *et al.*, 2012; Collet *et al.*, 2001], WeeFIM [Waalkes *et al.*, 2002] et un questionnaire maison visant à évaluer l'autonomie des enfants [Waalkes *et al.*, 2002; Montgomery *et al.*, 1999] (voir le tableau 8).

5.2.4.1. Outils de mesure utilisés

Le PEDI, couramment utilisé pour évaluer des enfants qui présentent des incapacités, permet d'évaluer la performance fonctionnelle d'enfants âgés de six mois à sept ans et demi selon trois dimensions : les soins personnels, la mobilité et le fonctionnement social [Nordmark *et al.*, 1999], et selon trois échelles de mesure : les habiletés fonctionnelles observées, le besoin de soutien de la part d'un soignant (aidant) et le soutien par des aides techniques utilisés [Haley *et al.*, 1991]. L'autonomie des enfants à effectuer des activités de la vie quotidienne peut également être observée. Le PEDI est un outil validé pour évaluer l'efficacité d'un traitement chez des enfants avec une paralysie cérébrale, et est sensible pour détecter des différences subtiles chez les enfants [Haley *et al.*, 2010; McCarthy *et al.*, 2002].

Quant au WeeFIM, ce test est dérivé de la Functional Independence Measure (FIM) destinée aux adultes et inclut 18 items répartis en six sous-groupes fonctionnels : soins personnels, contrôles vésical et intestinal, transferts, locomotion, communication et cognition sociale. Il est utilisé pour évaluer des enfants âgés de six mois à sept ou huit ans, ou plus, à condition que leur niveau fonctionnel soit plus bas que celui attendu chez un enfant du même âge [Msall *et al.*, 1996; McCabe et Granger, 1990].

L'indice de Barthel comporte 10 items regroupés dans les soins personnels et la mobilité [Khaoulani *et al.*, 1991; Mahoney et Barthel, 1965]. Cet outil est validé, mais n'a pas été conçu spécifiquement pour évaluer les enfants et semble très peu utilisé en clinique pédiatrique [Bonnechère *et al.*, 2013].

Des questionnaires maison ont aussi été utilisés par Montgomery [1999] ainsi que par Waalkes [2002] (voir les détails dans les sections portant sur la motricité globale et sur la motricité fine). Ils portaient sur les aspects suivants : se nourrir et être apte à faire sa toilette (les deux études), et se déshabiller [Montgomery *et al.*, 1999].

Tableau 8 Évaluation de l'efficacité de l'OHB pour améliorer l'autonomie

OUTIL DE MESURE	ÉTUDE N SUJETS; ÂGE	RÉSULTATS (Comme ils ont été présentés dans les articles)	
Barthel Index of ADL (Activity of Daily Living)	Azhar <i>et al.</i> , 2017 193; 5 à 14 ans (ECR)	<u>Post-OHB (5 x 40 séances)</u> Scores moyens avant et après l'intervention non disponibles Amélioration chez 95 % des sujets du groupe expérimental comparée à 31 % des sujets du groupe témoin; p = 0,000	
PEDI (Pediatric Evaluation of Disability Inventory)	Lacey <i>et al.</i> , 2012 46; 3 à 8 ans (ECR)	<u>Post-OHB (40 séances)*</u> Habiletés fonctionnelles <i>Soins personnels</i> OHB : 4,4 (IC à 95 %; 2,3 à 6,5), p < 0,001 AHB : 3,3 (IC à 95 %; 1,6 à 5,0), p = 0,001 Intergroupe : 1,1 (IC à 95 %; -1,5 à 3,7), p = 0,498 [†] <i>Mobilité</i> OHB : 2,8 (IC à 95 %; 1,2 à 4,4), p = 0,001 AHB : 2,7 (IC à 95 %; 0,7 à 4,6), p = 0,009 Intergroupe : 0,1 (IC à 95 %; -2,3 à 2,5), p = 0,945 [†] <i>Fonctionnement social</i> OHB : 2,1 (IC à 95 %; 0,4 à 3,8), p = 0,020 AHB : 1,9 (IC à 95 %; 0,4 à 3,4), p = 0,015 Intergroupe : 0,1 (IC à 95 %; -2,1 à 2,4), p = 0,932 [†]	Soutien d'un aidant <i>Soins personnels</i> OHB : 4,9 (IC à 95 %; 2,8 à 6,9), p = 0,015 AHB : 2,6 (IC à 95 %; 1,3 à 3,9), p < 0,001 Intergroupe : 2,3 (IC à 95 %; -0,2 à 4,7), p = 0,051 [†] <i>Mobilité</i> OHB : 2,7 (IC à 95 %; -0,1 à 5,6), p = 0,001 AHB : 3,4 (IC à 95 %; 1,5 à 5,2), p = 0,061 Intergroupe : -0,6 (IC à 95 %; -4,0 à 2,8), p = 0,648 [†] <i>Fonctionnement social</i> OHB : 0,7 (IC à 95 %; -1,7 à 3,1), p = 0,001 AHB : 2,4 (IC à 95 %; 0,4 à 4,4), p = 0,546 Intergroupe : -1,7 (IC à 95 %; -4,7 à 1,4), p = 0,473 [†]
	Collet <i>et al.</i> , 2001 111; 3 à 12 ans (ECR)	<u>Post-OHB (40 séances)*</u> <i>Soins personnels</i> OHB : 2,8 (IC à 95 %; 1,6 à 4,0) AHB : 2,7 (IC à 95 %; 1,3 à 4,0) Intergroupe : 0,1 (IC à 95 %; -1,8 à 2,0), p = 0,92 [†] <i>Mobilité</i> OHB : 2,9 (IC à 95 %; 1,3 à 4,5)	<u>Après suivi de 3 mois*</u> <i>Soins personnels</i> OHB : 4,6 (IC à 95 %; 2,4 à 6,8) AHB : 5,1 (IC à 95 %; 3,1 à 7,1) Intergroupe : -0,9 (IC à 95 %; -3,8 à 2,0), p = 0,55 [†] <i>Mobilité</i> OHB : 4,0 (IC à 95 %; 2,1 à 6,9)

OUTIL DE MESURE	ÉTUDE N SUJETS; ÂGE	RÉSULTATS (Comme ils ont été présentés dans les articles)	
		AHB : 1,8 (IC à 95 %; -0,1 à 3,8) Intergroupe : 1,1 (IC à 95 %; -1,5 à 3,6), p = 0,41 [†] <i>Fonctionnement social</i> OHB : 3,0 (IC à 95 %; 0,7 à 5,3) AHB : 3,0 (IC à 95 %; 0,9 à 5,1) Intergroupe : -0,5 (IC à 95 %; -3,5 à 2,4), p = 0,72 [†]	AHB : 2,9 (IC à 95 %; 0,9 à 5,0) Intergroupe : 0,7 (IC à 95 %; -2,0 à 3,5), p = 0,59 [†] <i>Fonctionnement social</i> OHB : 4,0 (IC à 95 %; 1,7 à 6,2) AHB : 3,0 (IC à 95 %; -0,2 à 6,2) Intergroupe : 0,2 (IC à 95 %; -3,4 à 3,4), p = 0,93 [†]
Functional Independence Measure for Children (WeeFIM)	Waalkes <i>et al.</i> , 2002 7; 1 à 16,8 ans (ENCAA)	<u>Post-OHB (80 séances) ‡</u> 0 à 20 séances : 10,8 % 0 à 40 séances : 7 % 0 à 60 séances : 17,1 % 0 à 80 séances : 29,8 %	
Questionnaire maison	Waalkes <i>et al.</i> , 2002 7; 1 à 16,8 ans (ENCAA)	Amélioration non significative rapportée (particulièrement sur le plan de la capacité à s'alimenter, à prendre ou à tenir des objets, à s'asseoir), généralement après 40 séances (aucune valeur de p indiquée)	
	Montgomery <i>et al.</i> , 1999 25; 3 à 8 ans (ENCAA)	Amélioration statistiquement significative rapportée concernant certaines dimensions : marcher (debout ou sur les genoux), s'asseoir sur le plancher ou un banc; p = 0,01 Toute autre dimension (dont se déshabiller, s'alimenter, se laver) : aucun changement significatif	

AHB : air légèrement pressurisé (en anglais *hyperbaric air* ou HBA); ECAA : étude comparative avant-après; ECR : essai clinique randomisé; ENCAA : étude non comparative avant-après; IC : intervalle de confiance; OHB : oxygénothérapie hyperbare

* Écart moyen dans un même groupe

† Valeur p entre les groupes

‡ Pourcentage de variation du score

5.2.4.2. Résultats tirés des études retenues

Dans les deux ECR dont la qualité méthodologique est jugée adéquate [Lacey *et al.*, 2012; Collet *et al.*, 2001] utilisant tous deux le PEDI, une amélioration est rapportée tant dans le groupe expérimental que le groupe témoin, mais sans qu'aucune différence significative intergroupe n'ait été mesurée. Les deux études ont procédé à des mesures après un suivi de trois mois, et jusqu'à six mois dans l'étude de Lacey [2012], et rapportent une persistance de l'amélioration dans le groupe expérimental et dans le groupe témoin. Dans les deux ECR, un effet positif a été remarqué sur les dimensions relatives à la mobilité et à la fonction sociale chez les sujets du groupe témoin AHB. Dans l'étude de Lacey [2012], l'effet positif semble un peu plus prononcé chez les sujets du groupe expérimental OHB en ce qui a trait à la dimension relative aux soins personnels. Les auteurs mentionnent également que l'amélioration maximale constatée était de moins de 5 %, jugée cliniquement non significative.

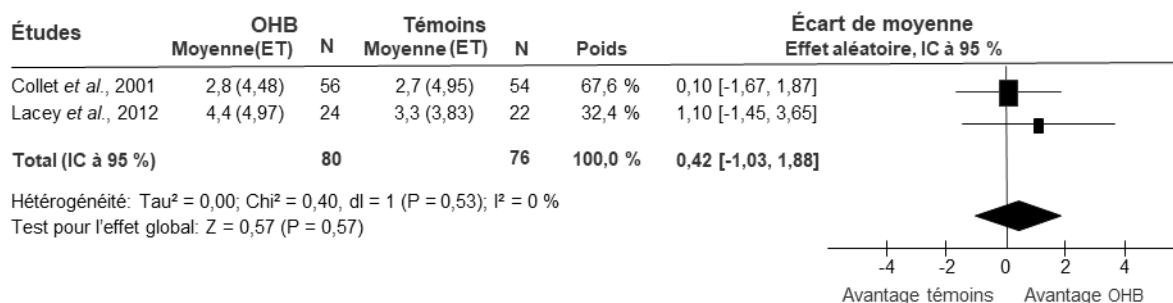
D'autres études présentant un risque de biais très élevé ont rapporté une amélioration dans diverses sphères de l'autonomie, selon l'outil de mesure utilisé, sur le plan des habiletés fonctionnelles (capacités locomotrices) [Azhar *et al.*, 2017; Waalkes *et al.*, 2002; Montgomery *et al.*, 1999].

5.2.4.3. Résultats de la méta-analyse

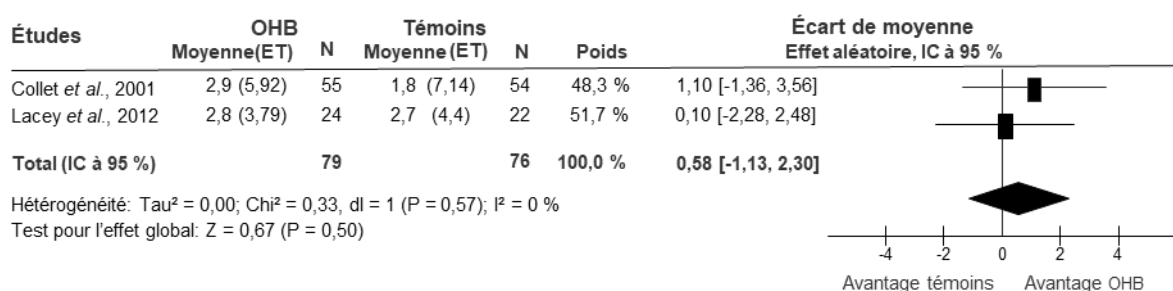
La méta-analyse des deux ECR ayant évalué les résultats de l'OHB en comparaison à ceux obtenus dans un groupe témoin (AHB), n'a pas montré de différence statistiquement significative concernant l'amélioration du score du PEDI entre les deux groupes relativement aux habiletés fonctionnelles : les soins personnels, la mobilité et le fonctionnement social (voir la figure 2). Ces résultats sont homogènes ($I^2 = 0\%$).

Figure 2 Graphique en forêt représentant l'écart entre les scores obtenus au PEDI, soit entre un groupe ayant reçu un traitement d'OHB et un groupe témoin (méthode des doubles différences)

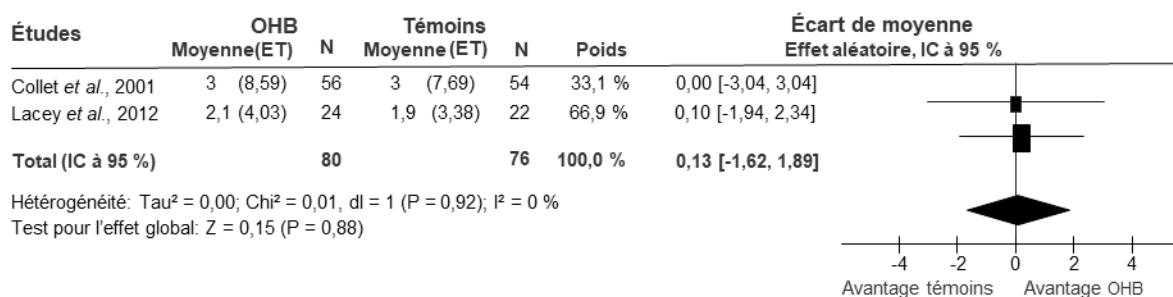
2.1. Soins personnels



2.2. Mobilité



2.3. Fonctionnement social



df : degré de liberté; ET : écart-type; IC : intervalle de confiance; OHB : oxygénothérapie hyperbare

5.2.4.4. Perspective des experts

Les experts ne se sont pas prononcés spécifiquement sur ce résultat d'intérêt.

