

Université de Montréal

**Perspectives parentales concernant la santé et le développement des enfants prématurés :
contrastes entre la vision parentale et l'évaluation des professionnels de la santé**

Par

Magdalena Jaworski

Faculté de médecine

Mémoire présenté en vue de l'obtention du grade de maîtrise
en sciences biomédicales, option éthique clinique pédiatrique

Septembre 2019

© Magdalena Jaworski, 2019

Université de Montréal

Bureau de l'éthique clinique, Faculté de médecine

Ce mémoire intitulé

**Perspectives parentales concernant la santé et le développement des enfants prématurés :
contrastes entre la vision parentale et l'évaluation des professionnels de la santé**

Présenté par

Magdalena Jaworski

A été évalué par un jury composé des personnes suivantes

Guillaume Emeriaud

Président-rapporteur

Annie Janvier

Directeur de recherche

Andreea Gorgos

Membre du jury

Résumé

Objectif : Le suivi néonatal introduit une classification des enfants selon leur niveau de handicap : aucun, léger-moderé ou sévère. Les critères de classification, déterminés par des médecins et chercheurs, ne tiennent pas compte des opinions parentales. Lors de ce projet de maîtrise, les perspectives parentales concernant leur enfant prématuré à 18 mois d'âge corrigé ont été explorées.

Hypothèse : L'hypothèse formulée était que les perspectives parentales différaient des normes établies par les professionnels de la santé.

Méthode : 190 enfants prématurés <29 semaines ont eu une évaluation standardisée, permettant la classification selon leur niveau de handicap. Les parents ont répondu aux questions : « Quelles sont vos inquiétudes concernant votre enfant? » et « Nommez les meilleures choses à propos de votre enfant. » Leurs réponses ont été analysées en ayant recours à une méthodologie qualitative et corrélées au niveau de handicap présenté par leur enfant.

Résultats : Dans cette cohorte, 49% des enfants n'avaient aucun problème de développement, 43% avaient une atteinte légère à modérée et 8% une atteinte sévère. Les principaux thèmes positifs invoqués par les parents incluaient la personnalité (61%), le bonheur (40%), le développement et les progrès (40%), ainsi que la santé physique (11%). Les inquiétudes parentales principales comprenaient le développement (56%) et la santé physique (24%). Il n'y avait pas d'association entre les thèmes positifs et le niveau de handicap. Les parents d'enfants ayant une atteinte légère-moderée étaient davantage inquiets du développement de leur enfant.

Conclusion : Les perspectives parentales concernant leurs enfants prématurés sont équilibrées, et en majorité positives. L'inclusion des perspectives parentales dans la recherche concernant le devenir des enfants prématurés est importante. Ce projet a permis la création d'un questionnaire quantitatif présenté à un plus grand groupe de parents, subventionné par les IRSC.

Mots-clés : Prématurité extrême, neurodéveloppement, santé physique, devenir des enfants prématurés, séquelles, handicaps, incapacités, perceptions parentales, perspectives parentales, perspectives familiales.

Abstract

Objective: Measuring outcomes of premature birth is essential for quality control, research, patient care and information. At 18 months corrected age, children are classified into categories of severe, mild-moderate or no neurodevelopmental impairment (NDI). Outcomes of interest have been chosen by physicians and researchers, never including parental perspectives. The aim of this thesis was to explore parental perspectives regarding their preterm child.

Hypothesis: The hypothesis was that parents' perspectives and concerns would differ from those assessed by professionals.

Method: This survey included 190 infants born <29 weeks of gestational age in one tertiary university health center. Infants underwent detailed developmental assessment and were classified according to NDI. Parents were asked two open-ended questions: "What concerns you most about your child?" and "Please describe the best things about your child". Open-ended questions were analyzed using qualitative methodology, then correlated with level of NDI.

Results: In this cohort, 49%, 43% and 8% had no, mild to moderate, and severe NDI. The main positive themes invoked by parents included their child's personality (61%), happiness (40%), developmental outcome/progress (40%) and physical health (11%). Main themes regarding parental concerns included: neurodevelopment (56%) and physical health (24%). There was no association between positive themes and categories of NDI, but parents of children with mild-moderate NDI reported more concerns about development.

Conclusions: Parents of preterm infants have a balanced perspective of their children, mostly positive. Neonatal outcome research would benefit from incorporating parental perspectives regarding their child, balancing prognostic information about preterm birth. This thesis project has led to the creation of a qualitative questionnaire which is now deployed through a CIHR Child-Bright initiative considering parent-important outcomes.

Keywords : very preterm infants, outcomes, development, neurodevelopmental impairment, parental perceptions, parental perspectives, parent-important outcomes

Table des matières

| | |
|---|-----------|
| Résumé | 3 |
| Abstract | 4 |
| Table des matières | 5 |
| Liste des tableaux | 7 |
| Liste des figures | 8 |
| Liste des sigles | 9 |
| Avant-propos | 10 |
| Chapitre 1 : Introduction | 12 |
| 1.1 <i>Prématurité</i> | 13 |
| 1.2 <i>Suivi néonatal</i> | 14 |
| 1.2.1 Visite à 18 mois | 15 |
| 1.2.2 Classification des séquelles neurodéveloppementales..... | 16 |
| 1.2.3 Questionnaires parentaux à la clinique de suivi néonatal | 18 |
| 1.3 <i>Éthique et partenariat</i> | 19 |
| Chapitre 2 : Buts et hypothèses | 22 |
| Chapitre 3 : Méthodologie | 23 |
| 3.1 <i>Comité d'éthique</i> | 23 |
| 3.2 <i>Type d'étude</i> | 23 |
| 3.3 <i>Participants</i> | 23 |
| 3.4 <i>Procédure</i> | 24 |
| 3.5 <i>Analyse des données</i> | 25 |
| Chapitre 4 : Résultats sous forme d'article scientifique | 26 |
| 4.1 <i>Abstract</i> | 27 |
| 4.2 <i>Introduction</i> | 28 |
| 4.3 <i>Methods</i> | 29 |
| 4.4 <i>Results</i> | 31 |
| 4.5 <i>Discussion</i> | 39 |
| 4.6 <i>Conclusion</i> | 42 |
| 4.7 <i>Références de l'article</i> | 43 |

| | |
|---|-----------|
| Chapitre 5 : Discussion | 46 |
| 5.1 <i>Forces, limites et validité externe de l'étude</i> | 46 |
| 5.2 <i>Vers un partenariat en suivi néonatal</i> | 48 |
| 5.3 <i>Avenues de recherche futures</i> | 50 |
| Chapitre 6 : Conclusion | 53 |
| Références bibliographiques | 55 |

Liste des tableaux

| | |
|--|----|
| Tableau 1. Classification des séquelles neurodéveloppementales..... | 16 |
| Table 1. Neonatal and sociodemographic characteristics of study participants in comparison to non-participants eligible to neonatal follow-up | 32 |
| Table 2. Comparison of maternal education and neurodevelopmental outcomes between participants and patients with no completed questionnaires..... | 33 |
| Table 3. Themes and sub-themes of parental responses by NDI category | 38 |

Liste des figures

| | | |
|-------------------|--------------------------------------|----|
| Figure 1. | Sélection des participants..... | 24 |
| Figure I. | Study flow diagram (in article)..... | 31 |
| Figure II. | A and B Venn diagram | 37 |

Liste des sigles

CHU : Centre hospitalier universitaire

CIHR: Canadian Institutes of Health Research

CNFUN : Canadian Neonatal Follow-Up Network

CNN : Canadian Neonatal Network

EPIQ : Evidence-based Practice for Improving Quality

GMFCS : Gross Motor Function Classification System

IRSC : Instituts de recherche en santé du Canada

NDI : Neurodevelopmental impairment

NICHD : National Institute of Child Health and Human Development

NICU : Neonatal Intensive Care Unit

PCORI : Patient-Centered Outcomes Research Institute

PVL : Periventricular leukomalacia

IVH : Intraventricular hemorrhage

Avant-propos

Ce mémoire présente la démarche scientifique qui a mené à la complétion d'un projet d'exploration des perspectives parentales au sujet de leur enfant prématuré à 18 mois d'âge corrigé. Comme clinicienne-pédiatre, spécialisée en développement de l'enfant, je me retrouve souvent confrontée à des contrastes entre le vécu familial et les diagnostics médicaux que je suis appelée à poser. Ces diagnostics médicaux, qui se limitent à une description des problèmes éprouvés par les enfants à risque, tiennent peu ou pas compte des joies quotidiennes et des inquiétudes réelles des familles. En recherche en suivi néonatal, les descriptions du pronostic des enfants sont basées uniquement sur les probabilités de décès ou de handicap à long terme. Or, lors des rencontres avec les parents d'enfants prématurés, la réalité diffère énormément des statistiques. Les parents rapportent que leur enfant est souriant et heureux. De plus, le fonctionnement quotidien de l'enfant semble être plus important que leur niveau de handicap. Par exemple, le fait d'avoir un tout-petit qui fait d'importantes crises a beaucoup plus d'impact qu'un score à un test standardisé du développement. À l'âge scolaire, les difficultés d'apprentissage peuvent être bien plus marquantes qu'un diagnostic de paralysie cérébrale légère. En somme, lors du suivi néonatal, les enfants sont classés selon leur diagnostic, pas selon leur fonctionnement quotidien. Toutefois, cette classification représente-t-elle la réalité vécue par les familles? Ce mémoire constitue un début de réponse à cette question.

Également, il est à noter que lors de la rédaction de ce mémoire, une réflexion particulière a été portée à la traduction de la terminologie entourant les expressions « disability » et « impairment ». En anglais, les mots « handicap » et « sequelae » sont vus comme dévalorisants et le terme « disability » est privilégié, quoiqu'il puisse aussi avoir un sens négatif. Dans le contexte de rédaction de ce mémoire en français, les mots « handicap » et « séquelles » ont été choisis par souci de clarté, sans intention de connotation péjorative.

Remerciements

Je tiens à remercier ma directrice de recherche, Dr Annie Janvier, pour son soutien, de sa générosité et ses précieuses suggestions qui m'ont permis de réaliser ce travail de maîtrise et m'initier à la recherche en éthique clinique.

Je remercie Dr Thuy Mai Luu pour son soutien dans mes démarches scientifiques et de recherche tout au long de mon parcours à la résidence en pédiatrie et à la maîtrise.

Également, merci à toutes les familles en suivi néonatal; votre participation à la recherche est indispensable. J'espère que ce projet de maîtrise permettra de faire un pas de plus afin que les chercheurs aient un portrait plus réaliste et complet de votre vécu.

Chapitre 1 : Introduction

Le suivi néonatal mesure le devenir à long terme des prématurés. Il a pour buts principaux l'amélioration des soins, le contrôle de la qualité des soins, la recherche et la transmission d'information aux parents d'enfants prématurés concernant le pronostic de leur enfant (Fanaroff, Hack et Walsh, 2003; Sauve et Lee, 2006; Synnes et al., 2017). Il génère une panoplie de données qui informent la pratique en néonatalogie, allant même influencer les décisions aux limites de la viabilité (Griswold et Fanaroff, 2010; Lemyre et al., 2016). L'information disponible à donner aux familles avant et après la naissance prématurée contient surtout des statistiques de probabilité d'un diagnostic médical (par exemple, un retard de développement, une paralysie cérébrale ou une surdité) (Lemyre et al., 2016). Ce discours n'est malheureusement pas porteur d'espoir. De plus, il engendre une fausse croyance que tous les prématurés extrêmes sont très malades, ce qui n'est pas le cas, car plusieurs n'ont pas de séquelles (Synnes et al., 2017). Donc, pourquoi mesure-t-on seulement les impacts négatifs de la prématurité? La recherche en suivi néonatal évalue des éléments pronostiques qui intéressent les chercheurs, mais quels éléments intéressent les familles? Quels éléments pourraient aider les familles et leurs médecins à prendre des décisions mieux éclairées en néonatalogie?

Suivant cette réflexion, le but de mon projet de maîtrise a été de déterminer les perceptions positives, ainsi que les inquiétudes des parents d'enfants prématurés concernant leur enfant lors du suivi néonatal à 18 mois d'âge corrigé – l'âge auquel les premières données neurodéveloppementales concernant le devenir des prématurés sont colligées en suivi néonatal. Ce mémoire présente donc les résultats obtenus lors d'une première exploration des perspectives parentales positives et de leurs inquiétudes, dans le cadre du suivi néonatal à 18 mois d'âge corrigé des enfants extrêmement prématurés au Centre Hospitalier Universitaire (CHU) Sainte-Justine. Dans les prochains paragraphes d'introduction, je présenterai des connaissances de base sur la prématurité et le suivi néonatal, suivies d'une réflexion concernant les enjeux éthiques du partenariat parents/famille/patients-cliniciens. Ensuite, les hypothèses et la méthodologie du projet seront explorés. Les résultats de mon projet de maîtrise, sous forme d'article scientifique, suivront. Finalement, une discussion explorera ces résultats et les avenues de recherche futures.

1.1 Prématurité

Une grossesse normale dure 40 semaines en moyenne (depuis les dernières menstruations). La prématurité est définie comme toute naissance avant l'âge gestationnel de 37 semaines: près de 8% des naissances au Canada sont prématurées (Shah et al., 2018). En 2017, 14 773 admissions aux unités néonatales canadiennes ont eu lieu, selon le recensement du Canadian Neonatal Network (Shah, Yoon et Chan, 2017). Les grandes associations de recherche en suivi néonatal, comme le réseau du NICHD (National Institute of Child Health and Human Development) aux États-Unis, considèrent que le risque de séquelles est augmenté de manière significative quand un enfant est né avant 29 semaines de gestation. Ces enfants sont inclus dans des programmes de suivi systématiques et leur devenir intéresse particulièrement les chercheurs, car ils peuvent présenter des séquelles physiques et neurodéveloppementales (Fanaroff et al., 2003).

Les nouveau-nés prématurés sont à risque de développer des conditions médicales graves, dont l'hémorragie intraventriculaire, qui est un facteur de risque majeur pour les troubles neurodéveloppementaux futurs (Chevallier et al., 2017). Du point de vue pulmonaire, une bronchodysplasie peut entraîner la nécessité d'une thérapie par oxygène à domicile pendant plusieurs semaines (Lau et al., 2019). De plus, la prématurité semble être un facteur indépendant dans le développement d'un asthme, peu importe la présence de bronchodysplasie pulmonaire (Fierro, Passarella et Lorch, 2019). Du point de vue gastro-intestinal, une entérocolite nécrosante peut mener à une perforation intestinale et une nécessité de pose de stomie (Thakkar et Lakhoo, 2016). L'alimentation entérale prolongée est un facteur de risque pour une aversion orale et une dépendance au tube nasogastrique ou gastrostomie (Pahsini et al., 2018).

Dans la recherche actuelle, l'intérêt est porté aux séquelles à long terme de la prématurité. Celles-ci sont suivies rigoureusement dans des cliniques dédiées au suivi néonatal (Doyle et al., 2014). Le suivi néonatal a permis d'identifier des facteurs potentiels d'amélioration dans les soins prénataux et les soins intensifs néonataux. Par exemple, les chercheurs ont découvert les bienfaits neurologiques de l'administration du sulfate de magnésium lors de l'accouchement prématuré (Shepherd et al., 2018; Wolf, Hegaard, Greisen, Huusom et Hedegaard, 2012). Ils ont déterminé le meilleur moment pour l'administration de stéroïdes à l'enfant, afin de ne pas augmenter le risque de séquelles neurologiques (Malaeb et

Stonestreet, 2014; Ryan, Lacaze-Masmonteil et Mohammad, 2019). Le suivi néonatal est essentiel à l'amélioration de la pratique médicale pour la santé des enfants prématurés.

1.2 Suivi néonatal

Le suivi néonatal comprend des contrôles réguliers avec l'enfant prématuré et la famille après le congé de l'unité néonatale afin de décrire le devenir de ces survivants (Doyle et al., 2014). L'importance de ce suivi est décrite depuis des décennies : dès qu'on a observé la possibilité de survie des enfants prématurés, mais aussi leurs séquelles. L'intérêt pour le suivi néonatal est mentionné dans un recensement de survivants prématurés en 1962 : « The Fate of the Ex-Premature » (Grewar, Medovy et Wylie, 1962). Les résultats de la Ontario Perinatal Mortality Study en 1969 encourageaient un développement de cliniques avec un suivi rigoureux (Buck, Gregg, Stavrakys, Subrahmaniam et Brown, 1969). Bien qu'elle ait évolué considérablement depuis cette époque, la pratique de suivi néonatal est, encore aujourd'hui, réalisée majoritairement dans les pays occidentaux. Le suivi néonatal, constitué de visites médicales à des points névralgiques du développement de l'enfant, permet d'identifier les difficultés rencontrées, de conseiller ou de débiter un traitement. Les visites varient en longueur et sont adaptées à la famille et aux défis des enfants. Certaines données sont obligatoirement récoltées et les évaluations du développement sont réalisées à des âges précis, afin de remplir les critères des groupes de recherche en suivi néonatal. Au Canada, on retrouve le Canadian Neonatal Follow-Up Network (CNFUN), qui est issu du Canadian Neonatal Network (CNN) (Synnes et al., 2017). De façon générale, les cliniques spécialisées en suivi néonatal procèdent en priorité au suivi des enfants nés à moins de 29 semaines de gestation et ceux ayant eu des complications graves. La visite à 18 mois d'âge corrigé est particulièrement importante, car elle est souvent utilisée comme premier descripteur du pronostic développemental (Rogers et Hintz, 2016).

1.2.1 Visite à 18 mois

L'âge de 18 mois est critique pour le développement de tous les enfants, car plusieurs jalons neurodéveloppementaux s'y actualisent. Entre autres, la marche indépendante doit être acquise et le langage devrait comporter 10 à 15 mots (Scharf, Scharf et Stroustrup, 2016). Les associations de pédiatrie aux États-Unis (American Academy of Pediatrics) et au Canada (Société Canadienne de Pédiatrie) émettent des lignes directrices au sujet de la surveillance et du dépistage du développement des enfants (AAP, 2006; Williams et Clinton, 2011). Malgré qu'il y ait des discordances entre leurs recommandations pour la population pédiatrique générale, les cliniciens et chercheurs s'accordent au sujet de l'importance du dépistage et suivi du développement chez les enfants à risque, tels que les prématurés. Reconnaisant l'importance de l'intervention précoce chez les enfants ayant un retard du développement, l'évaluation standardisée est arrimée au suivi néonatal (Novak et al., 2017). La visite à 18 mois d'âge corrigé constitue donc une étape critique, celle de l'évaluation des atteintes précoces du neurodéveloppement (Rogers et Hintz, 2016).

Les données standardisées colligées lors de cette rencontre à 18 mois d'âge corrigé concernent la santé physique et le développement de l'enfant prématuré. Le suivi de routine comprend l'évaluation à l'aide du Bayley III, un test standardisé, validé pour les enfants âgés de 1 à 42 mois, qui décrit le développement moteur, langagier et cognitif. Les scores du Bayley III se situent autour d'une moyenne à 100 avec un écart-type de 15 (Bayley, 2005). Dans la clinique de suivi néonatal du CHU Sainte-Justine, le Bayley III est administré par un psychologue. L'évaluation est complétée par un examen neurologique réalisé par le médecin spécialisé en suivi néonatal. Cet examen a pour but de corroborer les trouvailles afin de conclure à un diagnostic précis, s'il y a lieu. Les informations les plus récentes concernant l'audition et la vision sont colligées à partir du dossier antérieur; les évaluations auditive et visuelle sont réalisées de routine entre 6 et 12 mois d'âge corrigé. Les résultats des évaluations sont utilisés afin d'établir une catégorisation des séquelles de la naissance prématurée.

1.2.2 Classification des séquelles neurodéveloppementales

Les données issues de l'évaluation neurodéveloppementale à 18 mois d'âge corrigé permettent une classification des séquelles présentées par l'enfant selon leur sévérité (Synnes et al., 2017). Cette classification permet, à son tour, de réaliser des études épidémiologiques et de contrôle de qualité : comparer les centres hospitaliers entre eux, étudier les changements et les progrès, ainsi qu'identifier des stratégies d'amélioration.

La classification des séquelles neurodéveloppementales utilisée dans la clinique néonatale du CHU Sainte-Justine est celle du CNFUN (Tableau I). Elle comprend les résultats de l'évaluation avec le Bayley III à l'âge corrigé de 18 mois, l'évaluation auditive et l'évaluation visuelle. L'examen neurologique permet d'évaluer plus précisément les séquelles motrices et d'émettre la possibilité d'un diagnostic de paralysie cérébrale. Les scores au Bayley III sont influencés par la présence de handicaps neurologiques ou sensoriels, qui peuvent affecter la disponibilité de l'enfant à réaliser les épreuves lors de l'évaluation.

Tableau 1. Classification des séquelles neurodéveloppementales

| Séquelles | Handicap neurodéveloppemental sévère (un ou plusieurs des suivants) | Handicap neurodéveloppemental léger à modéré (un des suivants) |
|------------------|---|---|
| Moteur | Paralysie cérébrale GMFCS III, IV ou V | Paralysie cérébrale GMFCS I ou II |
| | Score Bayley III moteur <70 | Score Bayley III moteur <85 |
| Cognitif | Score Bayley III cognitif <70 | Score Bayley III cognitif <85 |
| Langage | Score Bayley III langagier <70 | Score Bayley III langagier <85 |
| Audition | Appareil auditif ou implant cochléaire | Déficience auditive neurosensorielle ou mixte légère |
| Vision | Déficience visuelle bilatérale sévère (ne voit pas un objet de 1cm à 30 cm) | Déficience visuelle unilatérale ou bilatérale légère |

Classification du CNFUN. Adapté et traduit de Synnes et al. 2017.

La paralysie cérébrale est une des séquelles neurologiques significatives associées à la prématurité. Il s'agit d'une condition non-évolutive du système nerveux central, débutant dans un cerveau en développement et affectant le mouvement, le tonus et la posture de l'individu (Rosenbaum, Palisano, Bartlett, Galuppi et Russell, 2008). La paralysie cérébrale peut se décrire

de 3 façons : selon la distribution anatomique, selon le désordre du mouvement associé (spasticité, chorée, dystonie, etc.) et selon le profil moteur fonctionnel (Shevell, Dagenais, Hall et The Repacq, 2009). Pour ce dernier, on utilise le Système de classification de la fonction motrice globale (Global Motor Function Classification System - GMFCS) (Rosenbaum et al., 2008). L'atteinte fonctionnelle liée à la paralysie cérébrale est définie plus précisément dans la classification des séquelles neurodéveloppementales de la prématurité. Le niveau de classification de la fonction motrice est précisé lorsque l'enfant a un diagnostic de paralysie cérébrale connu à l'âge de 18 mois corrigé. Selon le niveau d'atteinte fonctionnelle, la paralysie cérébrale affecte les capacités motrices, l'intelligibilité et les capacités cognitives, ayant un impact respectivement sur les scores de motricité, de langage et cognitif au Bayley III.

Les séquelles auditives de la prématurité comprennent la surdité neurosensorielle, qui peut être d'apparition tardive dans certains cas (Yoon, Price, Gallagher, Fleisher et Messner, 2003). De plus, les comorbidités de la prématurité, incluant l'hyperbilirubinémie et le sepsis requérant des doses d'antibiotiques potentiellement ototoxiques, influencent la survenue d'atteintes auditives à long terme. Le suivi néonatal comprend donc également un suivi régulier de l'audition des enfants prématurés. Un déficit auditif pourra affecter, entre autres, le score langagier de l'évaluation par le Bayley III, surtout s'il n'est pas appareillé. La séquelle visuelle de la prématurité est la rétinopathie qui mène rarement à la cécité. Un suivi régulier est entrepris en ophtalmologie pour cette difficulté et des interventions spécifiques sont réalisées au besoin. Les atteintes visuelles auront un impact sur l'évaluation de la motricité de l'enfant au Bayley III, mais aussi sur l'évaluation des capacités cognitives. De ce fait, certains enfants sont incapables de compléter l'évaluation du Bayley III, et sont classés d'emblée dans la catégorie « handicap sévère ».

La recherche en suivi néonatal a permis de décrire les pronostics des enfants prématurés. Les séquelles de la prématurité sont fréquentes, bien que les taux de survie des extrêmes prématurés soient en amélioration (Vohr, 2014). Au Canada, environ 17% des enfants nés avant 29 semaines de gestation ont des séquelles graves (handicap neurodéveloppemental sévère dans le Tableau 1 ci-haut) et 46% présentent des séquelles légères à modérées (Synnes et al., 2017). Les facteurs de risque pour présenter une séquelle neurodéveloppementale sévère sont des comorbidités fréquentes de la naissance prématurée : le saignement intracrânien sévère, la

bronchodysplasie pulmonaire, l'entérocolite nécrosante et le sepsis. On observe une variabilité entre les centres hospitaliers pour ce qui est des complications qui ont lieu dans les soins intensifs de néonatalogie et des séquelles de la prématurité, suggérant que le contrôle de qualité est de mise et qu'il y a toujours place à l'amélioration dans les soins (Synnes et al., 2017).

Dans le recensement des données canadiennes de Synnes et al, les auteurs se penchent également sur les définitions des séquelles de la prématurité. Ils discutent notamment des discordances entre les définitions de handicap sévère à travers le monde. Les probabilités de handicap sévère, autour de 20% pour les prématurés extrêmes en Suède et en France, pourraient en réalité être variables, car les classifications ne sont pas les mêmes. Ceci rend la comparaison entre les pays d'autant plus difficile (Synnes et al., 2017).