5.2.4.5. Qualité de la preuve

Deux ECR dont la qualité est jugée adéquate ont évalué l'autonomie à l'aide d'un outil reconnu et utilisé couramment chez des enfants avec une paralysie cérébrale; l'âge des enfants chez lesquels cet outil a été utilisé correspondait aussi à la tranche d'âge pour laquelle il est validé. Leurs résultats sont cohérents, à savoir qu'une amélioration est observée dans les deux groupes, mais sans différence significative intergroupe.

Précisons que les sujets dans l'une des études poursuivaient leur thérapie en réadaptation en parallèle [Lacey *et al.*, 2012]. Il est difficile d'évaluer les résultats obtenus par Azhar et ses collaborateurs [2017], la pertinence de l'outil utilisé étant mise en doute de même que la façon dont les résultats sont rapportés. Enfin, il est difficile de juger de la valeur des questionnaires maison, mais s'agissant de résultats rapportés (ici, par les parents), une grande part de subjectivité ne peut être écartée. Il importe également de souligner que l'ensemble des outils utilisés dans les études retenues n'évaluent pas nécessairement les mêmes dimensions de l'autonomie. Enfin, seul un petit nombre d'enfants a pu être évalué à l'aide d'un même outil pour mesurer ce résultat d'intérêt. La qualité de la preuve est donc jugée faible.

Principaux constats

Les données disponibles montrent :

- *qu'il n'y a aucune différence entre l'effet de l'oxygénothérapie hyperbare (OHB) et celui d'une intervention dans un caisson hyperbare où l'air est légèrement pressurisé (AHB) sur l'amélioration de l'autonomie (niveau de preuve modéré);*
- *que l'augmentation de la fraction inspirée en oxygène (FiO₂) n'a aucun effet sur l'amélioration de l'autonomie (niveau de preuve faible).*

5.2.5. Évaluation de la communication

L'évaluation de la communication regroupe des mesures de plusieurs éléments, notamment le vocabulaire, la syntaxe, la capacité d'association verbale, l'articulation et la fluidité de la conversation [Dussault *et al.*, 2018]. Cinq études ont examiné cette compétence, mais aucune n'a utilisé les mêmes outils de mesure.

5.2.5.1. Outils de mesure utilisés

Si les outils de mesure utilisés dans l'ECR de Collet [2001] étaient appuyés par des références (test Dudley-Delage pour évaluer le langage, protocoles de Bleile et de l'Université de Montréal pour évaluer la fonction et la structure orofaciales, protocole de Kent pour évaluer la voix), leurs propriétés métrologiques sont néanmoins inconnues. Spécifions cependant que le test Dudley-Delage a été conçu à l'intention des jeunes enfants franco-québécois de cinq à neuf ans (de la maternelle à la deuxième année) [Dudley et Delage, 1980]. Deux études rapportent des résultats à partir de données collectées au moyen de questionnaires maison remplis par les parents et dans lesquels la communication est évaluée [Waalkes *et al.*, 2002; Montgomery *et al.*, 1999]. L'outil utilisé dans l'ECR de Azhar [2017] n'est pas précisé, si ce n'est que l'évaluation de l'audition et de la parole a été effectuée par un pédiatre. Jovanovic et ses collaborateurs [2017] n'ont pas non plus spécifié l'outil utilisé pour évaluer l'expression verbale des enfants, autrement que de mentionner qu'il comprenait des critères mesurés sur une échelle de 1 à 5.

5.2.5.2. Résultats tirés des études retenues

Dans l'ECR de Collet [2001], aucune différence intergroupe n'a été rapportée concernant la communication. Il y est mentionné que seuls quelques éléments de la production verbale se sont améliorés significativement au fil du temps dans les deux groupes ($n = 73$; connaissances lexicales : OHB, $p < 0,01$ et AHB, $p < 0,001$ – amélioration qui a persisté après un suivi de 3 mois – et longueur et complexité des phrases : OHB, $p = 0,04$ et AHB, $p < 0,01$).

Les études de faible qualité ont rapporté une amélioration d'autres aspects de la communication : la production de syllabes (plus marquée après 120 séances d'OHB; $p = 0,000$ [Jovanovic *et al.*, 2017]); l'écoute (64 % des enfants de l'étude, soit 37 % de ceux traités par OHB et 91 % du groupe témoin; $p = 0,000$) et la communication orale (30 % des enfants, soit 33 % de ceux traités par OHB et 33 % du groupe témoin; $p = 0,000$) [Azhar *et al.*, 2017]) ainsi que la communication verbale dans l'étude de Waalkes [2002] (plus marquée après 80 séances) et de Montgomery [1999] ($p = 0,32$).

5.2.5.3. Perspective des experts

Selon certains experts du comité consultatif, une grande subjectivité peut être attribuée à l'évaluation de l'amélioration de la communication par les questionnaires maison et les observations rapportées par les parents. Selon plusieurs, l'évaluation de la communication dans les études recensées est trop limitée, en raison des outils utilisés, pour être en mesure de se prononcer sur les effets de l'OHB.

5.2.5.4. Qualité de la preuve

Seule une étude dont la qualité méthodologique est jugée adéquate s'est intéressée à ce résultat d'intérêt, à l'aide d'outils reconnus dans la littérature. La preuve repose donc en grande partie sur des résultats d'études dont la qualité méthodologique a été jugée faible, à partir de résultats recueillis à l'aide d'outils inconnus ou de questionnaires maison. Les aspects de la communication évalués dans chacune de ces études ne sont pas nécessairement les mêmes, selon l'outil utilisé. Lorsque les résultats sont obtenus à l'aide d'outils de mesure non spécifiés ou sur des informations provenant d'un questionnaire rempli par des parents, il y a place à l'imprécision et à la subjectivité. De plus, les enfants inclus dans trois de ces études [Azhar *et al.*, 2017; Jovanovic *et al.*, 2017; Waalkes *et al.*, 2002] recevaient, en concomitance avec le traitement par OHB, des traitements de réadaptation, notamment l'orthophonie, qui ont pu influencer sur les résultats obtenus. En conséquence, la qualité de la preuve scientifique au regard de la communication a été jugée très faible.

Constat retenu

Les données disponibles ne permettent pas de reconnaître une efficacité de l'oxygénothérapie hyperbare (OHB) ou d'une intervention dans un caisson hyperbare où l'air est légèrement pressurisé (AHB) pour l'amélioration de la communication.

5.2.6. Évaluation des processus cognitifs et des habiletés sociales

L'évaluation en neuropsychologie est un processus diagnostique couvrant l'ensemble des fonctions prises en charge par le cerveau, telles que la mémoire, l'attention et l'impulsivité, l'organisation et la planification, la perception, la coordination motrice et les aptitudes visuospatiales, le langage, la lecture, l'écriture, le raisonnement logique et verbal, le comportement et le fonctionnement émotionnel ainsi que les compétences sociales^{45, 46}. Certaines de ces compétences, telles que les processus cognitifs et les habiletés sociales, ont été évaluées dans quatre études⁴⁷ [Katanani, 2012; Lacey *et al.*, 2012; Hardy *et al.*, 2002; Waalkes *et al.*, 2002; Collet *et al.*, 2001].

5.2.6.1. Outils de mesure utilisés

Le TOVA (Test of Variables of Attention), qui permet d'évaluer l'attention visuelle et auditive des enfants, a été utilisé par Collet et ses collaborateurs [Hardy *et al.*, 2002; Collet *et al.*, 2001] et Lacey [2012]. Le TOVA évalue quatre aspects de l'attention et du processus de contrôle des impulsions chez l'enfant de quatre ans et plus : l'attention, l'impulsivité, le temps de réaction et la fluctuation de l'attention [Leark *et al.*, 1996]. Collet et ses collaborateurs [Hardy *et al.*, 2002; Collet *et al.*, 2001] ont aussi évalué la mémoire visuospatiale et la mémoire verbale grâce à des versions informatisées des blocs de Corsi, au Picture Span Test (PST) et au Word Span Test (WST), et le fonctionnement cognitif et psychosocial à l'aide du test CPRS-R (sigle de Conners' Parent Rating Scale – Revised). Ce dernier permet d'évaluer les problèmes de comportement et d'attention chez des enfants âgés de 3 à 17 ans relativement à des critères spécifiques relatifs au TDAH et au TDA [Conners, 1997]. Les outils de mesure TOVA [Llorente *et al.*, 2001; Leark *et al.*, 1996], CPRS-R [Chang *et al.*, 2016; Conners *et al.*, 1998] et WeeFIM [Msall *et al.*, 1996; McCabe et Granger, 1990] ont des propriétés métrologiques reconnues alors que les outils relatifs à la mémoire (blocs de Corsi, *PST* et *WST*) sont adaptés par l'Institut National de la Santé et de la Recherche Médicale de France [Delatolas et Hardy, 1993, dans Collet *et al.*, 2001]. Bien qu'ils soient utilisés en clinique, ils ne semblent pas avoir été validés chez des enfants qui ont une paralysie cérébrale. Le test WeeFIM a été utilisé par Waalkes [2002] pour évaluer les habiletés sociales des enfants. Katanani [2012] a quant à lui soumis un questionnaire maison aux parents, dont certains items évaluaient l'attention, l'interaction sociale, le comportement et la mémoire.

⁴⁵ Clinique d'évaluation et réadaptation cognitive (CERC). Évaluation neuropsychologique de l'enfant [site Web]. Disponible à : <https://cerc-neuropsychy.com/nos-services/evaluation-neuropsychologique-enfant/> (consulté le 26 juillet 2019).

⁴⁶ Centre d'évaluation neuropsychologique et d'orientation pédagogique (CENOP). Neuropsychologie [site Web]. Disponible à : <https://cenop.ca/evaluation/neuropsychologie.php> (consulté le 26 juillet 2019).

⁴⁷ Deux publications pour une même étude [Hardy *et al.*, 2002; Collet *et al.*, 2001].

Tableau 9 Évaluation de l'efficacité de l'OHB pour améliorer l'attention visuelle et auditive des enfants (TOVA)

OUTIL DE MESURE	ÉTUDE N SUJETS; ÂGE	RÉSULTATS (Comme ils ont été présentés dans les articles)	
Test of Variables of Attention (TOVA)	Lacey <i>et al.</i> , 2012 34 (10 ayant terminé le test); 4 à 8 ans	<u>Post-OHB (40 séances)*</u> <i>Attention</i> Réponses correctes, 0 à 162 OHB : 12 (IC à 95 %; -22 à 46), $p = 0,409$ AHB : -34 (IC à 95 %; -175 à 108), $p = 0,413$ Intergroupe: 46 (IC à 95 %; -22 à 114), $p = 0,157^{\dagger}$ Réponses incorrectes, 0 à 162 OHB : 3 (IC à 95 %; -6 à 12), $p = 0,482$ AHB : 4 (IC à 95 %; -6 à 14), $p = 0,257$ Intergroupe : -1 (IC à 95 %; -15 à 13), $p = 0,876^{\dagger}$	
	Collet <i>et al.</i> , 2001 Hardy <i>et al.</i> , 2002 75 [†] ; 4 à 12 ans	<u>Post-OHB (40 séances)*</u> <i>Attention auditive</i> Réponses correctes OHB : 7,5 (IC à 95 %; 1,6 à 13,5), $p = 0,015$ AHB : 3,9 (IC à 95 %; -2,4 à 10,3), $p = 0,217$ Intergroupe : 0,4 (IC à 95 %; -6,9 à 7,7), $p = 0,914^{\dagger}$ <i>Maîtrise de soi</i> Réponses incorrectes OHB : 44,8 (IC à 95 %; 18,4 à 71,3), $p = 0,001$ AHB : 24,9 (IC à 95 %; 0,7 à 48), $p = 0,044$ Intergroupe : 10,2 (IC à 95 %; -16,7 à 36,9), $p = 0,451^{\dagger}$ <u>Après suivi de 3 mois*</u> <i>Attention auditive</i> Réponses correctes OHB : 10,1 (IC à 95 %; 3,9 à 16,4), $p = 0,002$ AHB : 5,8 (IC à 95 %; -1,8 à 13,5), $p = 0,13$ Intergroupe : 0,3 (IC à 95 %; -7,9 à 8,5), $p = 0,941^{\dagger}$ <i>Maîtrise de soi</i> Réponses incorrectes OHB :	<i>Attention visuelle</i> Réponses correctes OHB : 3 (IC à 95 %; -2,1 à 8), $p = 0,24$ AHB : 5,1 (IC à 95 %; -0,7 à 10,9), $p = 0,082$ Intergroupe : -1,6 (IC à 95 %; -7,7 à 4,5), $p = 0,596^{\dagger}$ <i>Maîtrise de soi</i> Réponses incorrectes OHB : 41 (IC à 95 %; 17,4 à 64,5), $p < 0,001$ AHB : 16,4 (IC à 95 %; -2,1 à 35), $p = 0,08$ Intergroupe : 3,4 (IC à 95 %; -14,5 à 21,3), $p = 0,704^{\dagger}$ <u>Après suivi de 3 mois*</u> <i>Attention visuelle</i> Réponses correctes OHB : 5,2 (IC à 95 %; -1,5 à 11,9), $p = 0,126$ AHB : 5,1 (IC à 95 %; -1,1 à 11,4), $p = 0,103$ Intergroupe : 3,6 (IC à 95 %; -4,6 à 11,7), $p = 0,382^{\dagger}$ <i>Maîtrise de soi</i> Réponses incorrectes OHB :

OUTIL DE MESURE	ÉTUDE N SUJETS; ÂGE	RÉSULTATS	
		(Comme ils ont été présentés dans les articles)	
		42,9 (IC à 95 %; -0,7 à 86,6), p = 0,054 AHB : 31,3 (IC à 95 %; 0 à 62,7), p = 0,05 Intergroupe : -9,1 (IC à 95 %; -51,2 à 33,0), p = 0,667 [†]	53,2 (IC à 95 %; 26,1 à 80,3), p = 0,0001 AHB : 5,3 (IC à 95 %; -0,6 à 11,2), p = 0,074 Intergroupe : 6,9 (IC à 95 %; -25,0 à 38,9), p = 0,665 [†]

AHB : air est légèrement pressurisé (en anglais *hyperbaric air* ou HBA); IC : intervalle de confiance; OHB : oxygénothérapie hyperbare

* Une amélioration est indiquée par des changements positifs dans les réponses correctes (mesure de l'attention) et incorrectes (mesure de l'impulsivité), des changements négatifs (diminutions) dans le temps de réponse (mesure du temps de réaction) et la variabilité du temps de réponse (mesure de la fluctuation de l'attention).

Dans l'étude de Hardy et ses collaborateurs [2002], les valeurs de p significatives attribuées aux comparaisons dans un même groupe sont < 0,0083 concernant les tests neurologiques.

† Valeur p entre les groupes

‡ Le nombre total dans les deux groupes, selon le critère du test évalué, est variable (48 à 65 enfants évalués).

5.2.6.2. Résultats tirés des études retenues

Les résultats portant sur cet aspect divergent selon l'étude examinée. Les résultats obtenus au TOVA dans les deux ECR dont la qualité est jugée adéquate sont présentés dans le tableau 9. Dans l'étude de Collet [2001], une amélioration de l'attention visuelle a été constatée dans le groupe OHB, mais sans aucune différence intergroupe. Cette même tendance a été observée concernant la maîtrise de soi (réactions face aux mauvaises réponses – distractivité et impulsivité). Ces changements sont reliés de façon significative à l'âge (plus jeune) et à la performance initiale de l'enfant (en l'occurrence plus faible [Hardy *et al.*, 2002]). En ce qui concerne le temps de réaction à l'information entendue et à la variation dans ce temps de réaction, elle est similaire dans le temps dans les deux groupes, sans différence intergroupe [Hardy *et al.*, 2002].

Aucune amélioration significative de l'attention avant et après le traitement d'OHB n'a été observée dans l'un ou l'autre des deux groupes dans l'ECR de Lacey et ses collaborateurs [2012]. Collet et ses collaborateurs [2001] ont rapporté une amélioration significative à une dimension du CPRS-R⁴⁸, soit l'anxiété et la timidité, dans le groupe OHB (p = 0,006) en post-traitement et après un suivi de trois mois, sans différence intergroupe. Trois autres dimensions évaluées par le CPRS-R ont aussi évolué de façon significative en post-traitement, mais seulement chez les enfants du groupe AHB, sans aucune différence intergroupe. Enfin, des améliorations généralement significatives de la capacité visuelle (blocs de Corsi et PST) en post-traitement ont été rapportées, tant chez les enfants du groupe OHB que chez les enfants du groupe AHB – améliorations qui augmentent et persistent au suivi de trois mois (blocs de Corsi) – sans différence intergroupe.

En ce qui a trait aux résultats tirés des études dont la qualité est jugée plus faible, Waalkes et ses collaborateurs [2002] n'ont perçu, au WeeFIM, qu'une amélioration minimale des habiletés sociales entre le début et la fin du traitement par OHB (moins de 4 %).

⁴⁸ Une valeur de p < 0,0125 intragroupe est considérée significative par les auteurs relativement au questionnaire rempli par les parents.

Katanani [2012] n'a toutefois pas observé, à la lumière des réponses obtenues au questionnaire maison, de différence avant et après le traitement par OHB relativement aux critères tels que la mémoire, l'interaction sociale et l'agressivité ou les comportements dérangeants.

5.2.6.3. Perspective des experts

Selon certains experts du comité consultatif, le problème principal de l'évaluation du résultat d'intérêt plus général intitulé « processus cognitifs et habiletés sociales » est que les différents outils utilisés n'ont pas mesuré les mêmes regroupements d'intérêt. Par exemple, les tests TOVA, blocs de Corsi, PST et le WST évaluent tous des fonctions cognitives alors que le questionnaire CPRS-R et la WeeFIM analysent plus spécifiquement le comportement et les habiletés sociales. En effet, le CPRS-R est davantage une mesure du comportement, bien que certaines échelles aient un lien avec des habiletés cognitives (p. ex. : hyperactivité et inattention, problème cognitif). Les autres échelles de ce test correspondent à des profils plus affectifs (p. ex. : opposition, problèmes sociaux, anxiété et timidité, perfectionnisme et éléments psychosomatiques). Par ailleurs, le WeeFIM touche essentiellement des aspects plus larges que la cognition et se compare mal avec les concepts de l'attention et de la mémoire. En ce qui a trait plus particulièrement à l'attention, différents aspects ont également été mesurés, de sorte que l'on ne puisse pas parler d'un construit unitaire à cet égard. Un autre point soulevé par certains experts est qu'il est ardu de comparer les enfants sur les mesures d'ordre cognitif, parce que l'on ne peut pas s'attendre à un progrès similaire chez un enfant qui présente une déficience intellectuelle et chez un autre dont le fonctionnement cognitif se situe dans la moyenne. Le quotient intellectuel (QI) n'a pas fait l'objet d'un contrôle dans l'ensemble des études, ce qui peut rendre plus difficile la comparaison des résultats obtenus.

5.2.6.4. Qualité de la preuve

Deux ECR dont la qualité méthodologique est jugée adéquate et deux ENCAA dont la qualité méthodologique est jugée faible ont évalué les processus cognitifs et les habiletés sociales. Globalement, les résultats d'intérêt regroupés sous cet intitulé sont assez hétérogènes, utilisant différents outils de mesure et permettant difficilement la comparaison des résultats obtenus entre eux. Si certains ont des propriétés métrologiques reconnues, d'autres font appel à la subjectivité. Pour un même outil utilisé (le TOVA), alors que Collet et ses collaborateurs [2001] ont pu relever quelques améliorations significatives chez les sujets des deux groupes, il n'en va pas de même pour Lacey et ses collaborateurs [2012], notamment en ce qui concerne l'aspect de la maîtrise de soi. De plus, les populations étudiées, notamment en ce qui a trait aux tranches d'âge des enfants recrutés, qui peuvent influencer sur l'utilisation des outils de mesure et les résultats obtenus, sont variables. En raison de ces différentes limites, la qualité de la preuve scientifique a été jugée très faible.

Constat retenu

Les données disponibles ne permettent pas de reconnaître une efficacité de l'oxygénothérapie hyperbare (OHB) ou de l'intervention dans un caisson hyperbare où l'air est légèrement pressurisé (AHB) pour l'amélioration de l'attention, la mémoire de travail et les habiletés sociales.

5.2.7. Évaluation de la qualité du sommeil

Les troubles du sommeil chez les enfants avec une paralysie cérébrale sont fréquents et multifactoriels en raison des nombreuses causes d'incapacité [Horwood *et al.*, 2018; Constantin, 2017]. Ces troubles du sommeil ont également des répercussions sur la qualité de vie des parents et des familles. Quatre études (sans groupe témoin) se sont intéressées à ce résultat d'intérêt, dont deux en faisaient leur objectif de recherche [Jovanovic *et al.*, 2017; Long *et al.*, 2017].

5.2.7.1. Outils de mesure utilisés

Jovanovic et ses collaborateurs [2017] ont utilisé l'échelle SDSC (Sleep Disturbance Scale for Children), un outil aux propriétés métrologiques reconnues [Bruni *et al.*, 1996]. Cet outil est utilisé en clinique chez des enfants avec une paralysie cérébrale [Horwood *et al.*, 2018], sans toutefois être validé pour cette clientèle [Bautista *et al.*, 2018]. Il s'agit d'un questionnaire de 26 items qui évalue les troubles du sommeil chez l'enfant, sur une échelle de Likert de 1 à 5, dans six sous-domaines : 1) les difficultés d'endormissement et le maintien du sommeil; 2) les troubles transitoires (périodes d'éveil et de sommeil); 3) la somnolence excessive; 4) la modification du rythme respiratoire pendant le sommeil; 5) les sueurs nocturnes; et 6) les terreurs nocturnes [Jovanovic *et al.*, 2017]. Long et ses collaborateurs [2017] ont utilisé une version modifiée de cette échelle (évaluation de 13 des 26 items), complétée par le Total Sleep Items (TSIs), qui évalue trois critères, soit 1) le temps moyen pour s'endormir; 2) le nombre d'heures de sommeil par 24 heures; et 3) le nombre moyen de réveils nocturnes par semaine pendant un mois [Long *et al.*, 2017]. Waalkes et ses collaborateurs [2002] ainsi que Montgomery et ses collaborateurs [1999] ont, quant eux, utilisé un questionnaire maison rempli par les parents, dont une seule question portait sur la qualité du sommeil.

5.2.7.2. Résultats tirés des études retenues

Quatre études comportant un risque élevé de biais rapportent une amélioration de la qualité du sommeil [Jovanovic *et al.*, 2017; Long *et al.*, 2017; Waalkes *et al.*, 2002; Montgomery *et al.*, 1999]. Long et ses collaborateurs [2017] ont relevé une amélioration chez plus de 50 % des sujets (tous âges confondus) dans 2 critères évalués à l'aide de l'échelle SDSC modifiée (difficulté à s'endormir et à rester endormi, troubles de somnolence excessive) après 10 séances d'OHB (valeurs p non rapportées); et après 10 et 20 séances d'OHB en ce qui concerne l'ensemble des critères évalués à l'aide du test TSIs (tous âges confondus; $p < 0,01$). De plus, ils ont observé que chez les enfants plus

jeunes (2 à 3 ans), le nombre d'enfants chez lesquels le temps de latence de sommeil plus court, une perturbation du sommeil brève et un réveil facile la nuit a significativement diminué ($p < 0,05$) après 10 séances d'OHB. Jovanovic et ses collaborateurs [2017] ont observé, à l'aide de l'échelle SDSC, des changements positifs du sommeil à la suite d'une exposition continue et prolongée à l'OHB (120 séances, $p = 0,000$).

Dans l'étude de Montgomery [1999], les parents ont rapporté une amélioration de la qualité du sommeil, qui a aussi été rapportée dans l'étude de Waalkes [2002], chez deux des sept enfants. Dans cette dernière étude, une détérioration des habitudes de sommeil chez deux d'entre eux a aussi été rapportée dans un questionnaire rempli par les parents.

5.2.7.3. Perspective des experts

Certains experts du comité consultatif ont des réserves et se questionnent sur la pertinence de ce résultat d'intérêt, parce que plusieurs facteurs externes peuvent influencer le sommeil, ce qui rend difficile la tâche de départager l'effet de l'OHB de ces autres facteurs, notamment l'amélioration des habitudes de vie et de la routine du coucher ainsi que la diminution du stress.

5.2.7.4. Qualité de la preuve

Selon l'outil de mesure utilisé, les aspects ou les critères liés au sommeil qui sont évalués diffèrent – parfois sans être précisés plus qu'il ne faut –, ce qui complique la mise en commun des résultats. En raison notamment du petit nombre d'enfants évalués dans les études qui se sont intéressées au résultat d'intérêt, de la diversité des outils de mesure utilisés, dont certains prêtent à la subjectivité, et du fait que les résultats proviennent d'études avant-après sans groupe comparatif où le risque de biais est jugé élevé, la qualité de la preuve scientifique est jugée très faible.

Constat retenu

Les données disponibles ne permettent pas de reconnaître une efficacité de l'oxygénothérapie hyperbare (OHB) pour l'amélioration de la qualité du sommeil.

5.3. Innocuité de l'intervention

5.3.1. Études ayant évalué les effets indésirables

Quatre études⁴⁹ ont examiné l'innocuité de l'OHB chez des enfants avec une paralysie cérébrale [Azhar *et al.*, 2017; Long *et al.*, 2017; Lacey *et al.*, 2012; Muller-Bolla *et al.*, 2006; Collet *et al.*, 2001]. Seules trois de ces études [Azhar *et al.*, 2017; Long *et al.*, 2017; Collet *et al.*, 2001] avaient pour objectif clair d'évaluer ce résultat d'intérêt.

⁴⁹ Deux publications pour une même étude [Muller-Bolla *et al.*, 2006; Collet *et al.*, 2001].

5.3.1.1. Outils de mesure utilisés

Long et ses collaborateurs [2017] ont évalué l'innocuité de l'intervention à partir des réactions des enfants (p. ex. des pleurs accompagnés d'une réaction de se couvrir les oreilles) pour procéder à un examen otoscopique, dont les résultats étaient examinés en fonction du Modified Teed Classification System, qui permet de déterminer le degré de gravité du barotraumatisme de l'oreille moyenne. En ce qui concerne les convulsions, elles étaient diagnostiquées selon les lignes directrices produites par l'UHMS. Azhar et ses collaborateurs [2017] ont créé un indice pour mesurer la sécurité (*safety index*), comportant une échelle de 0 à 2, mais dont les critères évalués ne sont pas connus. Collet [2001], Muller-Bolla et leurs collaborateurs [2006] ont intégré à leur étude des examens effectués par un médecin avant et après chaque séance d'OHB ou d'AHB (auscultation des poumons, examen des oreilles et des sinus, notamment) et ont consigné, sur des formulaires conçus à cette fin, les événements indésirables observés durant l'étude. Dans trois études [Azhar *et al.*, 2017; Lacey *et al.*, 2012; Collet *et al.*, 2001], les auteurs ont spécifié qu'ils procédaient à un examen des enfants avant chaque séance afin de réduire au minimum les risques d'effets indésirables. Pour éviter le barotraumatisme des oreilles, certains chercheurs avaient pris soin de procéder à l'installation préalable de drains transtympaniques chez les enfants [Long *et al.*, 2017; Muller-Bolla *et al.*, 2006; Montgomery *et al.*, 1999].

5.3.1.2. Résultats tirés des études retenues

Les résultats des différentes études sur les effets indésirables sont divergents. Les douleurs aux oreilles sont le plus souvent rapportées : 3,5 % des enfants dans l'étude de Azhar [2017], pourcentage incluant toutefois l'anxiété de confinement; 20,3 % des enfants dans l'étude de Long [2017]; 29,2 % des enfants du groupe OHB et 36,4 % des enfants du groupe AHB dans l'étude de Lacey [2012] (pas de différence significative entre les groupes); 14,3 % des enfants du groupe OHB et 13,0 % des enfants du groupe AHB dans l'étude de Collet [2001] et de Muller-Bolla et leurs collaborateurs [2006]. Un barotraumatisme de l'oreille moyenne a été rapporté chez 50,0 % des enfants du groupe OHB et 27,8 % des enfants du groupe AHB dans l'étude de Collet [2001] (publication de Muller-Bolla [2006]). Muller-Bolla et ses collaborateurs [2006] ont calculé un risque relatif de barotraumatisme chez les enfants traités par l'OHB de 1,5 (IC à 95 %; 1,1 à 2,2; $p = 0,02$). Parmi les autres effets indésirables rapportés, on trouve des convulsions (3,4 % des enfants de l'étude de Long [2017]), de l'anxiété de confinement dans l'étude de Azhar [2017], une pharyngite dans l'étude de Collet [2001] (28,6 % des enfants du groupe OHB et 14,8 % des enfants du groupe AHB – publication de Muller-Bolla [2006]). Enfin, il faut préciser que Waalkes et ses collaborateurs [2002] ont pris soin de mentionner qu'aucun effet indésirable n'avait été rapporté durant l'étude, bien qu'ils n'aient mentionné, ni dans leurs objectifs de recherche ni dans leur méthodologie, qu'ils s'intéresseraient à cet aspect.