Ce projet de maîtrise a permis un questionnement quant aux définitions de handicap chez les prématurés. En effet, bien que le suivi néonatal soit essentiel pour l'amélioration continue des soins aux patients, il n'y a pas de consensus international quant aux définitions des séquelles neurodéveloppementales. Cela implique qu'il existe différentes façons de voir et de définir le handicap neurodéveloppemental. Également, les séquelles s'affectent les unes les autres – un déficit visuel aura un impact sur le score moteur – péjorant globalement les résultats aux évaluations standardisées. De plus, les séquelles concernant la santé mentale et le comportement sont occultées, malgré qu'elles puissent avoir un impact important sur les familles. Il devient donc d'autant plus important de récolter les visions des parents concernant le devenir de leur enfant prématuré, afin de nuancer davantage ces données statistiques qui servent d'information pour les familles de futurs enfants prématurés.

1.2.3 Questionnaires parentaux à la clinique de suivi néonatal

Les séquelles de la naissance prématurée sont identifiées à travers l'évaluation formelle du développement, ainsi que par les examens physiques réalisés en suivi néonatal. Ces données sont accompagnées de résultats de questionnaires parentaux, davantage subjectifs, qui sont remplis avant ou pendant l'évaluation médicale. Ceux-ci permettent de corroborer les jalons du développement et d'identifier des difficultés à discuter lors des rencontres. Entre autres, au CHU Sainte-Justine, le questionnaire de Rescorla est utilisé pour le suivi du langage des enfants

(Rescorla, 1989) accompagné du questionnaire du comportement « Achenbach Child Behavior Checklist » (Achenbach et Rescorla, 2000). Les parents remplissent les questionnaires pendant que le psychologue procède à l'évaluation. Les résultats au questionnaire de Achenbach ne sont toutefois pas analysés systématiquement et ne figurent pas dans les critères de classification du handicap. Le questionnaire de Achenbach se termine par 2 questions ouvertes, qui ont été analysées dans la présente étude : « Nommez les meilleures choses au sujet de votre enfant » et « Quelles sont vos inquiétudes au sujet de votre enfant? » Bien que ces questionnaires permettent une description plus fine des inquiétudes et des points positifs concernant un enfant prématuré, leur valeur en recherche a été limitée jusqu'à ce jour. En effet, la classification standardisée des séquelles neurodéveloppementales est basée majoritairement sur l'évaluation médicale et professionnelle, et tient peu compte des résultats à ces questionnaires.

En somme, le suivi néonatal comprend une pratique standardisée permettant d'évaluer le devenir des enfants prématurés. Les données concernant le pronostic précoce sont largement issues de l'évaluation à 18 mois d'âge corrigé. Ces évaluations permettent d'éclairer les chercheurs et cliniciens au sujet des effets de leurs thérapies innovantes ou traditionnelles en obstétrique et en néonatalogie, démontrant un bien-fondé pour la communauté médicale. Toutefois, il y a peu de questionnement sur les bienfaits du suivi néonatal pour les familles elles-mêmes. Devant un virage vers un partenariat dans les soins en pédiatrie, notre étude s'intéresse spécifiquement aux perspectives parentales concernant le développement et la santé de leur enfant prématuré.

1.3 Éthique et partenariat

L'éthique clinique introduit la réflexivité comme outil de travail pour l'amélioration de la pratique. La réflexion est encouragée dans les cursus d'enseignement médicaux comme soutien à l'acquisition d'expérience individuelle ou collective (Mann, Gordon et MacLeod, 2009; Ménard et Ratnapalan, 2013). Dans l'approche réflexive, le clinicien, qui se pose quotidiennement des questions au sujet de sa pratique, prend le temps de colliger ses réflexions afin d'améliorer son jugement moral et ses interventions. Dans la pratique clinique en pédiatrie du développement de l'enfant et en suivi néonatal, les situations éthiques particulières abondent.

La sensibilité morale et la réflexivité éthique encouragent le questionnement du statu quo et l'exposition de contrastes. Le clinicien étant exposé à une gamme de situations, il est pertinent de connaître les opinions de tous, ou du moins le plus d'opinions possible. La réflexivité et les approches narratives en éthique s'inscrivent dans un mouvement d'humanisation des soins de la santé. Les patients et leurs familles désirent que leurs voix soient entendues et veulent devenir des partenaires dans leurs soins (Thompson, 2009).

Le partenariat dans la relation de soins en médecine est un but à atteindre (Beach et Sugarman, 2019). En pédiatrie, l'approche est de plus en plus citée, particulièrement en néonatalogie, où il existe un virage vers l'intégration du parent-partenaire dans les soins, la recherche et l'enseignement (Dahan et al., 2019). Être partenaires dans les soins signifie aussi de réfléchir à comment nous rapportons les données concernant le devenir des prématurés : mesurons-nous les bons éléments pronostiques? Quels sont les éléments pronostiques importants pour les familles? Ces données ont un impact majeur sur la prise de décisions de vie ou de mort dans le contexte des soins intensifs néonataux. En effet, en néonatalogie, quand un prématuré présente un haut risque d'avoir des séquelles majeures, il n'est pas rare de donner des soins de confort ou de retirer les soins essentiels à la survie (Haward, Gaucher, Payot, Robson et Janvier, 2017; Kaempf, Tomlinson et Tuohey, 2016). Ces décisions figurent parmi les plus difficiles à prendre en pédiatrie. L'évaluation et la perception du handicap, par le médecin et par le parent, a souvent un impact important lors de ces décisions. Or, nous savons que les médecins peuvent avoir une vision sombre de la vie avec un enfant handicapé (Blacher et Baker, 2007; Green, 2007; Sheets, Best, Brasington et Will, 2011). Cette perception est en lien direct avec les séquelles de la prématurité et comment celles-ci sont rapportées dans la littérature. Réfléchir sur la manière de classer les survivants de la néonatalogie, en tentant compte des éléments importants dans la vie des familles, semble essentiel dans ce contexte.

Les réflexions ayant culminé en la réalisation de ce projet de recherche émanent d'un travail continu d'amélioration de la pratique médicale à travers le partenariat dans la relation de soins. Plusieurs médecins, chercheurs et parents se penchent sur le vécu des familles durant cette période éprouvante qu'est l'admission aux soins intensifs néonataux (Janvier et al., 2016). Dans cet article ayant inspiré mon projet de maîtrise, les auteurs militent pour une intégration des perspectives parentales dans la pratique et la recherche en néonatalogie, en mettant de l'emphase

sur les éléments pronostiques importants pour les parents (parent-important outcomes) (Janvier et al., 2016). Cela rejoint l'initiative du PCORI (Patient-centered Outcomes Research Institute) aux États-Unis où les chercheurs s'intéressent à l'élaboration de critères de suivi de diverses maladies en concordance avec le vécu des patients (Mehran, Baber et Dangas, 2018). Il s'agit d'une nouvelle norme dans le suivi des maladies chroniques.

En réalité, l'équipe soignante est très impliquée dans la vie du bébé prématuré lorsque celui-ci est à l'unité des soins intensifs néonataux. Par la suite, les enfants quittent l'unité néonatale et les parents assurent la gestion de leurs vies quotidiennes avec un enfant fragile et moins de soutien professionnel direct. Les parents et l'enfant sont invités à profiter du suivi néonatal, qui permet d'identifier et prendre en charge les difficultés, ainsi que classer les séquelles présentées par l'enfant. Mais, l'expérience familiale de la naissance prématurée et des premiers mois de vie de l'enfant se résume-t-elle en une classification des handicaps de l'enfant à 18 mois d'âge corrigé? Il est important de considérer que la classification de ces séquelles aura un impact sur des décisions critiques en néonatalogie, ainsi que sur la perception générale du devenir des grands prématurés. Les parents devraient avoir leur mot à dire dans cette évaluation, qui affecte les décisions des futures familles en néonatalogie, la recherche et le contrôle de la qualité des actes médicaux et hospitaliers. Ce projet de maîtrise constitue donc une première exploration des perspectives parentales concernant le devenir de leur enfant prématuré à l'âge corrigé de 18 mois et a pour but d'enrichir les données issues du suivi néonatal à l'aide d'éléments pronostiques qui sont importants aux yeux des parents.

Chapitre 2 : Buts et hypothèses

En suivi néonatal et en pédiatrie du développement, le clinicien est confronté aux perspectives familiales de la santé et du développement de l'enfant prématuré, qui semblent parfois en opposition avec l'évaluation formelle réalisée par les professionnels et spécialistes. Le but de la présente étude était de décrire plus spécifiquement ces contrastes, en analysant les inquiétudes et points positifs que les parents utilisent pour qualifier leur enfant prématuré.

Comme première hypothèse, nous avons prévu retrouver des différences entre les réponses parentales et les impacts étudiés en suivi néonatal. Notamment, nous pensions que les parents allaient retrouver beaucoup plus de points positifs à la santé et au développement de leur enfant prématuré, alors que les cliniciens identifieraient davantage les problèmes. De plus, nous voulions décrire des différences entre les types d'inquiétudes prévalentes chez les parents, et les séquelles recherchées par les professionnels à travers les programmes de recherche standardisés.

Nous avons ensuite formulé l'hypothèse que les inquiétudes parentales allaient être plus prévalentes chez les parents ayant un enfant avec une atteinte plus grave au niveau de sa santé et de son développement : plus l'enfant est malade, plus les parents seraient inquiets. Afin d'atteindre ces buts, nous avons tout d'abord utilisé la méthodologie de recherche qualitative pour l'élaboration de thèmes. Ensuite, les contrastes entre les réponses parentales et l'évaluation des professionnels ont été évaluées à l'aide d'une méthodologie quantitative.

Chapitre 3 : Méthodologie

3.1 Comité d'éthique

L'étude a été approuvée par le Comité d'éthique de la recherche du CHU Sainte-Justine (numéro d'évaluation 2016-1243).

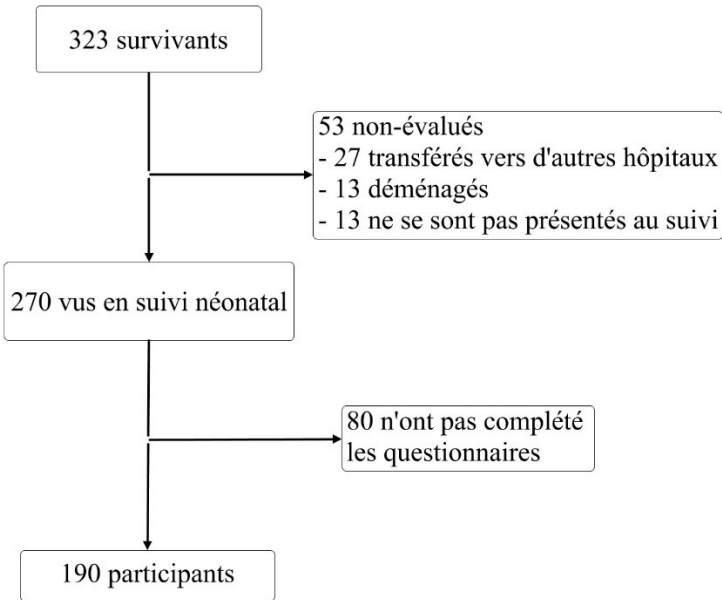
3.2 Type d'étude

Il s'agit d'une analyse de cohorte transversale à méthodologie qualitative et quantitative. La cohorte est constituée d'enfants prématurés de moins de 29 semaines de gestation, nés entre 2009 et 2012 au CHU Sainte-Justine et suivis jusqu'à au moins 18 mois d'âge corrigé à la clinique de suivi néonatal du CHU Sainte-Justine. L'étude a été réalisée par analyse rétrospective des dossiers médicaux.

3.3 Participants

Tous les enfants survivants, prématurés de moins de 29 semaines, nés entre avril 2009 et décembre 2012 et suivis à la clinique néonatale par Dr Lefebvre du CHU Sainte-Justine, étaient éligibles à faire partie de l'étude. Pendant cette période, les enfants ont bénéficié d'un suivi superposable, permettant l'éligibilité d'un grand nombre de participants. Lors des visites de suivi néonatal, tous les parents ont signé un formulaire de consentement à l'intégration des données concernant leur enfant dans la base de données en suivi néonatal (CNFUN), ainsi qu'à l'utilisation confidentielle des données à des fins de recherche. Les participants retenus dans l'étude étaient ceux pour lesquels les évaluations neurodéveloppementales et les questionnaires parentaux étaient complétés (Figure 1).

Figure 1. Sélection des participants



3.4 Procédure

Le suivi néonatal habituel comprend une évaluation neurodéveloppementale à l'aide de l'échelle de Bayley-III à l'âge corrigé de 18 mois. Cette échelle standardisée est administrée par un psychologue et fournit des scores de performance dans les domaines cognitif, langagier et moteur. De plus, l'évaluation à 18 mois d'âge corrigé comprend la révision de résultats d'examen ophtalmologique, audiolgique et neurologique. Concomitamment, l'évaluation à 18 mois d'âge corrigé comprend des questionnaires aux parents, dont le Achenbach Child Behavior Checklist et le Rescorla Language Development Survey (Achenbach et Rescorla, 2000). Ce questionnaire aux parents comprend deux questions ouvertes : « Nommez les meilleures choses au sujet de votre enfant » et « Quelles sont vos inquiétudes au sujet de votre enfant? » Les questionnaires étaient administrés avant que les résultats de l'évaluation neurodéveloppementale soient connus des parents.