5.3.1.3. Perspective des experts

Selon certains experts du comité consultatif, l'effet indésirable le plus fréquent d'une exposition à la thérapie hyperbare est le barotraumatisme de l'oreille moyenne. Une otoscopie devrait ainsi être faite systématiquement à la suite d'une exposition à l'OHB. Mais d'autres effets indésirables auraient dû être mesurés, tels que des changements visuels (myopie réversible) lors d'expositions répétées à l'OHB (généralement plus de 20 séances). Un autre point soulevé par certains experts consultés est que l'incidence de la toxicité de l'oxygène est presque nulle à une pression de 1,3 ATA, le risque de convulsions associé à ce problème étant plus élevé lorsqu'on dépasse 2,0 ATA. De plus, dans les études retenues, il est logique de voir plus d'effets indésirables aux oreilles dans le groupe OHB, que dans le groupe AHB, à cause de la pression plus élevée.

5.3.1.4. Qualité de la preuve

La qualité de la méthode avec laquelle les effets indésirables de l'OHB ont été rapportés dans les études est discutable, même dans les études ayant explicitement pour objectif d'évaluer l'innocuité de l'intervention et dans les ECR dont la qualité méthodologique est jugée adéquate. La variabilité des résultats rapportés peut être liée à la diversité des protocoles d'OHB utilisés (p. ex. 1,75 ATA comparé à 1,5 ATA), aux critères d'inclusion et d'exclusion des participants (différents d'une étude à une autre, et plus ou moins restrictifs, selon le cas) de même qu'à l'utilisation systématique d'outils ou d'exams appropriés pour déceler les effets le plus fréquemment rapportés. La petite taille des échantillons des études a pu interférer avec les résultats, en laissant de côté les enfants plus à risque. Par exemple, Muller-Bolla et ses collaborateurs [2006] ont rapporté qu'effectivement, la taille de l'échantillon de l'ECR réalisé en 2001 a une faible puissance statistique pour évaluer l'innocuité. Considérant ces différentes limites, la qualité de la preuve scientifique est jugée très faible.

Principaux constats

Bien que l'oxygénothérapie hyperbare (OHB) s'avère sécuritaire lorsqu'elle est adéquatement utilisée dans les indications reconnues et dans les populations visées par ces indications, des douleurs aux oreilles ou des barotraumatismes de l'oreille moyenne sont les événements indésirables les plus fréquemment rapportés dans les études. Toutefois, les données disponibles ne permettent pas de se prononcer sur l'innocuité de l'OHB ou de l'intervention dans un caisson hyperbare où l'air est légèrement pressurisé (AHB) lorsqu'elles sont utilisées chez des enfants avec une paralysie cérébrale.

5.4. Répercussions de l'OHB sur la qualité de vie

Aucune des études retenues n'a évalué la qualité de vie.

Dans l'ETS produite par l'AHRQ⁵⁰ en 2003 [McDonagh *et al.*, 2003], un volet « entrevue avec des parents et les proches aidants et des cliniciens » complétait la revue de littérature. Les constats qui y sont présentés montrent une grande similarité avec les données qui ont été recueillies lors des consultations effectuées dans le cadre du présent avis, notamment en ce qui a trait aux effets perçus de l'OHB sur la qualité de vie (p. ex : amélioration de l'autonomie) et l'utilisation simultanée de l'OHB avec les traitements usuels de la paralysie cérébrale.

⁵⁰ 2 groupes composés de 11 sujets, soit des patients avec une paralysie cérébrale, ayant subi un AVC ou une lésion cérébrale (aucune précision sur le nombre relatif à chacune de ces atteintes) ou leurs proches aidants et 2 groupes composés de 9 cliniciens ont été formés. Six entrevues individuelles ont été réalisées, dont une avec une proche aidante d'une personne qui a une paralysie cérébrale. Les résultats présentés dans l'ETS ne sont pas toujours attribués à des parents ou à des proches aidants de personnes avec une paralysie cérébrale ou à des cliniciens qui les traitent.

6. APPRÉCIATION DE LA VALEUR THÉRAPEUTIQUE

Actuellement, aucun traitement curatif de la paralysie cérébrale n'est disponible. Les parents d'un enfant qui en est atteint ne peuvent qu'espérer voir une amélioration de l'état fonctionnel de leur enfant, tant sur le plan moteur que sur le plan de l'autonomie relative aux activités de la vie quotidienne, ainsi qu'une diminution des conséquences de l'incapacité. Le besoin à combler est d'offrir une option thérapeutique de remplacement ou complémentaire dans l'espoir de voir une évolution positive plus importante de l'état de l'enfant. Comme la paralysie cérébrale impose aux parents de lourdes responsabilités de par leur implication incontournable dans la prise en charge de l'état de leur enfant, ceux-ci s'intéressent aussi à des approches non traditionnelles qui pourraient s'intégrer plus aisément dans la vie de famille au quotidien et, par conséquent, améliorer la qualité de vie des proches.

Depuis la publication du rapport de l'AETMIS en 2007 sur la place de l'OHB dans la prise en charge de la paralysie cérébrale, six nouvelles études ont été publiées. À la lumière de la présente évaluation, ces nouvelles données ont une portée limitée et n'éclairent pas davantage sur l'efficacité et l'innocuité de l'OHB.

L'ensemble des données proviennent d'études qui, globalement, comportent plusieurs limites, notamment en ce qui a trait à la taille de l'échantillon, au groupe témoin, aux critères d'inclusion, à la gravité de l'atteinte initiale, aux thérapies de réadaptation suivies en parallèle de l'intervention, aux facteurs de confusion, à la qualité de la randomisation, au suivi, etc. En somme, tant les profils des sujets que les protocoles d'OHB (voire d'AHB) utilisés présentent une diversité non négligeable qui rend ardue la comparaison entre les différentes études. Les résultats mesurés diffèrent également entre les études (tout comme, dans plusieurs, les définitions qui s'y rapportent), de même que les outils de mesure utilisés. À ce sujet, selon certains professionnels consultés et selon certains parents, les outils utilisés en clinique⁵¹ (et dans les études) ne seraient pas assez sensibles pour détecter tous les changements qui pourraient être induits par l'OHB chez les enfants traités. Enfin, les hypothèses quant au mécanisme d'action potentiel de la thérapie hyperbare chez les enfants avec une paralysie cérébrale ne font pas l'unanimité (surtout considérant une intervention dans un caisson où l'air est légèrement pressurisé), la plausibilité biologique étant remise en question par plusieurs, notamment du fait que l'intervention se fasse plusieurs mois, voire plusieurs années suivant l'apparition des lésions cérébrales.

⁵¹ Selon le rapport de l'AHRQ [McDonagh *et al.*, 2003], en général, les parents d'un enfant (toutes atteintes confondues) exposé à l'OHB estiment que les analyses de la TEMP apportent la preuve d'une amélioration, bien que la corrélation entre celle-ci et une amélioration clinique ne soit pas établie.

6.1. Efficacité de l'OHB

L'évaluation de la fonction motrice fait l'objet d'un intérêt marqué dans les études examinées. Or, il ressort de la présente analyse que la fonction motrice n'est peut-être pas celle qui revêt le plus d'importance pour le parent ayant choisi d'avoir recours à l'OHB pour traiter son enfant. En effet, ce sont davantage des améliorations sur le plan cognitif qui ont été rapportées par un certain nombre de parents interviewés – ce que Harch [2017a] souligne également –, telles que l'attention et l'éveil ainsi que sur d'autres résultats d'intérêt, notamment la motricité fine, la spasticité et la qualité du sommeil. À cet égard, les données actuellement disponibles – en raison des limites méthodologiques et de leur très petit nombre – ne permettent pas de se prononcer sur plusieurs de ces résultats d'intérêt : la motricité fine, la spasticité, la communication, les processus cognitifs, les habiletés sociales et le sommeil.

Les questionnements et les préoccupations, au regard des études publiées, sont multiples : pertinence des groupes témoins (ou des traitements simulés) dans les ECR dont la qualité méthodologique est jugée adéquate (parce qu'il y a assurément une augmentation de la pression partielle d'oxygène); limites des devis pré-intervention et post-intervention (parce qu'une personne va toujours évoluer naturellement dans le temps); effet potentiel de la présence du parent dans la chambre hyperbare; influence des profils des enfants inclus dans les études sur la généralisation des résultats (l'inclusion d'enfants classés dans le niveau III de la GMFCS aurait pu être plus pertinente); comparaison de profils cliniques d'enfants qui ne peuvent être comparés (p. ex. : quadriplégie et hémiplégie).

Malgré les limites susmentionnées, certains constats peuvent être établis à la lumière de la littérature actuellement disponible, dont les suivants.

En premier lieu, les données disponibles permettent de conclure, avec un niveau de confiance modéré, qu'il n'y a aucune différence entre l'oxygénothérapie hyperbare (OHB) et une intervention dans un caisson où l'air est légèrement pressurisé (AHB) en ce qui a trait à l'amélioration de la motricité globale ou de l'autonomie des sujets (c'est-à-dire la capacité à assurer leur hygiène personnelle, à s'habiller et à s'alimenter). Il y a une forte cohérence entre les études (tous devis confondus) pour soutenir ce constat.

En second lieu, les données disponibles montrent que l'augmentation de la FiO_2 ne contribue pas à l'amélioration de la motricité globale et de l'autonomie (niveau de preuve faible).

Ce deuxième constat, qui remet en question plusieurs des hypothèses mises de l'avant pour soutenir un possible effet de l'OHB, repose principalement sur les travaux de Lacey [2012]. Au cours de cette étude, les sujets du groupe témoin ont été exposés à une FiO_2 de 14 % à une pression de 1,5 ATA pour simuler la pression partielle de l'oxygène de l'air ambiant. En contrepartie, dans l'étude de Collet [2001], le groupe témoin a été exposé à de l'air légèrement pressurisé à une pression de 1,3 ATA, ce qui augmente la pression partielle d'oxygène de 0,27 ATA. Dans les deux études, une amélioration a été observée chez les sujets du groupe témoin, sans différence significative par rapport au

groupe expérimental, soit une exposition à 100 % d'oxygène à des pressions de 1,5 ATA ou de 1,75 ATA, respectivement.

Comme des améliorations sont observées dans tous les groupes soumis à des niveaux de pression supérieurs à celui de la pression normale de 1 ATA, des incertitudes demeurent et les perspectives divergent à cet égard. Ainsi, selon certains, la pression accrue peut à elle seule produire un effet sur l'organisme humain [Figuerola et Wright, 2016; Harch, 2015; Efrati et Ben-Jacob, 2014a]; cela pourrait expliquer l'absence de différence entre le groupe traité par l'OHB et le groupe témoin; d'autres pensent au contraire que cette explication est discutable [Lansdorp et van Hulst, 2018]. D'autres études expérimentales ou portant sur des enfants atteints d'autres types de lésion cérébrale ont obtenu des résultats permettant d'arriver à une conclusion similaire [Wolf *et al.*, 2012; Macdonald et Fraser, 1999], mais dans la littérature scientifique, on ne trouve aucun consensus sur ce point [Harch, 2013; Johns Hopkins Medicine, 2011; Rossignol *et al.*, 2009; Kazantseva, 2002]. Parallèlement, des études ont rapporté un effet significatif de l'oxygène à des niveaux de pression égaux [Niezgoda *et al.*, 1997; Racic *et al.*, 1997; Bojic *et al.*, 1993; Fischer *et al.*, 1983] pour traiter d'autres atteintes que la paralysie cérébrale, telles que les problèmes de vision (glaucome), la sclérose en plaques ou la paralysie de Bell. Les résultats des études scientifiques à ce sujet ne sont pas encore unanimes [Annane *et al.*, 2004; Nilsson Remahl *et al.*, 2002; Pritchard *et al.*, 2001; Mekjavic *et al.*, 2000; Harpur *et al.*, 1986; Wood *et al.*, 1985].

Selon Bennett [2014], une intervention (ou thérapie considérée comme active) qui présente une efficacité similaire à un traitement simulé pourrait indiquer un possible effet placebo. En conséquence, l'utilisation de ce type d'intervention se justifie plus difficilement, surtout si celle-ci peut se révéler moins sécuritaire et plus coûteuse que le traitement simulé.

L'efficacité de l'OHB (ou de l'AHB) est généralement davantage remise en question par les professionnels de la santé que par les parents interviewés. L'amélioration perçue par les parents est fort probablement plus importante que celle observée par les cliniciens. Selon la majorité des experts consultés, toutefois, la littérature actuelle ne permet pas de se prononcer clairement sur l'efficacité de l'OHB. À contrario, selon certaines parties prenantes, une possible efficacité de l'AHB ne peut pas être infirmée. La démonstration de la valeur thérapeutique est complexe à faire et n'a pas pu être obtenue à l'évaluation des études publiées jusqu'ici, notamment en raison de la définition même de la paralysie cérébrale, dont les causes et les tableaux cliniques sont multiples – une hétérogénéité clinique qui se reflète d'ailleurs dans la littérature scientifique actuelle –, et du caractère évolutif de l'état des enfants – résultat de divers facteurs, dont le fait qu'ils reçoivent différents traitements offerts en concomitance.

L'évaluation de la preuve effectuée relativement à chacun des résultats d'intérêt dans le présent avis rejoint celle qui avait été relevée dans d'autres ETS (particulièrement McDonagh [2003] et celle de la Washington State Health Care Authority [2013]), à savoir que les preuves apparaissent, de façon générale, insuffisantes pour démontrer une efficacité de l'OHB pour améliorer différents résultats d'intérêt chez les enfants avec une paralysie cérébrale.