Dans le cadre de cette étude, nous avons réalisé une révision des dossiers de tous les participants éligibles. Nous avons choisi d'inclure tous les patients suivis par la clinique, afin

d'avoir l'échantillon le plus large possible. Nous avons isolé les données démographiques familiales, les données spécifiques à la naissance et au parcours des enfants dans le service de néonatalogie, les réponses aux questions ouvertes parentales, ainsi que les résultats de l'évaluation neurodéveloppementale.

3.5 Analyse des données

Les parents ont répondu aux questionnaires en format papier. Les données récoltées et transcrites dans Microsoft Excel ont été préservées de manière confidentielle par Dr Thuy Mai Luu. Des codes ont été attribués aux répondants avant l'analyse des données et l'accès à la légende est gardé sous clé. Toutes les données seront détruites 5 ans après la publication du manuscrit.

Les résultats globaux à la suite de la visite à 18 mois d'âge corrigé permettent la classification des atteintes subies par l'enfant prématuré (ou l'absence de séquelles). Cette classification est décrite plus tôt et figure dans le Tableau 1 ci-haut. Nous avons débuté l'analyse en réalisant cette classification des participants : aucune séquelle, handicap léger à modéré, handicap sévère. Ensuite, nous avons réalisé l'analyse thématique des réponses parentales aux questions ouvertes au sujet des inquiétudes et des éléments positifs concernant leur enfant. Une méthodologie qualitative classique a été utilisée. Les thèmes ont été développés séparément et simultanément par trois évaluateurs (MJ, TML et AJ). Les réponses parentales ont été classées par thèmes individuellement par deux évaluateurs (MJ et TML) et un accord inter-juges a été réalisé. Les évaluateurs ont eu un accord pour plus de 80% des réponses. Pour les réponses litigieuses, les deux évaluateurs ont trouvé un terrain d'entente ou un troisième évaluateur (AJ) a tranché. Les résultats ont été colligés et des statistiques de base (nombre de répondants par thème, moyennes) ont été réalisées dans Microsoft Excel.

En troisième lieu, les fréquences des thèmes retrouvés ont été corrélées aux résultats des évaluations neurodéveloppementales, en utilisant une méthodologie mixte. Nous avons analysé les thèmes évoqués par les parents en correspondance avec le niveau d'atteinte du neurodéveloppement : aucune, légère à modérée ou sévère. Ces comparaisons ont été réalisées en utilisant le test exact de Fisher à travers IBM SPSS Statistics 24.

Chapitre 4 : Résultats sous forme d'article scientifique

Les résultats de ce mémoire sont présentés sous forme d'article qui a été publié dans le *Journal of Pediatrics* en septembre 2018 (Jaworski, Janvier, Lefebvre et Luu, 2018). Cet article a été accompagné d'un éditorial (Bell et Rysavy, 2018).

Parental Perspectives Regarding Outcomes of Very Preterm Infants: Towards a Balanced Approach

Magdalena Jaworski, MD^{a,g}, Annie Janvier, MD PhD^{b,c,d,e,f,g}, Francine Lefebvre, MD^{b,d,g}, Thuy Mai Luu, MD MSc^{a,d,g}

Affiliations:

^aDivision of General Pediatrics, ^bDivision of Neonatology, ^cClinical Ethics Unit, Palliative Care Unit, ^dResearch center, ^eUnité de recherche en éthique clinique et partenariat famille, Centre Hospitalier Universitaire Sainte-Justine, Montreal, Canada; ^fBureau de l'Éthique Clinique, ^gDepartment of Pediatrics, Faculty of Medicine, Université de Montréal, Montreal, Canada.

Address correspondence to: Thuy Mai Luu, Department of Pediatrics, CHU Sainte-Justine, 3175 Chemin de la Côte-Ste-Catherine, Montreal, Quebec, H3T 1C5 Canada. Phone: 1-514-345-4931 ext 6642. Fax: 1-514-346-4822.
Email: thuy.mai.luu@umontreal.ca

Funded by the Fonds de Recherche en Santé du Québec (salary support) to AJ and TML.

The authors declare no conflicts of interest.

Abbreviations: CA: corrected age; GA: gestational age; IVH: intraventricular hemorrhage; PVL: periventricular leukomalacia; NDI: neurodevelopmental impairment; sNDI: severe neurodevelopmental impairment; GMFCS: Gross Motor Function Classification System.

4.1 Abstract

Objectives

To explore parental perspectives - positive and negative - regarding their preterm child at 18 months corrected age and to investigate whether reported answers correlate with level of neurodevelopmental impairment (NDI) as defined by clinicians. We hypothesized that parents would report more negative concerns with increasing level of NDI.

Methods

This survey included 190 infants born <29 weeks of gestational age in 2009-2012 at one tertiary university health center. Infants underwent detailed developmental assessment at 18 months corrected age, and were classified into either absence or presence of mild-moderate or severe NDI. Parents were asked two open-ended questions: “What concerns you most about your child?” and “Please describe the best things about your child”. Open-ended questions were analyzed using qualitative methodology.

Results

In this cohort, 49%, 43% and 8% had no, mild to moderate, and severe NDI. The majority of parents (73%) had both positive and negative aspects to report, while 27% only had positive ones. The main positive themes invoked by parents included their child’s personality (61%), happiness (40%), developmental outcome/progress (40%) and physical health (11%). Main themes regarding parental concerns included: neurodevelopment (56%), notably language and behavior, and physical health (24%), particularly growth/nutrition and physical fragility. There was no association between positive themes and categories of NDI, but parents of children with mild-moderate NDI reported more concerns about development.

Conclusions

Neonatal outcome research would benefit from incorporating parental perspectives regarding their child, including negative and positive aspects, enabling physicians to provide complete and balanced information to parents of all preterm infants.

4.2 Introduction

Preterm birth, especially when occurring at lower gestational ages, is associated with increased risk of developmental delay and behavioral difficulties.¹⁻³ To monitor neurodevelopmental outcomes, neonatal follow-up programs have become the standard of care in many areas of the world. Typically, infants will undergo a comprehensive neurodevelopmental assessment between 18 to 36 months corrected age (CA) that will help determine presence or absence of neurodevelopmental impairment (NDI). Test results are combined and summarized into a classification system that estimates level of NDI (i.e. normal, mild, moderate or severe).⁴ This type of classification is widely used in the medical community for quality control (comparison within and between centers), to guide orientation to early intervention and rehabilitation services, as part of research protocols and also often to counsel prospective parents before a preterm birth.^{2, 5, 6}

Classification into NDI sub-categories is used by physicians and researchers, but it only provides one side of the story. Much of the current literature focuses on the best ways to predict the future of preterm infants.⁷ However, less interest is directed towards the parents' perception of their child's development, potentially missing meaningful outcomes that are important to parents and families.^{8, 9} As an example, common physical problems, such as feeding behaviors, may be worrisome for parents, but rarely systematically documented in conventional follow-up studies.^{9, 10} Previous studies have shown that healthcare professionals in pediatrics tend to judge impairment more negatively than parents and underestimate the quality of life of impaired children.^{11, 12} Parents generally report the positive aspects of parenting a child with an impairment.¹³ They feel that notwithstanding the outcome, neonatal intensive care was "worth it".¹⁴ Healthcare professionals may have a pessimistic view of impairment and focus on the hardships experienced by families.¹⁵ There is a need to better explore parental perspectives regarding their preterm child as this could inform us on what is meaningful to them and should be considered in health outcome research. Therefore, the goal of our study was to describe parents' perception of their preterm child, including both positive and negative aspects. We explored the association between their responses and their child's level of NDI at 18 months CA. We hypothesized that severity of NDI would be positively associated with concerns and negatively with positive aspects.

4.3 Methods

Design and study participants

This cross-sectional survey used data collected on infants prospectively followed from neonatal intensive care unit (NICU) discharge until 18-22 months CA at CHU Sainte-Justine, a level-III hospital university center. All surviving infants born before 29 weeks of gestational age (GA) between 2009 and 2012 were eligible for follow-up. There were no exclusion criteria. The study protocol was accepted by the local Institutional Review Board. All parents were informed and participating parents signed consent forms for data collection and entry into a research database.

Study procedure

At the 18-22 months CA visit, all eligible infants underwent neurodevelopmental assessment as per the Canadian Neonatal Follow-Up Network (CNFUN) protocol.⁴ Participating infants were first assessed by a psychologist with the Bayley Scales of Infant and Toddler Development, 3rd edition (Bayley-III),¹⁶ which provides three composite scores on cognitive, motor, and language development with a normalized mean of 100 and standard deviation of 15. A follow-up pediatrician then performed a neurological examination. Functional level was further determined for infants with a diagnosis of cerebral palsy using the Gross Motor Function Classification System (GMFCS).¹⁷ Data on visual assessment by a pediatric ophthalmologist and hearing examination were retrieved from the medical charts for all infants. Based on CNFUN classification, NDI was defined as the presence of any of the following: cerebral palsy, sensorineural/mixed hearing loss, visual impairment, developmental delay with any of the Bayley-III composite scores <85. Severe neurodevelopmental impairment (sNDI) was defined as presence of any of the following: cerebral palsy with a GMFCS of III, IV, or V (no head control), requirement for hearing aids or cochlear implants, bilateral visual impairment, severe developmental delay with any of the Bayley-III composite scores <70.⁴ For the purpose of the current study, we defined mild to moderate NDI as presence of NDI without sNDI. Severe NDI was referred to as sNDI.

While their child was being assessed by the psychologist and prior to the pediatrician's examination, parents were asked two open-ended questions: 1) "What concerns you most about your child?"; 2) "Please describe the best things about your child".

Neonatal and demographic data were collected from the infant's medical record by trained research personnel using definitions from the Canadian Neonatal Network abstractor manual.¹⁸ Description and analysis of data were performed when all the following information was available: neonatal follow-up, physical examination, Bayley-III scores and parental answers to open-ended questions.

Data analyses

Descriptive statistics were computed in terms of means and standard deviations, medians and interquartile ranges, and proportions. Comparisons between participants and non-participants were done using independent t-test for continuous variables normally distributed, Mann-Whitney test for non-normally distributed data, and chi-square for categorical variables.

Answers to open-ended questions were transcribed and then analyzed using thematic analysis. Themes were developed simultaneously and independently by three investigators (MJ, TML, AJ). Using a thematic qualitative content analysis approach, themes, nodes, sub-nodes and coding definitions were developed, agreed upon and rigorously defined by the three investigators. Coding of each question was done independently by two investigators coders (MJ, TML). Discrepancies between coding were resolved by involving a third researcher (AJ) and consensus between the three investigators was achieved. We calculated and described the frequency of each theme.¹⁹⁻²¹ Using mixed methods, we also investigated if themes invoked by parents were associated with level of NDI. We cross-tabulated themes invoked by parents against NDI categories i.e. normal, mild to moderate NDI, severe NDI. Comparisons across groups for main themes were done using Fisher's exact test. As these were exploratory analyses, we did not at this stage correct for multiple endpoints. All analyses were carried with IBM SPSS Statistics 24.

4.4 Results

At the 18-22 months CA follow-up visit, 270 out of the 323 eligible infants who survived until neonatal discharge were assessed (84% follow-up rate). Among the 270 infants seen at 18-22 months CA, 190 had completed both neurodevelopmental assessment and parental questionnaires, and were considered as study participants (Figure I). Our study participants were representative of all patients eligible for follow-up in terms of maternal and neonatal characteristics, except for multiple births (Table 1). There was no difference in 18-month neurodevelopmental outcomes between study participants and patients with incomplete data (Table 2). Among the 190 infants assessed, 49% had no disability, 43% had mild to moderate NDI and 8% had severe NDI. Among those with sNDI (n=15), 5 had cerebral palsy with a GMFCS ≥ 3 including 2 who also required hearing aids, 5 had cerebral palsy with a GMFCS of 1 or 2, but with a Bayley-III motor score < 70 , and remaining 5 had at least one Bayley-III score < 70 .