Ce qui peut limiter la portée des études retenues peut aussi être lié au fait qu'aucune ne porte un regard global sur l'état fonctionnel des enfants. Ce regard global intégrant l'ensemble des mesures individuelles pourrait être d'intérêt dans l'évaluation des effets réels sur l'état fonctionnel de l'enfant. Par ailleurs, il importe de rappeler que l'utilisation actuelle de l'OHB au Québec chez des enfants avec une paralysie cérébrale se fait à domicile dans des caissons hyperbares portatifs, à une pression de 1,3 ATA (sans augmentation de la concentration d'oxygène) – ce que désigne davantage l'AHB. Or, la majorité des études inclut des protocoles à des pressions d'au moins 1,5 ATA et l'ajout d'oxygène.

6.2. Innocuité de l'OHB

Les quatre études ayant rapporté des résultats sur l'innocuité de l'OHB chez les enfants avec une paralysie cérébrale comportent des limites relativement significatives quant à la façon dont les auteurs ont procédé à l'évaluation des effets indésirables et rapporté, de façon parcellaire, les résultats. Les douleurs aux oreilles et/ou les barotraumatismes de l'oreille sont ceux ayant été le plus fréquemment rapportés. McDonagh et ses collaborateurs [2003], dans leur ETS effectuée pour le compte de l'AHRQ en 2003, avaient mentionné qu'aucune étude alors repérée n'avait été conçue spécifiquement pour évaluer les effets indésirables, et la présente évaluation est en accord avec cet avis. McDonagh et ses collaborateurs [2003] reviennent à de nombreuses reprises, au fil des ans [McDonagh, 2018; McDonagh *et al.*, 2007], sur le fait qu'il y a peu de données probantes sur l'innocuité de l'OHB chez une clientèle vulnérable comme des enfants avec une paralysie cérébrale – préoccupation partagée par certains des experts du comité consultatif. Dans la revue systématique de Lansdorp et van Hulst [2018] relative aux groupes témoins dans les études portant sur l'OHB, des limites ont été également relevées quant à la façon dont étaient rapportés les effets indésirables tels que le barotraumatisme, plusieurs se fiant sur les plaintes des participants et peu utilisant des outils de mesure appropriés, tels que l'otoscopie pour détecter le barotraumatisme de l'oreille.

L'utilisation actuelle la plus courante au Québec est l'AHB effectuée par les parents dans des caissons hyperbares portatifs à domicile. Selon ce qui a été rapporté par les parents en entrevue, peu d'effets indésirables semblent avoir été observés. Les experts ont toutefois voulu mettre l'accent sur l'importance de bien connaître les procédures de décompression pour réduire au minimum les risques associés aux expositions, tant uniques que répétées, parce que la thérapie hyperbare n'est pas totalement sans risque, peu importe la pression utilisée.

Si les parents utilisateurs d'OHB ont une perception de grande sécurité de l'appareillage et ne témoignent pas de risques ou d'effets indésirables autres que des désagréments mineurs, les spécialistes de médecine hyperbare et les professionnels de la santé, tout comme les experts consultés, se disent tout de même préoccupés, d'autant plus que les données issues de la littérature sont minimales et d'une qualité discutable. L'utilisation des caissons à domicile soulèvent, selon eux, des questions de sécurité en l'absence de procédure normalisée pour assurer la qualité des informations transmises aux utilisateurs, tout comme le mentionne Santé Canada [2019b].

6.3. Qualité de vie des enfants traités par l'OHB et de leurs proches

Aucune étude évaluée n'a rapporté de données sur la qualité de vie, pourtant capitale pour soutenir l'introduction d'une telle technologie. Par conséquent, seules des données tirées de consultations avec quelques parents d'un enfant avec une paralysie cérébrale et quelques professionnels de la réadaptation ont permis de mettre en lumière l'importance accordée par les parents à toute amélioration perçue chez leur enfant, aussi minime soit-elle. Selon plusieurs parents utilisateurs, l'OHB – particulièrement lorsqu'elle est effectuée à domicile (AHB) – est un traitement facile, qui s'intègre bien à une vie de famille souvent complexe et intense, caractérisée par la gestion de nombreux rendez-vous pour des consultations médicales et des services de réadaptation et un soutien presque constant à offrir à l'enfant (soutien pour lequel une aide ponctuelle plus fréquente serait d'ailleurs appréciée).

6.4. Questions sociales, éthiques et de pratique

L'utilisation actuelle de l'OHB chez des enfants avec une paralysie cérébrale soulève un certain nombre de questions, notamment sur le plan de l'équité d'accès. En effet, cette utilisation entraîne des coûts souvent importants pour les parents, qu'ils achètent un caisson hyperbare ou qu'ils aillent en clinique privée, et ce fardeau financier ne peut pas être considéré par certains parents. Selon Fife [2017], en l'absence de preuves scientifiques claires de l'efficacité de l'OHB pour traiter ces enfants, cette utilisation onéreuse soulève un problème d'éthique. Cet usage peut être d'autant plus discutable qu'il est difficile de se prononcer sur un effet bénéfique de l'OHB plus important que les risques qui y sont associés [Fife *et al.*, 2017; Mitchell et Bennett, 2014].

Les risques associés à l'OHB, bien qu'ils soient faibles, soulèvent aussi une question de sécurité associée à l'utilisation actuelle qui en est faite chez des enfants avec une paralysie cérébrale, soit à domicile par les parents ou en clinique privée par des personnes qui ne sont pas nécessairement spécialistes de la médecine hyperbare.

Fife et ses collaborateurs [2017] soulèvent également la question d'offrir un traitement hors indication (*off label*) sans que le consentement du patient soit dûment éclairé (à savoir qu'il connaît les autres options que le traitement proposé, qu'il en connaît les risques et le niveau de preuve soutenant son utilisation, que le prestataire déclare ses potentiels conflits d'intérêts à proposer un tel traitement). Au Québec, le médecin ne peut pas prescrire, en vertu du Code de déontologie⁵² qu'il doit respecter, un traitement d'OHB aux personnes avec une paralysie cérébrale, sauf dans le cadre d'un projet de recherche dont le protocole a été dûment approuvé par un comité d'éthique à la recherche. Le médecin a cependant un devoir d'information à l'égard du patient ou de ses parents, dans le cas de mineurs s'ils le requièrent, relativement aux traitements non reconnus qu'ils ont la liberté de choisir.

⁵² Collège des médecins du Québec (CMQ). Déontologie [site Web]. Disponible à : <http://www.cmq.org/page/fr/code-de-deontologie-des-medecins.aspx> (consulté le 21 novembre 2019).

PRINCIPAUX CONSTATS

L'analyse des données recueillies permet de dégager les principaux constats suivants :

- La paralysie cérébrale est une atteinte incurable dont les facteurs de risque sont multiples et qui présente différents profils cliniques, causant chez l'enfant des incapacités diverses et complexifiant le diagnostic. Cet état requiert :
 - une information et un soutien adaptés aux besoins des enfants et de leurs proches;
 - selon la gravité de l'atteinte, une diversité de soins et de services pour assurer la prise en charge de l'enfant, tels que des traitements médicaux, médicamenteux, chirurgicaux et de réadaptation;
 - une coordination entre les différents professionnels de la santé, services et établissements (CH, CRDP, CLSC) concernés pour assurer le suivi de l'enfant;
 - des services appropriés à toutes les étapes de la vie de l'enfant.
- Dans l'espoir d'améliorer davantage l'évolution de leur enfant, certains parents recherchent une option thérapeutique de remplacement ou complémentaire aux traitements usuels.
- L'intérêt porté à l'oxygénothérapie hyperbare (OHB) pour la prise en charge des enfants avec une paralysie cérébrale au Québec remonte aux années 90. Toutefois :
 - aucune agence réglementaire ou société savante en médecine hyperbare n'a encore reconnu l'efficacité de l'OHB pour traiter cette affection;
 - aucun régime d'assurance publique au Canada, aux États-Unis ou autre système de santé comparable ne rembourse le traitement d'OHB pour traiter la paralysie cérébrale.
- Les données scientifiques disponibles (10 études publiées) montrent :
 - qu'il n'y a aucune différence entre l'OHB et une intervention dans un caisson hyperbare où l'air est légèrement pressurisé (AHB) – lorsqu'elle est utilisée comme comparateur dans les études – sur l'amélioration de la motricité globale et de l'autonomie;
 - que l'augmentation de la fraction inspirée en oxygène (FiO_2) n'a pas d'effet sur l'amélioration de la motricité globale et de l'autonomie, ce qui remet en question plusieurs des hypothèses mises de l'avant pour soutenir un possible effet thérapeutique de l'OHB.

De plus, les données scientifiques ne permettent pas de reconnaître que l'OHB est efficace pour améliorer la motricité globale, la motricité fine, la spasticité,

l'autonomie, la communication, les processus cognitifs et les habiletés sociales ainsi que la qualité du sommeil.

- Ainsi, aucune donnée scientifique robuste ne permet présentement de soutenir un effet thérapeutique de l'OHB (ou de son comparateur, l'AHB) chez les enfants avec une paralysie cérébrale. Toutefois, les résultats d'intérêt auxquels des effets sont perçus et rapportés par quelques parties prenantes et parents utilisateurs ne sont pas nécessairement les mêmes que ceux analysés dans la littérature.
- L'OHB est une technique thérapeutique généralement reconnue comme étant sécuritaire, lorsqu'elle est utilisée adéquatement dans des indications pour lesquelles la balance entre les bénéfices et les risques est jugée favorable. Toutefois :
 - les données disponibles ne permettent pas de se prononcer sur une innocuité de l'OHB chez des enfants avec une paralysie cérébrale;
 - des préoccupations subsistent chez des professionnels de la santé et des experts en ce qui a trait à une utilisation sécuritaire de l'AHB, malgré une perception positive des parents utilisateurs quant à la sécurité de l'intervention.
- Alors que la présence d'une paralysie cérébrale peut avoir des répercussions importantes sur la qualité de vie des enfants touchés et de celle de leur famille, aucune étude ayant évalué l'effet de l'OHB sur cet aspect n'a été repérée.
- Au Québec, l'AHB est souvent utilisée à domicile pour traiter des enfants avec une paralysie cérébrale, dans un caisson portatif à parois souples où l'air est légèrement pressurisé et sans apport additionnel d'oxygène pur. Davantage de données sont toutefois requises pour évaluer l'efficacité et l'innocuité de ce type d'intervention (AHB) et ses effets sur la qualité de vie des enfants vivant avec une paralysie cérébrale. À cet égard, Santé Canada a publié, à l'automne 2019, une mise en garde relativement à l'utilisation des caissons hyperbares à parois souples, qui ne sont pas homologués et qui pourraient présenter des risques pour la santé.

DÉLIBÉRATIONS DU COMITÉ D'EXCELLENCE CLINIQUE EN SERVICES DE SANTÉ

Les données scientifiques, contextuelles et expérientielles ont fait l'objet de délibérations avec les membres du CEC en services de santé pour statuer sur la valeur thérapeutique de l'OHB chez les enfants avec une paralysie cérébrale.

Les membres du CEC ont soulevé certaines préoccupations sur les études retenues concernant :

- la faible qualité méthodologique et la validité scientifique;
- l'importance de l'ampleur des effets rapportés;
- la façon dont ont été mesurés les résultats analysés, notamment en raison des outils qui ont été utilisés et dont la validité reste, dans plusieurs cas, à démontrer;
- les conditions d'observation des enfants, qui ne sont pas précisées en détail et qui peuvent avoir une incidence sur les résultats constatés;
- et l'évolution naturelle de l'enfant, laquelle n'est pas non plus considérée.

Selon certains membres, si les données actuelles ne permettent pas de confirmer une efficacité à de l'OHB pour traiter les enfants avec une paralysie cérébrale, elles ne permettent pas non plus de l'infirmier; il en va de même pour l'innocuité.

Bien que quelques études aient utilisé l'AHB comme comparateur de l'OHB, les données ne permettent pas davantage de reconnaître une valeur thérapeutique à l'AHB.

Les membres se sont dits perplexes quant à l'absence de preuve scientifique solide alors que l'OHB utilisée comme option thérapeutique chez les enfants qui ont une paralysie cérébrale semble faire l'objet de discussions depuis plusieurs années déjà. L'absence de preuves établies quant aux mécanismes d'action de l'OHB chez cette clientèle soulève également des questions. Les membres reconnaissent la complexité d'établir cette preuve.

De plus, les membres se sont dits préoccupés par le fait que des parents utilisent, pour leur enfant, une technologie qui n'a pas fait ses preuves et qui n'est pas nécessairement sans risque. Ils reconnaissent qu'il règne actuellement une certaine confusion quant à son utilisation, tout de même tolérée bien qu'elle ne soit pas reconnue, et qu'ainsi les parents se retrouvent dans une situation difficile et ambiguë. En l'absence de données probantes, les parents ne peuvent se fier qu'aux avantages perçus et qui leur sont rapportés. Or, les parents ont espoir que l'état de leur enfant pourra s'améliorer; pour eux, tout gain fonctionnel chez leur enfant est important, et ce, pour l'ensemble de la famille.

Enfin, les membres du CEC désirent faire ressortir l'importance d'offrir une prise en charge des enfants avec une paralysie cérébrale qui soit empreinte d'humanité; il leur est toutefois impossible de reconnaître une valeur thérapeutique à l'OHB.

Sur la base de ces données, les membres du CEC s'entendent de façon unanime sur le fait qu'une valeur thérapeutique ne peut pas être reconnue à l'usage de l'OHB (ou de l'AHB) chez les enfants avec une paralysie cérébrale.

RECOMMANDATION DE L'INESSS

À la lumière des données scientifiques disponibles, contextuelles et expérientielles colligées, et en l'absence de démonstration d'une valeur thérapeutique, l'INESSS est d'avis que l'ajout de l'OHB ou de l'AHB à la gamme de services publics pour traiter les enfants avec une paralysie cérébrale ne constitue pas une option juste et raisonnable.