Figure I. Study flow diagram (in article)

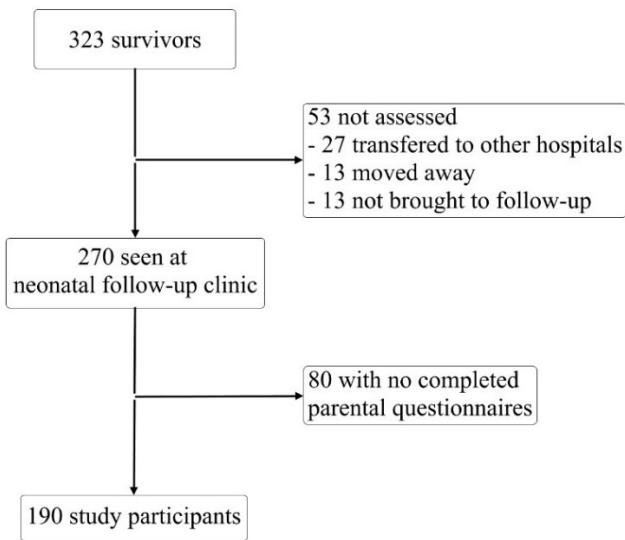


Table 1. Neonatal and sociodemographic characteristics of study participants in comparison to non-participants eligible to neonatal follow-up

| | Participants (n=190) | Non participants (n=133) |
|---|---------------------------------|-------------------------------------|
| Gestational age, mean (SD), weeks | 26.6 ± 1.4 | 26.9 ± 1.6 |
| Birth weight, mean (SD), grams | 935 ± 213 | 949 ± 221 |
| Male sex, n (%) | 101 (53) | 79 (59) |
| Multiple, n (%) | 41 (22) | 48 (36)* |
| Maternal age, mean (SD), years | 31 ± 5 | 30 ± 6 |
| Maternal education, n (%) | | |
| - Less than high school | 31 (16) | NA |
| - High school | 38 (20) | |
| - Some college and above | 121 (64) | |
| Single household, n (%) | 19/189 (10) | 7/131 (5) |
| Maternal ethnicity Caucasian, n (%) | 130 (68) | 89/127 (70) |
| Supplemental oxygen at 36 weeks CA, n (%) | 111 (58) | 66/121 (54) |
| Patent ductus arteriosus ligation, n (%) | 32 (17) | 20 (15) |
| Late-onset sepsis, n (%) | 60 (32) | 36 (27) |
| Brain injury, n (%) | | n=127 |
| - None | 143 (75) | 95 (75) |
| - Grade 1-2 IVH | 35 (18) | 21 (17) |
| - Grade 3-4 IVH, PVL | 12 (6) | 11 (9) |
| Retinopathy of prematurity requiring treatment, n (%) | 15 (8) | 12/120 (10) |
| Duration of neonatal stay, median (IQR), days | 98 (77-109) | 103 (75-133) |

* p-value <0.05 by chi-square test, NA: Not available IVH: intraventricular hemorrhage;

PVL: periventricular leukomalacia.

Table 2. Comparison of maternal education and neurodevelopmental outcomes between participants and patients with no completed questionnaires

| | Participants (n=190) | No questionnaires (n=80) |
|---|---------------------------------|-------------------------------------|
| Maternal education, n (%) | | N=76 |
| - Less than high school | 31 (16) | 9 (12) |
| - High school | 38 (20) | 26 (34) |
| - Above high school | 121 (64) | 41 (54) |
| Cerebral palsy, n (%) | | |
| - No | 162 (85) | 68 (85) |
| - Suspected | 13 (7) | 3 (4) |
| - Definitive | 15 (8) | 9 (11) |
| Hearing aids, n (%) | 4 (2) | 0 (0) |
| Any visual problem, n (%) | 16 (8) | 7 (9) |
| Bilateral blindness, n (%) | 0 | 0 |
| Bayley-3 scores, mean (SD) | | |
| - Cognition | 96 ± 13 | 93 ± 13 |
| - Language composite | 89 ± 15 | 89 ± 16 |
| - Motor composite | 86 ± 14 | 87 ± 14 |
| Bayley-3 scores <85, n (%) | | |
| - Cognition | 22/179 (12) | 10/69 (14) |
| - Language composite | 60/178 (34) | 26/67 (39) |
| - Motor composite | 59/179 (33) | 18/70 (26) |
| Disability category, n (%) | | n=79 |
| - No neurodevelopmental impairment | 93 (49) | 42 (53) |
| - Mild-moderate neurodevelopmental imp. | 82 (43) | 33 (42) |
| - Severe neurodevelopmental imp. | 15 (8) | 4 (5) |

Parental perspectives

The majority of parents (72.6%) had both positive and negative aspects to report, while 26.8% only had positive ones. One parent reported only concerns, leaving the positives section blank (0.5%). When reporting positive aspects as well as concerns, parents frequently mentioned more than one theme. Figure II demonstrates the frequency of the invoked themes.

Best things about the child

When parents reported positive things about their child, the four main themes invoked included their child's: 1) positive personality (61%), 2) happiness (40%), 3) developmental outcome/progress (40%) and 4) physical health (11%). Parents also reported how their children liked different things (8%) such as pets, playing, daycare or singing.

When parents described their child's positive personality, five different sub-themes were invoked: curious, persevering, easy, playful/active and/or social (Figure II A).

"She is curious, loves to discover new things and learns quickly";

"He won't give up";

"He is very happy, determined to do things by himself";

"Easy child, very social".

Many parents (40%) reported their child as being happy:

"He is such a happy child. He smiles all the time".

When reporting on positive aspects of development, the most common sub-theme was about how their child was making progress. Other sub-themes invoked by parents related to mental, physical development and to the fact that their child was exceeding expectations:

"He is making progress every week";

"Her development is normal, even though we were told the opposite at the beginning of life";

"He is good with his hands";

"She speaks very well".

Most parents reported several themes in the same sentence. For example, many mentioned that their child was both happy and also brought love and happiness to others:

“He loves to play. He loves people, makes them laugh, very affectionate”;

“My baby is happy; he can sit up now!”;

“She smiles and makes people smile”.

Parental concerns about the child

The main themes regarding parental concerns included three areas: 1) development (56%), 2) physical health (24%), 3) the future (5%). Ten percent of all parents had concerns related to both development and physical health.

When parents had concerns about development, these were mainly about language and behavior (Figure II B). Eighteen parents (10%) expressed worries for more than one developmental issue.

“His behavior worries me, he gets mad, he is aggressive”;

“He is too hyperactive”;

“She is not using many words”;

“His overall development: his motor skills, his language, his understanding”.

Parental concerns related to physical health mainly had to do with growth and nutrition, but also addressed sleep and overall fragility.

“It is difficult to make him eat”,

“He is small [...] feeding is hard”;

“He only eats purees, he does not eat on his own”;

“Her lung weakness, she is so fragile with infections”;

“Difficulty to fall asleep.”

Five parents (3%) reported more than one physical concern:

“His lungs, he had so many bronchiolitis, this has affected his growth. Also, he has a feeding problem. He doesn't feed, or very little, has no interest in this”.

Some parents had concerns about the future, mainly regarding the child's future adaptive function.

“I would like to know if she will continue to develop and whether she will be like other kids”;

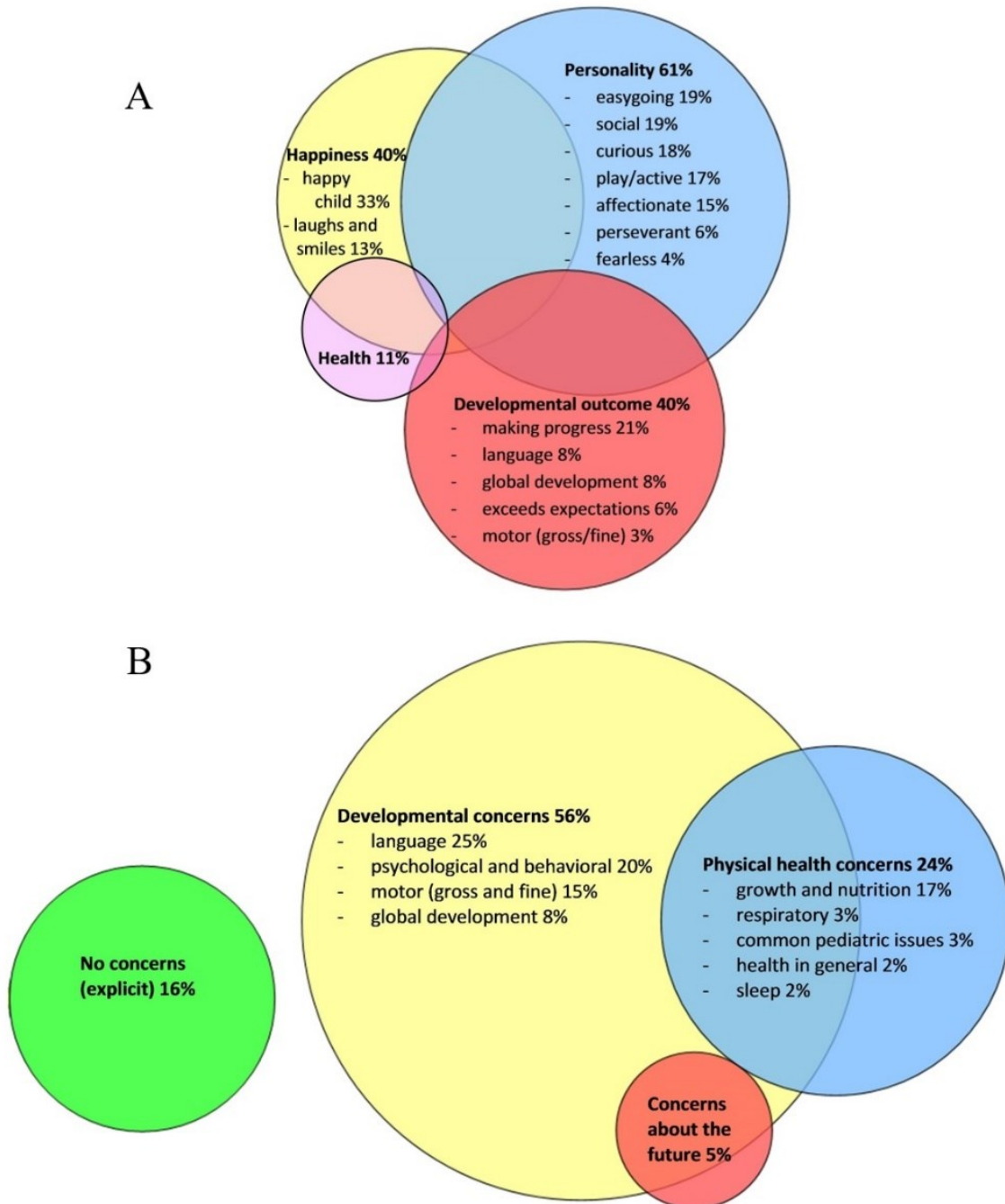
“He is delayed. What impact will this have on his development in the future?”

Interestingly, 16% explicitly mentioned having no concerns at all and 11% did not write anything down in the concerns sections. Some parents were concerned by the follow-up evaluation, not their child:

“Actually, I am worried about your opinion, not my daughter”.

Figure II. A and B Venn diagram

Venn diagram of main themes and subthemes invoked by each parent regarding **A**, best things and **B**, concerns about their preterm child. Some parents reported on several themes, which is illustrated by overlapping areas.



Association between NDI and positive/negative parental themes

Table 3 shows a comparison of themes invoked by parents of preterm children by NDI categories. There was no association between positive themes and categories of NDI. There was variability across NDI categories with regards to main themes of parental concern. Parents whose children had mild-moderate NDI were more likely to report worrying about development compared to parents of children with no NDI.

Table 3. Themes and sub-themes of parental responses by NDI category

| Parent/caregiver responses | Total | NDI category | | |
|---------------------------------|----------|-----------------------|--------------------------------|-------------------------|
| | n= 190 | <i>None</i> (n=93) | <i>Mild-Moderate</i> (n=82) | <i>Severe</i> (n=15) |
| POSITIVE ASPECTS | | | | |
| Happiness n, (%) | 76 (40) | 36 (39) | 33 (40) | 7 (47) |
| Personality n, (%) | 116 (61) | 57 (61) | 52 (63) | 7 (47) |
| Developmental outcome n, (%) | 75 (40) | 35 (38) | 33 (40) | 7 (47) |
| Physical health n, (%) | 20 (11) | 13 (14) | 5 (6) | 2 (13) |
| “What child likes” n, (%) | 16 (8) | 6 (7) | 9 (11) | 1 (7) |
| CONCERNS | | | | |
| Physical health concerns n, (%) | 45 (24) | 22 (24) | 19 (23) | 4 (27) |
| Developmental concerns n, (%) | 106 (56) | 43 (46) | 55 (67) * | 8 (53) |
| Concerns about future n, (%) | 10 (5) | 4 (4) | 4 (5) | 2 (13) |
| No concerns (explicit) n, (%) | 31 (16) | 19 (20) | 9 (11) | 3 (20) |

* p<0.05 by Fisher’s Exact test

Several themes per category were invoked by each parent.

4.5 Discussion

Neurodevelopmental follow-up of preterm infants is crucial for quality assessment of perinatal practice, for research and to inform both parents and clinicians. To our knowledge, we are the first to investigate with open-ended questions parental perspectives regarding their child at 18 months follow-up, including both positive and negative aspects.