RÉFÉRENCES

- Agence d'évaluation des technologies et des modes d'intervention en santé (AETMIS). Indications de l'oxygénothérapie hyperbare : mise à jour. Rapport préparé par Guylaine Rouleau, Khalil Moqadem et Gilles Pineau. Montréal, Qc : AETMIS; 2008. Disponible à : https://www.inesss.qc.ca/fileadmin/doc/AETMIS/Rapports/Traitements/ETMIS2008_Vol4_No5.pdf.
- Agence d'évaluation des technologies et des modes d'intervention en santé (AETMIS). Place de l'oxygénothérapie hyperbare dans la prise en charge de la paralysie cérébrale. Rapport préparé par Gilles Pineau et Khalil Moqadem avec la collaboration d'Alexandra Obadia et de Stéphane Perron. Montréal, Qc : AETMIS; 2007. Disponible à : https://www.inesss.qc.ca/fileadmin/doc/AETMIS/Rapports/Traitements/ETMIS2007_Vol3_No1.pdf.
- Agence de la santé publique du Canada (ASPC). Lignes directrices pour la prévention et le contrôle des infections : trousse d'outils de l'évaluation critique. Ottawa, ON : ASPC; 2014. Disponible à : http://publications.gc.ca/collections/collection_2014/aspc-phac/HP40-119-2014-fra.pdf.
- Alhusaini AA, Dean CM, Crosbie J, Shepherd RB, Lewis J. Evaluation of spasticity in children with cerebral palsy using Ashworth and Tardieu Scales compared with laboratory measures. J Child Neurol 2010;25(10):1242-7.
- Alotaibi M, Long T, Kennedy E, Bavishi S. The efficacy of GMFM-88 and GMFM-66 to detect changes in gross motor function in children with cerebral palsy (CP): A literature review. Disabil Rehabil 2014;36(8):617-27.
- American Psychological Association (APA). APA Dictionary of Psychology [site Web]. Washington, DC : APA; 2018. Disponible à : <https://dictionary.apa.org/cognitive-functioning> (consulté le 29 novembre 2019).
- Amiel-Tison C et Gosselin J. Pathologie neurologique périnatale et ses conséquences. Issy-les-Moulineaux, France : Elsevier Masson; 2010.
- Annane D, Depondt J, Aubert P, Villart M, Géhanno P, Gajdos P, Chevret S. Hyperbaric oxygen therapy for radionecrosis of the jaw: A randomized, placebo-controlled, double-blind trial from the ORN96 study group. J Clin Oncol 2004;22(24):4893-900.
- Araneda R, Ebner-Karestinos D, Paradis J, Saussez G, Friel KM, Gordon AM, Bleyenheuft Y. Reliability and responsiveness of the Jebsen-Taylor Test of Hand Function and the Box and Block Test for children with cerebral palsy. Dev Med Child Neurol 2019;61(10):1182-8.
- Ashwal S, Russman BS, Blasco PA, Miller G, Sandler A, Shevell M, Stevenson R. Practice parameter: diagnostic assessment of the child with cerebral palsy: Report of the Quality Standards Subcommittee of the American Academy of Neurology and the Practice Committee of the Child Neurology Society. Neurology 2004;62(6):851-63.
- Azhar MJ, Zareen A, Saleem Z, Akhtar R. Evaluation of role of hyperbaric oxygen therapy in children with cerebral palsy - Our experience at Armed Forces Hospital, King Abdul Aziz Naval Base, KSA. Pak J Med Health Sci 2017;11(4):1407-11.

- Bakker DJ. Hyperbaric oxygen therapy: Past, present and future indications. *Adv Exp Med Biol* 1992;317:95-105.
- Baranello G, Signorini S, Tinelli F, Guzzetta A, Pagliano E, Rossi A, et al. Visual Function Classification System for children with cerebral palsy: Development and validation. *Dev Med Child Neurol* 2020;62(1):104-10.
- Bauch F-M et Steinberg H. A review: The validity and reliability of the Modified Ashworth Scale as a measurement tool for the evaluation of spasticity and its applicability to children with cerebral palsy. Amsterdam, Pays-Bas : European School of Physiotherapy; 2005. Disponible à : <https://pdfs.semanticscholar.org/aac2/976b83964df77646c38137c6143fcdd658b6.pdf>.
- Bautista M, Whittingham K, Edwards P, Boyd RN. Psychometric properties of parent and child reported sleep assessment tools in children with cerebral palsy: A systematic review. *Dev Med Child Neurol* 2018;60(2):162-72.
- Bax M, Goldstein M, Rosenbaum P, Leviton A, Paneth N, Dan B, et al. Proposed definition and classification of cerebral palsy, April 2005. *Dev Med Child Neurol* 2005;47(8):571-6.
- Beckers LW et Bastiaenen CH. Application of the Gross Motor Function Measure-66 (GMFM-66) in Dutch clinical practice: A survey study. *BMC Pediatr* 2015;15:146.
- Bennett MH. Hyperbaric medicine and the placebo effect. *Diving Hyperb Med* 2014;44(4):235-40.
- Bhutani S et Vishwanath G. Hyperbaric oxygen and wound healing. *Indian J Plast Surg* 2012;45(2):316-24.
- Blanc P. Traitement par oxygénothérapie hyperbare après un accident vasculaire cérébral de plus de 6 mois : évaluation des activités et participation – à propos de 9 cas [thèse]. Nice, France : Faculté de médecine, Université de Nice Sophia Antipolis; 2017. Disponible à : <https://pdfs.semanticscholar.org/2e2d/3028fcf382483975f814c0fe22b34a705522.pdf>.
- Bojic L, Racic G, Gosovic S, Kovacevic H. The effect of hyperbaric oxygen breathing on the visual field in glaucoma. *Acta Ophthalmol (Copenh)* 1993;71(3):315-9.
- Bonnechère B, Wermenbol V, Dan B, Degelaen M, Salvia P, Rooze M, Van Sint Jan S. Examen clinique de l'enfant infirme moteur cérébral : existe-t-il un consensus entre les praticiens ? *Rev Med Brux* 2013;34(2):70-8.
- Boussi-Gross R, Golan H, Fishlev G, Bechor Y, Volkov O, Bergan J, et al. Hyperbaric oxygen therapy can improve post concussion syndrome years after mild traumatic brain injury - Randomized prospective trial. *PLoS One* 2013;8(11):e79995.
- Bove AA. Barotraumatisme [site Web]. Le Manuel MSD – Version pour professionnels de la santé. Kenilworth, NJ : Merck and Co., Inc.; 2017. Disponible à : <https://www.merckmanuals.com/fr-ca/professional/blessures-empoisonnement/l%C3%A9sions-li%C3%A9es-%C3%A0-la-plong%C3%A9e-sous-marine-ou-au-travail-en-atmosph%C3%A8re-comprim%C3%A9/barotraumatisme> (consulté le 5 décembre 2019).
- Brooker C. Chapitre 12 - Le système respiratoire. Dans : Le corps humain - Étude, structure et fonction. 2^e éd. Bruxelles, Belgique : De Boeck Supérieur; 2000 : 255-86.

- Bruni O, Ottaviano S, Guidetti V, Romoli M, Innocenzi M, Cortesi F, Giannotti F. The Sleep Disturbance Scale for Children (SDSC). Construction and validation of an instrument to evaluate sleep disturbances in childhood and adolescence. *J Sleep Res* 1996;5(4):251-61.
- Bulekbayeva S, Daribayev Z, Ospanova S, Vento S. Cerebral palsy: A multidisciplinary, integrated approach is essential. *Lancet Glob Health* 2017;5(4):e401.
- Camporesi EM et Bosco G. Mechanisms of action of hyperbaric oxygen therapy. *Undersea Hyperb Med* 2014;41(3):247-52.
- Canadian Undersea and Hyperbaric Medical Association (CUHMA). Guidelines to the practice of clinical hyperbaric medicine and provision of hyperbaric oxygen treatment. First Edition. Portugal Cove-St. Philips, NL : CUHMA; 2015. Disponible à : https://cuhma.ca/application/files/2814/7978/0661/CUHMA_Standards_of_Practice_Guidelines_1st_Edition.pdf.
- Carls C et Sherry C. Medicare reimbursement for hyperbaric oxygen therapy. *Wound Care Advisor* 2014;3(2):27-8, 39.
- Chang L-Y, Wang M-Y, Tsai P-S. Diagnostic accuracy of rating scales for attention-deficit/hyperactivity disorder: A meta-analysis. *Pediatrics* 2016;137(3):e20152749.
- Collet JP, Vanasse M, Marois P, Amar M, Goldberg J, Lambert J, et al. Hyperbaric oxygen for children with cerebral palsy: A randomised multicentre trial. HBO-CP Research Group. *Lancet* 2001;357(9256):582-6.
- Conners CK. Conners' Parent Rating Scale – Revised. North Tonawanda, NY : Multi-Health Systems; 1997.
- Conners CK, Sitarenios G, Parker JD, Epstein JN. The revised Conners' Parent Rating Scale (CPRS-R): Factor structure, reliability, and criterion validity. *J Abnorm Child Psychol* 1998;26(4):257-68.
- Conseil d'évaluation des technologies de la santé (CETS). L'oxygénothérapie hyperbare au Québec. Montréal, Qc : CETS; 2000. Disponible à : https://www.inesss.qc.ca/fileadmin/doc/AETMIS/Rapports/Autres/2000_03_fr.pdf.
- Constantin E. Une bonne nuit de sommeil pour les enfants ayant des incapacités. Incapacités de l'enfant LINK. Montréal, Qc : Hôpital de Montréal pour enfants, Centre universitaire de santé McGill; 2017. Disponible à : https://www.childhooddisability.ca/wp-content/uploads/2017/05/CP_SLEEP_FR_final.pdf.
- Delatolas J et Hardy P. Étude épidémiologique sur la latéralité, le langage et la préférence manuelle chez des enfants de 3 à 8 ans en milieu scolaire. Paris, France : Programme de Recherche épidémiologique de l'Institut National de la Santé et de la Recherche Médicale; 1993.
- DerSimonian R et Laird N. Meta-analysis in clinical trials. *Control Clin Trials* 1986;7(3):177-88.
- Dudley JG et Delage J. Incidence des troubles de la parole et du langage chez les enfants franco-québécois. *Communication Humaine* 1980;5:131-42.
- Duran I, Stark C, Martakis K, Hamacher S, Semler O, Schoenau E. Reference centiles for the gross motor function measure and identification of therapeutic effects in children with cerebral palsy. *J Eval Clin Pract* 2019;25(1):78-87.

- Dussault J, Giguère K, St-Jacques S. Interventions orthophoniques auprès de jeunes enfants présentant des difficultés d'acquisition ou de développement du langage et dont la langue maternelle diffère de la langue majoritaire : plan de réalisation - ETMI abrégée. Unité d'évaluation des technologies et des modes d'intervention en santé et en services sociaux. Québec, Qc : Centre intégré universitaire de santé et de services sociaux de la Capitale-Nationale; 2018. Disponible à : <http://numerique.banq.qc.ca/patrimoine/details/52327/3593051>.
- Efrati S et Ben-Jacob E. Reflections on the neurotherapeutic effects of hyperbaric oxygen. *Expert Rev Neurother* 2014a;14(3):233-6.
- Efrati S et Ben-Jacob E. How and why hyperbaric oxygen therapy can bring new hope for children suffering from cerebral palsy – An editorial perspective. *Undersea Hyperb Med* 2014b;41(2):71-6.
- Eliasson AC, Krumlinde-Sundholm L, Rösblad B, Beckung E, Arner M, Ohrvall AM, Rosenbaum P. The Manual Ability Classification System (MACS) for children with cerebral palsy: Scale development and evidence of validity and reliability. *Dev Med Child Neurol* 2006;48(7):549-54.
- Ellenberg JH et Nelson KB. The association of cerebral palsy with birth asphyxia: A definitional quagmire. *Dev Med Child Neurol* 2013;55(3):210-6.
- Ferland C, Lajeunesse G, Deblois M. Déficience motrice cérébrale : document pour les parents. Québec, Qc : Institut de réadaptation en déficience physique de Québec; 2005. Disponible à : https://www.ciuss-capitalenationale.gouv.qc.ca/sites/default/files/brochure_dmc_web.pdf.
- Fife CE, Eckert KA, Workman WT. Ethical issues, standards, and quality control in the practice of hyperbaric medicine. Dans : Jain KK, éd. *Textbook of Hyperbaric Medicine*. Cham, Suisse : Springer; 2017 : 597-608.
- Figuerola XA et Wright JK. Hyperbaric oxygen: B-level evidence in mild traumatic brain injury clinical trials. *Neurology* 2016;87(13):1400-6.
- Fischer BH, Marks M, Reich T. Hyperbaric-oxygen treatment of multiple sclerosis. A randomized, placebo-controlled, double-blind study. *N Engl J Med* 1983;308(4):181-6.
- Folkerth RD. Neuropathologic substrate of cerebral palsy. *J Child Neurol* 2005;20(12):940-9.
- Furger P, Soldner R, Pignel R, Delafosse B. La médecine hyperbare. Ce que le médecin généraliste doit savoir. *Forum Médical Suisse* 2017;17(18):401-5.
- Goyal V, Laisram N, Wadhwa RK, Kothari SY. Prospective randomized study of oral diazepam and baclofen on spasticity in cerebral palsy. *J Clin Diagn Res* 2016;10(6):RC01-5.
- Graham HK, Rosenbaum P, Paneth N, Dan B, Lin JP, Damiano DL, et al. Cerebral palsy. *Nat Rev Dis Primers* 2016;2:15082.
- Guay J, Martin R, Plaud B. *Précis d'anesthésie et de réanimation*. 5^e éd. Montréal, Qc : Presses de l'Université de Montréal; 2012.
- Guyard A, Fauconnier J, Mermet MA, Cans C. Impact sur les parents de la paralysie cérébrale chez l'enfant : revue de la littérature. *Arch Pediatr* 2011;18(2):204-14.

- Guyatt GH, Oxman AD, Sultan S, Glasziou P, Akl EA, Alonso-Coello P, et al. GRADE guidelines: 9. Rating up the quality of evidence. *J Clin Epidemiol* 2011;64(12):1311-6.
- Hadanny A et Efrati S. Oxygen - a limiting factor for brain recovery. *Crit Care* 2015;19:307.
- Hadanny A, Abbott S, Suzin G, Bechor Y, Efrati S. Effect of hyperbaric oxygen therapy on chronic neurocognitive deficits of post-traumatic brain injury patients: Retrospective analysis. *BMJ Open* 2018;8(9):e023387.
- Hailey D. Hyperbaric oxygen therapy – Recent findings on evidence for its effectiveness. Edmonton, AB : Alberta Heritage Foundation for Medical Research; 2003. Disponible à : https://archive.org/details/hyperbaricoxygen00hail_0/mode/2up.
- Haley SM, Coster WI, Kao YC, Dumas HM, Fragala-Pinkham MA, Kramer JM, et al. Lessons from use of the Pediatric Evaluation of Disability Inventory: Where do we go from here? *Pediatr Phys Ther* 2010;22(1):69-75.
- Haley SM, Coster WJ, Faas RM. A content validity study of the Pediatric Evaluation of Disability Inventory. *Pediatr Phys Ther* 1991;3(4):177-84.
- Harch PG. HBO in the management of cerebral palsy. Dans : Jain KK, réd. *Textbook of Hyperbaric Medicine*. Cham, Suisse : Springer; 2017a : 351-64.
- Harch PG. HBO therapy in global cerebral ischemia/anoxia and coma. Dans : Jain KK, réd. *Textbook of Hyperbaric Medicine*. Cham, Suisse : Springer; 2017b : 269-319.
- Harch PG. Hyperbaric oxygen in chronic traumatic brain injury: Oxygen, pressure, and gene therapy. *Med Gas Res* 2015;5:9.
- Harch PG. Hyperbaric oxygen therapy for post-concussion syndrome: Contradictory conclusions from a study mischaracterized as sham-controlled. *J Neurotrauma* 2013;30(23):1995-9.
- Hardy P, Collet JP, Goldberg J, Ducruet T, Vanasse M, Lambert J, et al. Neuropsychological effects of hyperbaric oxygen therapy in cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 2002;44(7):436-46.
- Harpur GD, Suke R, Bass BH, Bass MJ, Bull SB, Reese L, et al. Hyperbaric oxygen therapy in chronic stable multiple sclerosis: Double-blind study. *Neurology* 1986;36(7):988-91.
- Haute Autorité de Santé (HAS). Oxygénothérapie hyperbare. Service évaluation des actes professionnels. Saint-Denis La Plaine, France : HAS; 2007. Disponible à : https://www.has-sante.fr/jcms/c_498469/fr/rapport-ohb.
- Heyboer M 3rd, Milovanova TN, Wojcik S, Grant W, Chin M, Hardy KR, et al. CD34+/CD45-dim stem cell mobilization by hyperbaric oxygen—Changes with oxygen dosage. *Stem Cell Res* 2014;12(3):638-45.
- Heyboer M 3rd, Sharma D, Santiago W, McCulloch N. Hyperbaric oxygen therapy: Side effects defined and quantified. *Adv Wound Care (New Rochelle)* 2017;6(6):210-24.
- Hidecker MJ, Paneth N, Rosenbaum PL, Kent RD, Lillie J, Eulenberg JB, et al. Developing and validating the Communication Function Classification System for individuals with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 2011;53(8):704-10.

- Higgins J, Thompson S, Deeks J, Altman D. Statistical heterogeneity in systematic reviews of clinical trials: A critical appraisal of guidelines and practice. *J Health Serv Res Policy* 2002;7(1):51-61.
- Himpens E, Van den Broeck C, Oostra A, Calders P, Vanhaesebrouck P. Prevalence, type, distribution, and severity of cerebral palsy in relation to gestational age: A meta-analytic review. *Dev Med Child Neurol* 2008;50(5):334-40.
- Hôpitaux Universitaires Genève (HUG). La médecine hyperbare. Indications et conseils pour les traitements hyperbares. Genève, Suisse : HUG; 2018. Disponible à : https://www.hug-ge.ch/sites/interhug/files/documents/medecine_hyperbare.pdf.
- Horwood L, Mok E, Li P, Oskoui M, Shevell M, Constantin E. Prevalence of sleep problems and sleep-related characteristics in preschool- and school-aged children with cerebral palsy. *Sleep Med* 2018;50:1-6.
- Jain KK. HBO therapy in wound healing, plastic surgery, and dermatology. Dans : Jain KK, réd. *Textbook of Hyperbaric Medicine*. Cham, Suisse : Springer; 2017a : 183-205.
- Jain KK. Hyperbaric chambers: Equipment, technique, and safety. Dans : Jain KK, réd. *Textbook of Hyperbaric Medicine*. Cham, Suisse : Springer; 2017b : 61-78.
- Jain KK. Drug interactions with hyperbaric oxygenation. Dans : Jain KK, réd. *Textbook of Hyperbaric Medicine*. Cham, Suisse : Springer; 2017c : 85-9.
- Jain KK. Worldwide overview of hyperbaric medicine. Dans : Jain KK, réd. *Textbook of Hyperbaric Medicine*. Cham, Suisse : Springer; 2017d : 609-14.
- Jain KK. Effects of diving and high pressure on the human body. Dans : Jain KK, réd. *Textbook of Hyperbaric Medicine*. Cham, Suisse : Springer; 2017e : 23-31.
- Jain KK. Indications, contraindications, and complications of HBO therapy. Dans : Jain KK, réd. *Textbook of Hyperbaric Medicine*. Cham, Suisse : Springer; 2017f : 79-84.
- Jan MM. Cerebral palsy: Comprehensive review and update. *Ann Saudi Med* 2006;26(2):123-32.
- Jebsen RH, Taylor N, Trieschmann RB, Trotter MJ, Howard LA. An objective and standardized test of hand function. *Arch Phys Med Rehabil* 1969;50(6):311-9.
- Johns Hopkins Medicine. Scuba diving improves function of body, mind in vets with spinal cord injury [site Web]. Baltimore, MD : Johns Hopkins Medicine; 2011. Disponible à : https://www.hopkinsmedicine.org/news/media/releases/scuba_diving_improves_function_of_body_mind_in_vets_with_spinal_cord_injury (consulté le 3 octobre 2019).
- Jovanovic T, Janjic J, Jovanovic AM. The effectiveness of hyperbaric oxygenation treatment on circadian rhythm and motor functioning in children with cerebral palsy. *Int J Sci Res (Ahmedabad)* 2017;6(4):619-23.
- Katanani HJ. The effect of hyperbaric oxygen therapy on gross motor skills, sociality and awareness of children with cerebral palsy and mental handicap. *Eur Sci J* 2012;8(10):154-68.
- Kazantseva NV. Mechanisms of curative effect of minimized hyperbaric treatment in cerebral ischemia. Dans : Joiner JT, réd. *The Proceedings of the 2nd International Symposium on Hyperbaric Oxygenation for Cerebral Palsy and the Brain-Injured Child*. Flagstaff, AZ : Best Publishing Co.; 2002 : 199-212.

- Khaoulani N, Calmels P, Ollagnon H, Gonard C, Domenach M, Minaire P. Evaluation fonctionnelle par l'indice de Barthel. A propos de 100 malades dans un service de rééducation fonctionnelle générale. *Ann Readapt Med Phys* 1991;34(2):129-36.
- Koman LA, Smith BP, Shilt JS. Cerebral palsy. *Lancet* 2004;363(9421):1619-31.
- Krumlinde-Sundholm L. Le MACS, un système de classification des capacités manuelles pour enfants paralysés cérébraux. Développement de l'échelle et preuves de validité et de fiabilité. *Motricité Cérébrale* 2013;34(1):1-5.
- Kurt EE. Definition, epidemiology, and etiological factors of cerebral palsy. Dans : Gunel MK, réd. *Cerebral Palsy: Current Steps*. Londres, Angleterre : IntechOpen; 2016 : 3-20.
Disponible à : https://www.researchgate.net/publication/308401297_Definition_Epidemiology_and_Etiological_Factors_of_Cerebral_Palsy.
- Lacey DJ, Stolfi A, Pilati LE. Effects of hyperbaric oxygen on motor function in children with cerebral palsy. *Ann Neurol* 2012;72(5):695-703.
- Lansdorp CA et van Hulst RA. Double-blind trials in hyperbaric medicine: A narrative review on past experiences and considerations in designing sham hyperbaric treatment. *Clin Trials* 2018;15(5):462-76.
- Last JM. Dictionnaire d'épidémiologie : enrichi d'un lexique anglais-français. Acton Vale, Qc : Edisem; 2004.
- Leark RA, Dupuy TR, Greenberg L, Kindschi C, Corman CL. T.O.V.A., Test of Variables of Attention: Professional manual, version 7.0. Los Alamitos, CA : Universal Attention Disorders; 1996.
- Letellier G, Parent A, Raison M, Marois P, Mercier C, Crevier L, et al. Radicellectomie sensitive partielle basée sur des observations cliniques : description des critères de décision et effet sur la marche des enfants avec paralysie cérébrale. *Ann Phys Rehabil Med* 2013;56(Suppl 1):e298 [abstract CO39-006-f].
- Liberto CM, Albrecht PJ, Herx LM, Yong VW, Levison SW. Pro-regenerative properties of cytokine-activated astrocytes. *J Neurochem* 2004;89(5):1092-100.
- Lin KC, Niu KC, Tsai KJ, Kuo JR, Wang LC, Chio CC, Chang CP. Attenuating inflammation but stimulating both angiogenesis and neurogenesis using hyperbaric oxygen in rats with traumatic brain injury. *J Trauma Acute Care Surg* 2012;72(3):650-9.
- Llorente AM, Amado AJ, Voigt RG, Berretta MC, Fraley JK, Jensen CL, Heird WC. Internal consistency, temporal stability, and reproducibility of individual index scores of the Test of Variables of Attention in children with attention-deficit/hyperactivity disorder. *Arch Clin Neuropsychol* 2001;16(6):535-46.
- Long Y, Tan J, Nie Y, Lu Y, Mei X, Tu C. Hyperbaric oxygen therapy is safe and effective for the treatment of sleep disorders in children with cerebral palsy. *Neurol Res* 2017;39(3):239-47.
- Lucena-Anton D, Rosety-Rodriguez I, Moral-Munoz JA. Effects of a hippotherapy intervention on muscle spasticity in children with cerebral palsy: A randomized controlled trial. *Complement Ther Clin Pract* 2018;31:188-92.

- Macdonald AG et Fraser PJ. The transduction of very small hydrostatic pressures. *Comp Biochem Physiol A Mol Integr Physiol* 1999;122(1):13-36.
- Mahoney FI et Barthel DW. Functional evaluation: The Barthel Index. A simple index of independence useful in scoring improvement in the rehabilitation of the chronically ill. *Md State Med J* 1965;14:61-5.
- Marois P, Marois M, Pouliot-Laforte A, Vanasse M, Lambert J, Ballaz L. Gross motor function measure evolution ratio: Use as a control for natural progression in cerebral palsy. *Arch Phys Med Rehabil* 2016;97(5):807-14.e2.
- Marroun I, Quevauvilliers J, Sené T. Dictionnaire médical de poche. 3^e éd. Issy-les-Moulineaux, France : Elsevier Masson; 2018.
- Mathieu D. Effet de l'oxygénothérapie hyperbare sur le transport de l'oxygène et l'oxygénation tissulaire. Dans : Wattel F et Mathieu D, réd. *Traité de médecine hyperbare*. Paris, France : Ellipses; 2002 : 50-62.
- Mathieu D, Marroni A, Kot J. Tenth European Consensus Conference on Hyperbaric Medicine: Recommendations for accepted and non-accepted clinical indications and practice of hyperbaric oxygen treatment. *Diving Hyperb Med* 2017;47(1):24-32.
- McCabe MA et Granger CV. Content validity of a pediatric functional independence measure. *Appl Nurs Res* 1990;3(3):120-2.
- McCarthy ML, Silberstein CE, Atkins EA, Harryman SE, Sponseller PD, Hadley-Miller NA. Comparing reliability and validity of pediatric instruments for measuring health and well-being of children with spastic cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 2002;44(7):468-76.
- McDonagh MS. Hyperbaric oxygen therapy in cerebral palsy. Dans : Panteliadis CP, réd. *Cerebral palsy: A multidisciplinary approach*. Third edition. Cham, Suisse : Springer; 2018 : 283-93. Disponible à : https://link.springer.com/chapter/10.1007%2F978-3-319-67858-0_27.
- McDonagh MS, Morgan D, Carson S, Russman BS. Systematic review of hyperbaric oxygen therapy for cerebral palsy: The state of the evidence. *Dev Med Child Neurol* 2007;49(12):942-7.
- McDonagh M, Carson S, Ash J, Russman BS, Stavri PZ, Krages KP, Helfand M. Hyperbaric oxygen therapy for brain injury, cerebral palsy, and stroke. *Evid Rep Technol Assess (Summ)* 2003;(85):1-6.
- McIntyre S, Taitz D, Keogh J, Goldsmith S, Badawi N, Blair E. A systematic review of risk factors for cerebral palsy in children born at term in developed countries. *Dev Med Child Neurol* 2013;55(6):499-508.
- Mekjavic IB, Exner JA, Tesch PA, Eiken O. Hyperbaric oxygen therapy does not affect recovery from delayed onset muscle soreness. *Med Sci Sports Exerc* 2000;32(3):558-63.
- Michael-Asalu A, Taylor G, Campbell H, Lelea LL, Kirby RS. Cerebral palsy: Diagnosis, epidemiology, genetics, and clinical update. *Adv Pediatr* 2019;66:189-208.