Our first finding is that parents had many positive aspects to report about their children. These mainly related to their children's personalities, their happiness and how well they were developing. Many parents reported that their child was developing better than expected. While only one parent mentioned negative concerns without reporting any positive things, nearly 27% only wrote about positive aspects. It could be that after hearing many times about all potential risks their children could face, parents displayed a lot of gratitude down the road: they brought a child home, their child is now happy and improving. We could not find a comparable study of parents of children who were healthy at birth. We wonder what the results could be: would parents have more positive than negative things to report? It may be that after going through the NICU, parents of extremely preterm infants place their child's life in perspective and see life more positively (or less negatively).²²

Our second finding is that parents also reported a variety of negative aspects. Those were generally related to development and/or physical health of their children. Indeed, although child development and progress came out as a positive theme, it was also the parents' primary area of concern. Certainly, a parent may be happy when their child is exceeding expectations, yet also concerned that he/she is not speaking as well as he/she should. Not surprisingly, in the second year of life, concerns regarding language and behavior emerged. Many parents had concerns about their child's behavior. In the neonatal literature, a child with hyperactivity or with a significant isolated behavioral problem will be - wrongly - categorized by clinicians and researchers as having no or minimal NDI. For a parent, it may be very different. An aggressive and angry child may represent a severe disability to many families.⁹

Other important concerns included feeding and growth, which are not as often addressed by the neonatal outcome literature.¹⁰ Parents of preterm infants are not always told about these

potential problems before discharge from the NICU, although it has been shown that parenting stress is related to perceived feeding issues in the first year of life.²³

Our third finding was related to the association between parental perspectives and their child's level of NDI. Interestingly, regardless of level of NDI, happiness, personality, development and health were equally reported as main emerging themes. We were pleasantly surprised to observe that our hypothesis was wrong. Two thirds of parents whose children had mild-moderate NDI reported worrying about development, which was higher than the group of parents of children without NDI. Yet, almost half of the parents of children who were assessed as having a normal development still voiced significant concerns regarding their child's development. Parents filled the questionnaire before they obtained results from the neurodevelopmental assessment. Nevertheless, it is also possible that parents of preterm infants continue to perceive their child as vulnerable, years after having been hospitalized in the NICU,^{24, 25} especially since more subtle developmental dysfunctions such as attention deficit, learning disabilities, or developmental coordination disorders, to name a few, may only become apparent as the child grows older.²⁶ Parents praised their child for his or her developmental progress, even with severe impairment. This echoes previous research about the positive and transformational aspects of being the parent of a child with disability.^{13, 27}

We did not investigate the impact of a preterm birth on parents themselves and it is well documented that NICU admission can have long-lasting negative impacts on parents such as anxiety, depression and post-traumatic stress.²⁸ Studies asking about positive impacts of parenting an extremely preterm child are rare. Yet, when similar studies have been performed, they have shown that parents of severely disabled children acknowledged the positive impacts that their child have had on their lives.^{13, 22, 29} This can sometimes be interpreted as unrealistic or "parents in denial". Clinicians may often describe the personal and financial costs that are associated with raising fragile children. However, significant fatigue does not mean that parenting is unsatisfying.³⁰ In this study, many parents reported the positive impacts their children had on them and others. Bright moments and positive things enrich these families' lives. Bringing up an extremely preterm child after a long NICU course is not easy, but it can also be rewarding and gratifying. Parents should also be informed about these positive

perspectives, to balance the information they receive regarding hardships.

Results from our study should make us reflect about how we counsel parents of preterm infants prior to delivery and throughout the NICU stay. When we inform families about outcomes, we must remember that the items measured and the classification of severity have been chosen by researchers and clinicians. They have never been evaluated by parents and it is probable that many outcomes important to parents are not currently evaluated in an appropriate fashion. Research pertaining to disabilities has shown that healthcare providers may have a skewed approach to prenatal counselling, painting a more “negative” picture when the disability is anticipated prenatally.^{31, 32} Health care professionals have been shown to poorly rate health-related quality of life of children with disabilities.¹⁵ While mounting evidence encourages a balanced ethical approach to discussing outcomes with parents during prenatal consultation for preterm birth,^{33, 34} little is known about what parents specifically think once their child has been through the NICU. Our study depicts a balanced portrait of parental perspectives, including some negative aspects that are not currently considered as important in systematic follow-up programs.

Limitations of this study must be acknowledged. First, a significant proportion of families seen at 18-22 months CA did not have complete data. However, the study sample was representative of children eligible for follow-up. Second, parental answers may have been biased towards neurodevelopmental outcomes as this is currently the main area of focus in most neonatal follow-up programs and questions were asked during a neurodevelopmental assessment. Despite this, many parents had positive and negative perspectives that were not related to development. Our study bears the strength of being the first to examine how a large sample of parents of preterm infants perceived their child at follow-up, using their own words.

4.6 Conclusion

Our study aimed to examine how parents perceived their preterm child during follow-up in relation to the child's level of NDI as determined by health care professionals. Regardless of level of NDI, parents in our study felt their children to be happy, have a pleasant personality and to be making progress. Neurodevelopment remained a major area of concern that should continue to be addressed in clinical care, teaching and research. Preterm outcome research tends to focus on challenges faced by preterm children and their families, thus potentially negatively influencing how health care professionals perceive the lives of survivors of preterm birth. Outcome research should incorporate parental perspectives using a broader framework that not only searches for challenges, but also actively examines aspects of resilience and transformation. We hope this will enable physicians to provide adequate and balanced information to parents of preterm infants and bring the focus on pathways leading to meaningful and fulfilling lives for all.

4.7 Références de l'article

1. Doyle LW, Anderson PJ, Battin M, Bowen JR, Brown N, Callanan C, et al. Long term follow up of high risk children: who, why and how? *BMC Pediatr.* 2014;14:279.
2. Maitre NL. Neurorehabilitation after neonatal intensive care: evidence and challenges. *Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed.* 2015;100:F534-40.
3. Broyles RS, Tyson JE, Heyne ET, Heyne RJ, Hickman JF, Swint M, et al. Comprehensive follow-up care and life-threatening illnesses among high-risk infants: A randomized controlled trial. *JAMA.* 2000;284:2070-6.
4. Synnes A, Luu TM, Moddemann D, Church P, Lee D, Vincer M, et al. Determinants of developmental outcomes in a very preterm Canadian cohort. *Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed.* 2017;102:F235-F4.
5. Profit J, Soll RF. Neonatal networks: clinical research and quality improvement. *Semin Fetal Neonatal Med.* 2015;20:410-5.
6. Rogers EE, Hintz SR. Early neurodevelopmental outcomes of extremely preterm infants. *Semin Perinatol.* 2016;40:497-509.
7. Stoll BJ, Hansen NI, Bell EF, Walsh MC, Carlo WA, Shankaran S, et al. Trends in care practices, morbidity, and mortality of extremely preterm neonates, 1993-2012. *JAMA.* 2015;314:1039-51.
8. Batton D, Batton B. Advocating for equality for preterm infants. *CMAJ.* 2013;185:1559-60.
9. Janvier A, Farlow B, Baardsnes J, Pearce R, Barrington KJ. Measuring and communicating meaningful outcomes in neonatology: A family perspective. *Semin Perinatol.* 2016;40:571-7.
10. Adams-Chapman I, Bann CM, Vaucher YE, Stoll BJ. Association between feeding difficulties and language delay in preterm infants using Bayley Scales of Infant Development-Third Edition. *J Pediatr.* 2013;163:680-5 e1-3.
11. Saigal S, Rosenbaum PL, Feeny D, Burrows E, Furlong W, Stoskopf BL, et al. Parental perspectives of the health status and health-related quality of life of teen-aged children who were extremely low birth weight and term controls. *Pediatrics.* 2000;105:569-74.

12. Lam HS, Wong SP, Liu FY, Wong HL, Fok TF, Ng PC. Attitudes toward neonatal intensive care treatment of preterm infants with a high risk of developing long-term disabilities. *Pediatrics*. 2009;123:1501-8.
13. Scorgie K, Sobsey D. Transformational outcomes associated with parenting children who have disabilities. *Ment Retard*. 2000;38:195-206.
14. Wraight CL, McCoy J, Meadow W. Beyond stress: describing the experiences of families during neonatal intensive care. *Acta Paediatr*. 2015;104:1012-7.
15. Saigal S, Stoskopf BL, Feeny D, et al. Differences in preferences for neonatal outcomes among health care professionals, parents, and adolescents. *JAMA*. 1999;281:1991-7.
16. Bayley N. Bayley Scales of Infant and Toddler Development, 3rd edition: PsychoCorp; 2005.
17. Rosenbaum PL, Palisano RJ, Bartlett DJ, Galuppi BE, Russell DJ. Development of the Gross Motor Function Classification System for cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol*. 2008;50:249-53.
18. The Canadian Neonatal Network. The Canadian Neonatal Network > CNN - Home > Abstractors' Page [Last accessed January 2018]. Available from: <http://www.canadianneonatalnetwork.org/portal/CNNHome/AbstractorsPage.aspx>.
19. Creswell J. Research design: Qualitative, quantitative, and mixed method approaches. Thousand Oaks, CA: Sage Publications; 2003.
20. Denzin N, Lincoln Y. Handbook of qualitative research. Thousand Oaks, CA: Sage Publications; 2000.
21. Hsieh HF, Shannon SE. Three approaches to qualitative content analysis. *Qual Health Res*. 2005;15:1277-88.
22. Janvier A, Lantos J, Aschner J, Barrington K, Batton B, Batton D, et al. Stronger and more vulnerable: A balanced view of the impacts of the NICU experience on parents. *Pediatrics*. 2016;138.

23. Howe TH, Sheu CF, Wang TN, Hsu YW. Parenting stress in families with very low birth weight preterm infants in early infancy. *Res Dev Disabil.* 2014;35:1748-56.
24. Horwitz SM, Storfer-Isser A, Kerker BD, Lilo E, Leibovitz A, St John N, et al. A model for the development of mothers' perceived vulnerability of preterm infants. *J Dev Behav Pediatr.* 2015;36:371-80.
25. Allen EC, Manuel JC, Legault C, Naughton MJ, Pivor C, O'Shea TM. Perception of child vulnerability among mothers of former premature infants. *Pediatrics.* 2004;113:267-73.
26. Luu TM, Rehman Mian MO, Nuyt AM. Long-term impact of preterm birth: neurodevelopmental and physical health outcomes. *Clin Perinatol.* 2017;44:305-14.
27. Kenny K, McGilloway S. Caring for children with learning disabilities: an exploratory study of parental strain and coping. *Br J Learn Disabil.* 2007;35:221-8.
28. Kim WJ, Lee E, Kim KR, Namkoong K, Park ES, Rha DW. Progress of PTSD symptoms following birth: a prospective study in mothers of high-risk infants. *J Perinatol.* 2015;35:575-9.
29. Blacher J, Baker BL. Positive impact of intellectual disability on families. *Am J Ment Retard.* 2007;112:330-48.
30. Green SE. "We're tired, not sad": Benefits and burdens of mothering a child with a disability. *Soc Sci Med.* 2007;64:150-63.
31. Sheets KB, Best RG, Brasington CK, Will MC. Balanced information about Down syndrome: what is essential? *Am J Med Genet A.* 2011;155A:1246-57.
32. Janvier A, Farlow B, Barrington KJ. Parental hopes, interventions, and survival of neonates with trisomy 13 and trisomy 18. *Am J Med Genet C Semin Med Genet.* 2016;172:279-87.
33. Gaucher N, Payot A. From powerlessness to empowerment: Mothers expect more than information from the prenatal consultation for preterm labour. *Paediatr Child Health.* 2011;16:638-42.
34. Griswold KJ, Fanaroff JM. An evidence-based overview of prenatal consultation with a focus on infants born at the limits of viability. *Pediatrics.* 2010;125:e931-e7

Chapitre 5 : Discussion

5.1 Forces, limites et validité externe de l'étude

La principale force de notre étude est le fait qu'il s'agit d'une première exploration des perspectives parentales – positives et négatives – au sujet de leur enfant prématuré à l'âge corrigé de 18 mois, sous forme de réponses parentales à des questions ouvertes. D'autres études phares, dont celles de Saigal et al., exploraient la qualité de vie des grands prématurés à long terme et ont été une inspiration pour la réalisation de notre recherche (Saigal et al., 2000). Dans notre cohorte, nous avons analysé les perspectives des parents d'enfants encore jeunes, mais ayant eu congé des soins intensifs néonataux depuis plusieurs mois. Ceci nous a permis d'avoir une idée plus claire des difficultés rencontrées par les familles dans la petite enfance, mais aussi de connaître les éléments positifs de leurs vies quotidiennes avec un enfant qui a été très malade et l'est possiblement encore.

Pour analyser les résultats, nous avons choisi une méthodologie mixte, combinant l'analyse par thèmes des réponses parentales avec l'analyse statistique des contrastes entre la classification médicale et les taux de popularité des thèmes évoqués par les parents. Les méthodologies mixtes gagnent en popularité et plusieurs auteurs suggèrent une approche combinée pour l'avancement des techniques de recherche auprès des familles (Bujold et al., 2018). Le but de l'analyse thématique a été d'atteindre le plus possible une saturation des thèmes (Creswell, 2003; Hsieh et Shannon, 2005). À cet effet, nous avons inclus tous les répondants ainsi que toutes les réponses parentales (certains parents évoquaient plusieurs thèmes par question). Nous avons analysé les thèmes séparément et avons un accord inter-juges de plus de 80%. Ces réponses demeurent les évaluations subjectives du devenir des enfants prématurés, et n'ont pas la robustesse des données quantitatives tels les scores à l'évaluation psychologique. Pourtant, puisque nous avons un grand nombre de répondants, nous sommes confiants d'une bonne représentation des opinions parentales. L'analyse qualitative a ensuite été corrélée aux valeurs quantitatives issues des évaluations développementales des patients, dans une méthodologie mixte innovante pour le domaine de la recherche en suivi néonatal.

L'étude peut être limitée par un biais de circonstances de l'évaluation. En effet, les parents répondaient aux questionnaires avant l'évaluation neurodéveloppementale, le jour même. Les parents savaient donc qu'ils venaient pour une rencontre de suivi accompagnée d'une évaluation du développement. Les questions ouvertes faisaient partie d'un questionnaire global concernant le développement et le comportement de l'enfant. Un des buts de l'étude était de décrire les types d'inquiétudes des parents dans la période de la petite enfance des prématurés. Nous avons trouvé un nombre saillant d'inquiétudes concernant le développement de l'enfant dans nos résultats. Il se peut que ces résultats soient influencés par le moment d'administration du questionnaire. Cependant, plusieurs autres inquiétudes, qui ne font pas partie des buts de l'évaluation à 18 mois d'âge corrigé, étaient présentes dans les réponses des parents. Plusieurs parents étaient inquiets de l'alimentation, des infections et du système immunitaire de leur enfant, mais aussi au sujet de problématiques pédiatriques courantes comme les dents, le sommeil et le comportement. Notre étude n'avait pas de groupe contrôle comprenant des enfants nés à terme. Il serait pertinent de corroborer ces résultats avec d'autres recherches au sujet des perspectives parentales concernant leur enfant. Il est possible que les inquiétudes des parents ayant un enfant prématuré ne diffèrent pas énormément des inquiétudes de tous les parents.

Un biais de désirabilité sociale peut également être évoqué concernant les descriptions des éléments « positifs » par les parents. Un parent pourrait vouloir prouver à son médecin que l'enfant va bien et lui octroyer des qualificatifs exagérés. Toutefois, l'étude étant d'abord et avant tout descriptive, le but était de décrire les expériences parentales au sujet de leur enfant, positives et négatives. Nous ne cherchions pas uniquement à savoir si les parents avaient quelque chose de positif à dire, mais bien *qu'est-ce qu'ils voient comme étant positif*. De ce fait, certains parents trouvaient que le développement de leur enfant était positif, alors que d'autres le mentionnaient dans leurs inquiétudes. Également, il était intéressant de remarquer que presque tous les parents ont inscrit des éléments positifs, mais certains n'ont pas inscrit d'inquiétudes. Plusieurs ont écrit « rien », dans la section des inquiétudes. Ceci nous mène à suspecter que les parents recherchaient une tribune pour montrer les bons côtés de leur enfant, au même moment que celui-ci était en train d'être évalué afin de préciser ses faiblesses. Cela introduit certains enjeux éthiques méritant une réflexion approfondie, ainsi que des perspectives de recherche ultérieures.

L'étude a été réalisée dans une clinique de suivi néonatal, sur une population de prématurés de < 29 semaines. À notre avis, les données recueillies pourraient être reproduites dans d'autres contextes similaires où le suivi néonatal existe et est accessible, surtout dans les pays occidentaux. Cependant, il est possible que les perspectives parentales soient influencées par la société où les familles vivent. Les différences dans la durée de congé parental, la disponibilité de garderies subventionnées ainsi que la présence d'un système de santé universel pourraient avoir un impact qui n'a pas été évalué lors de ce projet de maîtrise. Notre cohorte s'apparente aux cohortes nationales au niveau des statistiques concernant les taux de morbidité néonataux. Les caractéristiques des enfants dont les dossiers ont été inclus dans l'étude étaient comparables à celles des dossiers incomplets. Afin de réaliser une analyse thématique jusqu'à saturation des thèmes prédominants, nous avons sélectionné tous les parents comme des participants a priori. Nous estimons que cette démarche a permis une bonne identification des positifs et des inquiétudes parentales lors du suivi néonatal, introduisant une nouvelle façon de récolter les données importantes pour les parents (parent-important outcomes) concernant les survivants en néonatalogie.

5.2 Vers un partenariat en suivi néonatal

Plusieurs chercheurs s'intéressent au partenariat parents/famille/patients-cliniciens dans un contexte de soins intensifs néonataux, dont Dr Annie Janvier, directrice de ce projet et du mémoire de maîtrise. La pratique du « family-integrated care » est bien établie et traverse les frontières (Li et al., 2017; Patel, Ballantyne, Bowker, Weightman et Weightman, 2018; Warre, O'Brien et Lee, 2014). Les parents d'enfants prématurés privilégient généralement la participation active dans les soins de leur enfant. La participation des parents-partenaires a été démontrée bénéfique pour l'amélioration des soins aux enfants en néonatalogie, en recherche et en enseignement (Dahan et al., 2019). La prise de décision en partenariat passe par un accès à l'information adéquate, tant pour le médecin que le patient. Aux soins intensifs néonataux, les parents d'enfants à risque de présenter un handicap sévère ne prédisent pas une plus faible qualité de vie pour celui-ci. Ils s'inquiètent de l'impact que cette naissance prématurée aura sur toute la famille (Ferrand, Gorgos, Ali et Payot, 2018). Il nous est donc paru important d'examiner comment les parents voient leurs enfants, à distance par rapport à l'hospitalisation

aux soins intensifs. Nous avons identifié plusieurs contrastes entre les éléments pronostiques importants pour les professionnels de la santé, et ceux identifiés par les parents.

À 18 mois d'âge corrigé, nous avons trouvé que la majorité des parents rapportaient des éléments positifs, malgré le handicap parfois sévère de leur enfant. Nous avons trouvé que l'état de santé des enfants, particulièrement la croissance et l'alimentation, demeurait inquiétant pour les parents après plusieurs mois. Or, les enjeux liés à l'alimentation sont pris en charge de façon importante aux soins intensifs et dans les premiers mois après le congé. Par la suite, le programme de suivi néonatal canadien continue de suivre les problématiques alimentaires des prématurés, mais l'étendue de ce suivi est programme-dépendante (Synnes et al., 2016). Les difficultés alimentaires peuvent présenter un défi significatif pour les familles (Adams-Chapman, Bann, Vaucher et Stoll, 2013), alors qu'ils ne se retrouvent pas dans la catégorisation des handicaps. Il en va de même pour les défis au niveau du comportement et de la santé mentale des tous-petits: ceux-ci ne sont pas évalués systématiquement à travers toutes les organisations de suivi néonatal, mais peuvent avoir un impact important sur les familles. Également, nous avons trouvé que les parents des enfants ayant un handicap léger à modéré décrivaient davantage d'inquiétudes que ceux ayant un handicap sévère. Ceci est possiblement révélateur au sujet du stress parental, exacerbé par l'évaluation neurodéveloppementale minutieuse. Globalement, nous avons trouvé que certains éléments auxquels les parents accordent une importance majeure lors du suivi néonatal ne sont pas nécessairement ceux qui figurent dans le suivi standardisé en recherche. De plus, la recherche en suivi néonatal identifie les difficultés vécues par les enfants, mais ne rapporte pas les éléments positifs pour les familles. De ce fait, il est possible que le suivi néonatal ne fournisse pas tout à fait un portrait complet et réaliste du pronostic de l'enfant né extrêmement prématuré. Cela peut assurément entraîner, en recherche comme en clinique, des biais négatifs concernant le devenir de ces enfants.

La réalisation de ce projet a été pour moi une réflexion au sujet du partenariat avec les parents en suivi néonatal. En effet, le parent n'est pas complètement passif lors des rendez-vous de suivi néonatal et pourrait y prendre une place plus grande. Actuellement, les parents remplissent des questionnaires au sujet de la santé et du développement de leur enfant. Les résultats de ces questionnaires sont corroborés avec les résultats de l'évaluation standardisée,

mais pas utilisés directement dans la classification des handicaps (Tableau 1) (Synnes et al., 2016). Ceci entraîne une question importante concernant la validité de l'information obtenue. Comme l'écrivent Drs Bell et Rysavy dans l'éditorial accompagnant l'article présenté dans ce mémoire : « What is a satisfactory outcome? and Who should decide? » (Bell et Rysavy, 2018). L'évaluation neurodéveloppementale est en effet un test standardisé, laissant peu de place aux perspectives du vécu quotidien des familles. Il s'agit d'une image uniquement médicale de l'enfant. La description parentale, filtrée par les questionnaires standardisés tels le Achenbach, se trouve à être relativement moins importante. Ceci amène à une question fondamentale : qui détient la vérité au sujet de la « classification » de l'enfant prématuré? Les enfants prématurés sont considérés a priori à risque de présenter des retards et troubles du développement. Les évaluations sont réalisées afin de préciser leur pronostic et d'identifier ceux qui bénéficieraient d'une intervention développementale précoce. Il est donc peu fréquent que les intervenants se questionnent au sujet du bien-fondé de ces évaluations, et de l'effet de l'évaluation sur la dynamique familiale. Dans notre recherche, il est surprenant et fascinant de lire cette mère qui décrit ses inquiétudes comme suit : « *Je ne suis pas inquiète au sujet de mon enfant, mais bien de ce que vous allez dire* ». Notre projet permet d'ouvrir la porte à ces commentaires, peu discutés dans la littérature. Malgré qu'elles proviennent de réponses subjectives à des questionnaires parentaux, ces réponses ont une énorme valeur. Afin de songer à un vrai partenariat dans les soins en suivi néonatal, il semble essentiel d'y incorporer les perspectives parentales au sujet de leur enfant prématuré. Les réponses des parents dans cette recherche offrent une grande richesse d'information, qui vaut la peine d'être explorée. En effet, un des buts du suivi néonatal consiste à renseigner les parents sur le devenir de leurs enfants. Les parents d'enfants à l'unité néonatale pourraient mieux se préparer à leur congé et leur suivi s'ils étaient aussi renseignés sur les perspectives venant d'autres parents comme eux; et pas seulement sur les diagnostics négatifs potentiels qui risquent de survenir.

5.3 Avenues de recherche futures

Ce projet de maîtrise ouvre la porte à plusieurs perspectives de recherche dans les années à venir. Premièrement, outre la complétion de ce projet et la publication de l'article, l'avantage

de notre méthodologie a été l'identification de thèmes des perspectives parentales qui ont servi à l'élaboration d'un questionnaire quantitatif ciblé. Celui-ci est maintenant déployé sous forme de projet de recherche dans le questionnaire EPIQ (Evidence-based Practice for Improving Quality, financé par les IRSC) du suivi néonatal dans plusieurs sites au Canada (www.epic.ca). Ce questionnaire quantitatif offre des choix de réponse concernant les points positifs et les difficultés perçues par les parents au sujet de leur enfant prématuré, tout en laissant un champ libre pour indiquer d'autres réponses par le biais du portail en ligne. Ces résultats pourront apporter plus de validité à l'étude présentée dans ce mémoire, car des parents de plusieurs provinces au Canada sont questionnés de manière systématique et prospective. Nous croyons que ces perspectives enrichissent les résultats des évaluations en suivi néonatal. Le but ultime du projet EPIQ est d'agréments la base de données du Canadian Neonatal Network. Il s'agit de continuer à recueillir les données essentielles pour la recherche (par exemple la présence de paralysie cérébrale), mais aussi de décrire les issues essentielles pour les familles.

Le projet « La voix des parents » est aussi en cours au CHU Sainte-Justine (financé par le Réseau Canadien Child Bright, subventionné par les IRSC). Il s'agit d'une exploration plus ciblée des perspectives parentales au sujet de la santé et du développement de leur enfant à travers un questionnaire basé sur les résultats de la présente étude. Le but est de décrire ce que les parents eux-mêmes considèrent comme important à savoir suivant la naissance de leur bébé prématuré. Le questionnaire inclut les questions suivantes :

- Si vous pouviez améliorer un ou deux aspects de la santé et du développement de votre enfant, quels seraient-ils?
- Veuillez nous indiquer 1 ou 2 impact(s) positif(s)/négatif(s) de la naissance de votre enfant que vous considérez comme le(s) plus important(s) dans votre vie ou la vie de votre famille.
- Sachant ce que vous savez maintenant, qu'auriez-vous souhaité que les médecins vous disent au sujet de la prématurité avant ou après la naissance de votre enfant? Y-a-t-il quelque chose que vous auriez fait différemment?