- Ministère de la Santé et des Services sociaux (MSSS). Vers une meilleure intégration des soins et des services pour les personnes ayant une déficience – Cadre de référence pour l'organisation des services en déficience physique, déficience intellectuelle et trouble du spectre de l'autisme. Québec, Qc : MSSS; 2017. Disponible à : <https://publications.msss.gouv.qc.ca/msss/fichiers/2017/17-824-04W.pdf>.
- Ministère de la Santé et des Services sociaux (MSSS). Plan d'accès aux services pour les personnes ayant une déficience – Afin de mieux faire ensemble. Québec, Qc : MSSS; 2008. Disponible à : <https://publications.msss.gouv.qc.ca/msss/fichiers/2008/08-848-01.pdf>.
- Ministère de la Santé et des Services sociaux (MSSS). Cadre de référence pour les services surspécialisés de réadaptation en déficience physique. Québec, Qc : MSSS; 2007. Disponible à : <https://publications.msss.gouv.qc.ca/msss/fichiers/2006/06-824-03.pdf>.
- Mitchell SJ et Bennett MH. Unestablished indications for hyperbaric oxygen therapy. *Diving Hyperb Med* 2014;44(4):228-34.
- Montgomery D, Goldberg J, Amar M, Lacroix V, Lecomte J, Lambert J, et al. Effects of hyperbaric oxygen therapy on children with spastic diplegic cerebral palsy: A pilot project. *Undersea Hyperb Med* 1999;26(4):235-42.
- Msall ME, Ottenbacher K, Duffy L, Lyon N, Heyer N, Phillips L, et al. Reliability and validity of the WeeFIM in children with neurodevelopmental disabilities. † 2251. *Pediatr Res* 1996;39(4 Suppl):378 [abstract].
- Mukherjee A, Raison M, Sahni T, Arya A, Lambert J, Marois P, et al. Intensive rehabilitation combined with HBO2 therapy in children with cerebral palsy: A controlled longitudinal study. *Undersea Hyperb Med* 2014;41(2):77-85.
- Muller-Bolla M, Collet JP, Ducruet T, Robinson A. Side effects of hyperbaric oxygen therapy in children with cerebral palsy. *Undersea Hyperb Med* 2006;33(4):237-44.
- National Institute for Health Care Excellence (NICE). Cerebral palsy in under 25s : Assessment and management. NICE guideline [NG62]. Londres, Angleterre : NICE; 2017. Disponible à : <https://www.nice.org.uk/guidance/ng62>.
- National Institutes of Health (NIH). Consensus conference. Rehabilitation of persons with traumatic brain injury. NIH Consensus Development Panel on Rehabilitation of Persons With Traumatic Brain Injury. *JAMA* 1999;282(10):974-83.
- Nelson KB et Ellenberg JH. Antecedents of cerebral palsy. Multivariate analysis of risk. *N Engl J Med* 1986;315(2):81-6.
- Neubauer RA, Gottlieb SF, Kagan RL. Enhancing "idling" neurons. *Lancet* 1990;335(8688):542.
- Niezgoda JA, Cianci P, Folden BW, Ortega RL, Slade JB, Storrow AB. The effect of hyperbaric oxygen therapy on a burn wound model in human volunteers. *Plast Reconstr Surg* 1997;99(6):1620-5.
- Nilsson Remahl AI, Ansjö R, Lind F, Waldenlind E. Hyperbaric oxygen treatment of active cluster headache: A double-blind placebo-controlled cross-over study. *Cephalalgia* 2002;22(9):730-9.

- Nordmark E, Orban K, Hägglund G, Jarnlo GB. The American Paediatric Evaluation of Disability Inventory (PEDI). Applicability of PEDI in Sweden for children aged 2.0-6.9 years. *Scand J Rehabil Med* 1999;31(2):95-100.
- Nordmark E, Hägglund G, Jarnlo GB. Reliability of the gross motor function measure in cerebral palsy. *Scand J Rehabil Med* 1997;29(1):25-8.
- Novak I, Hines M, Goldsmith S, Barclay R. Clinical prognostic messages from a systematic review on cerebral palsy. *Pediatrics* 2012;130(5):e1285-312.
- NSW Ministry of Health. The management of cerebral palsy in children: A guide for allied health professionals. Sydney, Australie : NSW Ministry of Health; 2018. Disponible à : https://www1.health.nsw.gov.au/pds/Pages/doc.aspx?dn=GL2018_006.
- O'Shea TM. Diagnosis, treatment, and prevention of cerebral palsy. *Clin Obstet Gynecol* 2008;51(4):816-28.
- Oskoui M, Gazzellone MJ, Thiruvahindrapuram B, Zarrei M, Andersen J, Wei J, et al. Clinically relevant copy number variations detected in cerebral palsy. *Nat Commun* 2015;6:7949.
- Oskoui M, Coutinho F, Dykeman J, Jette N, Pringsheim T. An update on the prevalence of cerebral palsy: A systematic review and meta-analysis. *Dev Med Child Neurol* 2013a;55(6):509-19.
- Oskoui M, Joseph L, Dagenais L, Shevell M. Prevalence of cerebral palsy in Quebec: Alternative approaches. *Neuroepidemiology* 2013b;40(4):264-8.
- Paillé P et Mucchielli A. L'analyse qualitative en sciences humaines et sociales. 4^e éd. Paris, France : Armand Colin; 2016.
- Palisano RJ, Rosenbaum P, Bartlett D, Livingston MH. Content validity of the expanded and revised Gross Motor Function Classification System. *Dev Med Child Neurol* 2008;50(10):744-50.
- Palisano R, Rosenbaum P, Walter S, Russell D, Wood E, Galuppi B. Development and reliability of a system to classify gross motor function in children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 1997;39(4):214-23.
- Peng ZR, Yang AL, Yang QD. The effect of hyperbaric oxygen on intracerebral angiogenesis in rats with intracerebral hemorrhage. *J Neurol Sci* 2014;342(1-2):114-23.
- Platt MJ, Cans C, Johnson A, Surman G, Topp M, Torrioli MG, Krageloh-Mann I. Trends in cerebral palsy among infants of very low birthweight (<1500 g) or born prematurely (<32 weeks) in 16 European centres: A database study. *Lancet* 2007;369(9555):43-50.
- Pritchard J, Anand P, Broome J, Davis C, Gothard L, Hall E, et al. Double-blind randomized phase II study of hyperbaric oxygen in patients with radiation-induced brachial plexopathy. *Radiother Oncol* 2001;58(3):279-86.
- Pruitt DW et Tsai T. Common medical comorbidities associated with cerebral palsy. *Phys Med Rehabil Clin N Am* 2009;20(3):453-67.
- Racic G, Denoble PJ, Sprem N, Bojic L, Bota B. Hyperbaric oxygen as a therapy of Bell's palsy. *Undersea Hyperb Med* 1997;24(1):35-8.
- Reddihough D. Cerebral palsy in childhood. *Aust Fam Physician* 2011;40(4):192-6.

- Reich B, Hoeber D, Bendix I, Felderhoff-Mueser U. Hyperoxia and the immature brain. *Dev Neurosci* 2016;38(5):311-30.
- Revenu Québec. Les frais médicaux. IN-130 (2006-10). Québec, Qc : Revenu Québec; 2006. Disponible à : <http://collections.banq.qc.ca/ark:/52327/bs1767564>.
- Rigal R. Motricité humaine : fondements et applications pédagogiques. Tome 2 - Développement moteur. 3^e éd. Sainte-Foy, Qc : Presses de l'Université du Québec; 2003.
- Rosario ER, Kaplan SE, Khonsari S, Vazquez G, Solanki N, Lane M, et al. The effect of hyperbaric oxygen therapy on functional impairments caused by ischemic stroke. *Neurol Res Int* 2018;2018:3172679.
- Rosenbaum P, Paneth N, Leviton A, Goldstein M, Bax M, Damiano D, et al. A report: The definition and classification of cerebral palsy April 2006. *Dev Med Child Neurol Suppl* 2007;109:8-14.
- Rosenbaum PL, Walter SD, Hanna SE, Palisano RJ, Russell DJ, Raina P, et al. Prognosis for gross motor function in cerebral palsy: Creation of motor development curves. *JAMA* 2002;288(11):1357-63.
- Rossignol DA, Rossignol LW, Smith S, Schneider C, Logerquist S, Usman A, et al. Hyperbaric treatment for children with autism: A multicenter, randomized, double-blind, controlled trial. *BMC Pediatr* 2009;9:21.
- Russell DJ, Leung KM, Rosenbaum PL. Accessibility and perceived clinical utility of the GMFM-66: Evaluating therapists' judgements of a computer-based scoring program. *Phys Occup Ther Pediatr* 2003;23(2):45-58.
- Russell DJ, Rosenbaum PL, Cadman DT, Gowland C, Hardy S, Jarvis S. The gross motor function measure: A means to evaluate the effects of physical therapy. *Dev Med Child Neurol* 1989;31(3):341-52.
- Russell DJ, Rosenbaum PL, Wright M, Avery LM. Gross motor function measure (GMFM-66 & GMFM-88) user's manual. 2nd Edition. Londres, Angleterre : Mac Keith Press; 2013.
- Santé Canada. Oxygénothérapie hyperbare [site Web]. Ottawa, ON : Santé Canada; 2019a. Disponible à : <https://www.canada.ca/fr/sante-canada/services/vie-saine/votre-sante-vous/aspect-medical/oxygenotherapie-hyperbare.html> (consulté le 15 novembre 2019).
- Santé Canada. Les enceintes hyperbares à parois souples non homologuées peuvent présenter de graves risques pour la santé [site Web]. Ottawa, ON : Santé Canada; 2019b. Disponible à : <https://www.canadiensensante.gc.ca/recall-alert-rappel-avis/hc-sc/2019/71413a-fra.php> (consulté le 15 novembre 2019).
- Sellers D, Mandy A, Pennington L, Hankins M, Morris C. Development and reliability of a system to classify the eating and drinking ability of people with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 2014;56(3):245-51.
- Sellier E, Platt MJ, Andersen GL, Krägeloh-Mann I, De La Cruz J, Cans C. Decreasing prevalence in cerebral palsy: A multi-site European population-based study, 1980 to 2003. *Dev Med Child Neurol* 2016;58(1):85-92.

- Sethi A et Mukherjee A. To see the efficacy of hyperbaric oxygen therapy in gross motor abilities of cerebral palsy children of 2–5 years, given initially as an adjunct to occupational therapy. *Indian J Occup Ther* 2003;35(1):7-11.
- Shamsoddini A, Amirsalari S, Hollisaz MT, Rahimnia A, Khatibi-Aghda A. Management of spasticity in children with cerebral palsy. *Iran J Pediatr* 2014;24(4):345-51.
- Sharan D. Recent advances in management of cerebral palsy. *Indian J Pediatr* 2005;72(11):969-73.
- Shepherd E, Salam RA, Middleton P, Han S, Makrides M, McIntyre S, et al. Neonatal interventions for preventing cerebral palsy: An overview of Cochrane Systematic Reviews. *Cochrane Database Syst Rev* 2018;6:CD012409.
- Shepherd E, Salam RA, Middleton P, Makrides M, McIntyre S, Badawi N, Crowther CA. Antenatal and intrapartum interventions for preventing cerebral palsy: An overview of Cochrane Systematic Reviews. *Cochrane Database Syst Rev* 2017;8:CD012077.
- Strobl W, Theologis T, Brunner R, Kocer S, Viehweger E, Pascual-Pascual I, Placzek R. Best clinical practice in botulinum toxin treatment for children with cerebral palsy. *Toxins (Basel)* 2015;7(5):1629-48.
- Stroup DF, Berlin JA, Morton SC, Olkin I, Williamson GD, Rennie D, et al. Meta-analysis of observational studies in epidemiology: A proposal for reporting. Meta-analysis Of Observational Studies in Epidemiology (MOOSE) group. *JAMA* 2000;283(15):2008-12.
- Sutherland ER. Sham procedure versus usual care as the control in clinical trials of devices: Which is better? *Proc Am Thorac Soc* 2007;4(7):574-6.
- Tal S, Hadanny A, Sasson E, Suzin G, Efrati S. Hyperbaric oxygen therapy can induce angiogenesis and regeneration of nerve fibers in traumatic brain injury patients. *Front Hum Neurosci* 2017;11:508.
- Thom SR. Hyperbaric oxygen: Its mechanisms and efficacy. *Plast Reconstr Surg* 2011;127(Suppl 1):131S-141S.
- Thom SR. Oxidative stress is fundamental to hyperbaric oxygen therapy. *J Appl Physiol* (1985) 2009;106(3):988-95.
- Thored P, Arvidsson A, Cacci E, Ahlenius H, Kallur T, Darsalia V, et al. Persistent production of neurons from adult brain stem cells during recovery after stroke. *Stem Cells* 2006;24(3):739-47.
- Trabacca A, Vespino T, Di Liddo A, Russo L. Multidisciplinary rehabilitation for patients with cerebral palsy: Improving long-term care. *J Multidiscip Healthc* 2016;9:455-62.
- Undersea and Hyperbaric Medical Society (UHMS). Hyperbaric oxygen therapy indications, 13th edition: The Hyperbaric Oxygen Therapy Committee report. North Palm Beach, FL : Best Publishing Co.; 2014.
- Uszler JM. Neurophysiologic SPECT brain function imaging and hyperbaric oxygen therapy. Dans : Jain KK, réd. *Textbook of Hyperbaric Medicine*. Cham, Suisse : Springer; 2017 : 91-7.

- Van Naarden Braun K, Doernberg N, Schieve L, Christensen D, Goodman A, Yeargin-Allsopp M. Birth prevalence of cerebral palsy: A population-based study. *Pediatrics* 2016;137(1):e20152872.
- Waalkes P, Fitzpatrick DT, Stankus S, Topolski R. Adjunctive HBO treatment of children with cerebral anoxic injury. *Army Med Dept J* 2002;13-21.
- Wang Y, Deng Y, Zhou GQ. SDF-1alpha/CXCR4-mediated migration of systemically transplanted bone marrow stromal cells towards ischemic brain lesion in a rat model. *Brain Res* 2008;1195:104-12.
- Washington State Health Care Authority. Hyperbaric oxygen therapy (HBOT) for tissue damage, including wound care and treatment of central nervous system (CNS) conditions. Final evidence report. Health Technology Assessment Program. Olympia, WA : Washington State Health Care Authority; 2013. Disponible à : [https://www.hca.wa.gov/assets/program/021513_hbot_final_report\[1\].pdf](https://www.hca.wa.gov/assets/program/021513_hbot_final_report[1].pdf).
- Wolf G, Cifu D, Baugh L, Carne W, Profenna L. The effect of hyperbaric oxygen on symptoms after mild traumatic brain injury. *J Neurotrauma* 2012;29(17):2606-12.
- Wood E et Rosenbaum P. The gross motor function classification system for cerebral palsy: A study of reliability and stability over time. *Dev Med Child Neurol* 2000;42(5):292-6.
- Wood J, Stell R, Unsworth I, Lance JW, Skuse N. A double-blind trial of hyperbaric oxygen in the treatment of multiple sclerosis. *Med J Aust* 1985;143(6):238-40.
- World Health Organization (WHO). ICD-10: International statistical classification of diseases and related health problems. Tenth revision, 2nd edition. Volume 1. Genève, Suisse : WHO; 2004.
- Yan L, Liang T, Cheng O. Hyperbaric oxygen therapy in China. *Med Gas Res* 2015;5:3.



Siège social

2535, boulevard Laurier, 5^e étage
Québec (Québec) G1V 4M3
418 643-1339

Bureau de Montréal

2021, avenue Union, 12^e étage, bureau 1200
Montréal (Québec) H3A 2S9
514 873-2563
inesss.qc.ca