L'analyse qualitative des résultats est en cours. Le but ultime est de consolider nos connaissances par rapport aux « parent/family-important outcomes » et de solidifier le

partenariat avec les familles à travers une meilleure compréhension de leur vécu et de leurs réalités actuelles. Aussi, nous avons comme but de mieux comprendre le schéma de réflexion des parents face au pronostic de leur enfant prématuré. Sont-ils bien informés? Que souhaitent-ils savoir de plus concernant la situation de leur enfant? Quels sont les éléments qui illuminent leurs vies de tous les jours et quels sont les problématiques qui engendrent une détresse à long terme? Notre étude tend également à soutenir la présence de parents-partenaires dans l'élaboration de projets de recherche qui concernant les enfants. En effet, nous avons la chance de collaborer avec une parent-partenaire pour le projet « La voix des parents » et il s'agit d'une richesse au niveau de l'interprétation des résultats à travers ses yeux.

De plus, le projet encourage une prise de conscience des effets du suivi standardisé néonatal sur les familles. D'après notre expérience, le rendez-vous lui-même est souvent générateur d'anxiété pour les parents. Le chercheur et clinicien peut d'ailleurs s'interroger plus profondément concernant les contrastes identifiés entre les perspectives parentales et l'évaluation standardisée de la santé et du développement de l'enfant. Nous avons trouvé que les parents d'enfants ayant un handicap léger à modéré décrivaient davantage d'inquiétudes que les parents d'enfants sévèrement handicapés. Cette constatation ouvre la porte à un questionnement au sujet de la résilience et du stress parental. Cependant, elle mène le chercheur également à se questionner au sujet de la classification des handicaps. En effet, si un handicap léger peut avoir un impact plus grand dans une famille, la classification des handicaps reflète-t-elle réellement la réalité vécue par celles-ci? Également, quelles sont les perspectives des parents concernant leur enfant né à terme dans la population générale? Ces perceptions ressemblent-elles ou diffèrent-t-elles de celles des parents d'un enfant prématuré? Ce projet de maîtrise m'a donc permis de réfléchir à toutes ces questions et en générer plusieurs autres qui feraient l'objet d'études potentielles intéressantes.

Chapitre 6 : Conclusion

En conclusion, la réalisation de ce projet m'a permis d'être à l'écoute des perspectives parentales de la santé et du développement des enfants prématurés à l'âge corrigé de 18 mois, dans une optique de renforcement du partenariat dans les soins. Nous avons identifié les points positifs et les inquiétudes parentales alors que leur enfant était évalué dans le cadre du suivi néonatal standardisé. J'ai eu la chance d'explorer l'utilisation d'une méthodologie qualitative et quantitative, qui a mené à l'identification de thèmes et de sous-thèmes, ainsi que leur comparaison avec l'évaluation des professionnels de la santé. J'ai également eu l'occasion de partager ces découvertes lors des présentations aux conférences de la Société Canadienne de Pédiatrie 2017 et l'American Academy of Cerebral Palsy and Developmental Medicine 2017, publication d'un abrégé lors du congrès de la Société Canadienne de Pédiatrie 2017, ainsi que la rédaction et la publication d'un article scientifique.

L'étude ouvre la porte à la recherche en partenariat dans les décisions de soins, qui ne se limite pas à la situation urgente des soins intensifs. Les trouvailles de ce projet soulignent l'importance de poursuivre la discussion ouverte avec les parents des enfants prématurés après leur congé de l'hôpital, incluant dans ma pratique personnelle en pédiatrie du développement. Il demeure essentiel de réaliser un suivi néonatal efficace et rigoureux, afin de continuer l'amélioration dans les processus de soins prénataux et néonataux. Néanmoins, notre étude révèle qu'il serait pertinent de colliger également les perspectives parentales au sujet de la santé et du développement de leur enfant. Le fait de rapporter seulement les séquelles de la prématurité donne une impression péjorative du devenir de ces enfants. La classification du handicap n'est pas la seule information pronostique valide aux yeux des parents; ceux-ci voient les côtés positifs de leur expérience, malgré les difficultés. De plus, les chercheurs n'ont peut-être pas une idée complète du pronostic des prématurés, car ils ne s'intéressent qu'aux résultats restreints de tests standardisés. Certaines difficultés, par exemple dans le comportement ou l'alimentation, ne sont pas considérées comme graves aux yeux des professionnels, alors qu'elles ont un impact important sur les familles. Le fait de recueillir des informations sur les éléments pronostiques importants aux yeux des parents permettrait d'informer les soignants, mais aussi les futurs parents d'enfants prématurés, des pronostics réalistes attendus de la prématurité. Au terme de

cette étude, nous croyons que ces éléments pronostiques, combinés aux perspectives parentales, pourraient ajouter une grande richesse d'information au suivi néonatal.

Références bibliographiques

- AAP. (2006). Identifying Infants and Young Children With Developmental Disorders in the Medical Home: An Algorithm for Developmental Surveillance and Screening. *Pediatrics*, 118(1), 405-420. doi: 10.1542/peds.2006-1231
- Achenbach, T. M. et Rescorla, L. A. (2000). *Manual for the ASEBA preschool forms & profiles*. Burlington, VT: University of Vermont, Research Center for Children, Youth, and Families.
- Adams-Chapman, I., Bann, C. M., Vaucher, Y. E. et Stoll, B. J. (2013). Association between feeding difficulties and language delay in preterm infants using Bayley Scales of Infant Development-Third Edition. *Journal of Pediatrics*, 163(3), 680-685 e681-683. doi: 10.1016/j.jpeds.2013.03.006
- Bayley, N. (2005). *Bayley Scales of Infant and Toddler Development, 3rd edition*. PsychoCorp.
- Beach, M. C. et Sugarman, J. (2019). Realizing Shared Decision-making in Practice. *JAMA*. doi: 10.1001/jama.2019.9797
- Bell, E. F. et Rysavy, M. A. (2018). What Parents Want to Know after Preterm Birth. *The Journal of Pediatrics*, 200, 10-11. doi: 10.1016/j.jpeds.2018.04.025
- Blacher, J. et Baker, B. L. (2007). Positive impact of intellectual disability on families. *American Journal of Mental Retardation*, 112(5), 330-348. doi: 10.1352/0895-8017(2007)112[0330:pioido]2.0.co;2
- Buck, C., Gregg, R., Stavray, K., Subrahmaniam, K. et Brown, J. (1969). The effect of single prenatal and natal complications upon the development of children of mature birthweight. *Pediatrics*, 43(6), 942-955.
- Bujold, M., Hong, Q. N., Ridde, V., Bourque, C. J., Dogba, M. J., Vedel, I. et Pluye, P. (2018). *Oser les défis des méthodes mixtes en sciences sociales et sciences de la santé*. Montréal: ACFAS.
- Chevallier, M., Debillon, T., Pierrat, V., Delorme, P., Kayem, G., Durox, M., . . . Ancel, P. Y. (2017). Leading causes of preterm delivery as risk factors for intraventricular hemorrhage in very preterm infants: results of the EPIPAGE 2 cohort study. *American Journal of Obstetrics and Gynecology*, 216(5), 518 e511-518 e512. doi: 10.1016/j.ajog.2017.01.002

- Creswell, J. (2003). *Research design: Qualitative, quantitative, and mixed method approaches*. Thousand Oaks, CA: Sage Publications.
- Dahan, S., Bourque, C. J., Reichherzer, M., Ahmed, M., Josee, P., Mantha, G., . . . Janvier, A. (2019). Beyond a Seat at the Table: The Added Value of Family Stakeholders to Improve Care, Research, and Education in Neonatology. *Journal of Pediatrics*, *207*, 123-129 e122. doi: 10.1016/j.jpeds.2018.11.051
- Doyle, L. W., Anderson, P. J., Battin, M., Bowen, J. R., Brown, N., Callanan, C., . . . Woodward, L. J. (2014). Long term follow up of high risk children: who, why and how? *BMC Pediatrics*, *14*, 279. doi: 10.1186/1471-2431-14-279
- Fanaroff, A. A., Hack, M. et Walsh, M. C. (2003). The NICHD neonatal research network: changes in practice and outcomes during the first 15 years. *Seminars in Perinatology*, *27*(4), 281-287.
- Ferrand, A., Gorgos, A., Ali, N. et Payot, A. (2018). Resilience Rather than Medical Factors: How Parents Predict Quality of Life of Their Sick Newborn. *Journal of Pediatrics*, *200*, 64-70 e65. doi: 10.1016/j.jpeds.2018.05.025
- Fierro, J. L., Passarella, M. et Lorch, S. A. (2019). Prematurity as an Independent Risk Factor for the Development of Pulmonary Disease. *Journal of Pediatrics*. doi: 10.1016/j.jpeds.2019.05.066
- Green, S. E. (2007). “We’re tired, not sad”: Benefits and burdens of mothering a child with a disability. *Social Science and Medicine*, *64*(1), 150-163.
- Grewar, D. A., Medovy, H. et Wylie, K. O. (1962). The fate of the expremature--prognosis of prematurity. *Canadian Medical Association Journal*, *86*(22), 1008-1013.
- Griswold, K. J. et Fanaroff, J. M. (2010). An evidence-based overview of prenatal consultation with a focus on infants born at the limits of viability. *Pediatrics*, *125*(4), e931-e937. doi: 10.1542/peds.2009-1473
- Haward, M. F., Gaucher, N., Payot, A., Robson, K. et Janvier, A. (2017). Personalized Decision Making: Practical Recommendations for Antenatal Counseling for Fragile Neonates. *Clinics in Perinatology*, *44*(2), 429-445. doi: 10.1016/j.clp.2017.01.006
- Hsieh, H. F. et Shannon, S. E. (2005). Three approaches to qualitative content analysis. *Qualitative Health Research*, *15*(9), 1277-1288. doi: 10.1177/1049732305276687

- Janvier, A., Lantos, J., Aschner, J., Barrington, K., Batton, B., Batton, D., . . . Spitzer, A. R. (2016). Stronger and more vulnerable: A balanced view of the impacts of the NICU experience on parents. *Pediatrics*, *138*(3). doi: 10.1542/peds.2016-0655
- Jaworski, M., Janvier, A., Lefebvre, F. et Luu, T. M. (2018). Parental Perspectives Regarding Outcomes of Very Preterm Infants: Toward a Balanced Approach. *Journal of Pediatrics*, *200*, 58-63 e51. doi: 10.1016/j.jpeds.2018.03.006
- Kaempf, J. W., Tomlinson, M. W. et Tuohey, J. (2016). Extremely premature birth and the choice of neonatal intensive care versus palliative comfort care: an 18-year single-center experience. *Journal of Perinatology*, *36*(3), 190-195. doi: 10.1038/jp.2015.171
- Lau, R., Crump, R. T., Brousseau, D. C., Panepinto, J. A., Nicholson, M., Engel, J. et Lagatta, J. (2019). Parent Preferences Regarding Home Oxygen Use for Infants with Bronchopulmonary Dysplasia. *Journal of Pediatrics*. doi: 10.1016/j.jpeds.2019.05.069
- Lemyre, B., Daboval, T., Dunn, S., Kekewich, M., Jones, G., Wang, D., . . . Moore, G. P. (2016). Shared decision making for infants born at the threshold of viability: a prognosis-based guideline. *Journal of Perinatology*, *36*, 503.
- Li, X. Y., Lee, S., Yu, H. F., Ye, X. Y., Warre, R., Liu, X. H. et Liu, J. H. (2017). Breaking down barriers: enabling care-by-parent in neonatal intensive care units in China. *World Journal of Pediatrics*, *13*(2), 144-151. doi: 10.1007/s12519-016-0072-4
- Malaeb, S. N. et Stonestreet, B. S. (2014). Steroids and injury to the developing brain: net harm or net benefit? *Clinics in Perinatology*, *41*(1), 191-208. doi: 10.1016/j.clp.2013.09.006
- Mann, K., Gordon, J. et MacLeod, A. (2009). Reflection and reflective practice in health professions education: a systematic review. *Adv Health Sci Educ Theory Pract*, *14*(4), 595-621. doi: 10.1007/s10459-007-9090-2
- Mehran, R., Baber, U. et Dangas, G. (2018). Guidelines for Patient-Reported Outcomes in Clinical Trial Protocols. *JAMA*, *319*(5), 450-451. doi: 10.1001/jama.2017.21541
- Ménard, L. et Ratnapalan, S. (2013). Réflexion en médecine: Modèles et application. *Canadian Family Physician*, *59*(1), e57-e59.
- Novak, I., Morgan, C., Adde, L., Blackman, J., Boyd, R. N., Brunstrom-Hernandez, J., . . . Badawi, N. (2017). Early, Accurate Diagnosis and Early Intervention in Cerebral Palsy: Advances in Diagnosis and Treatment Early, Accurate Diagnosis and Early Intervention

- in Cerebral Palsy Early, Accurate Diagnosis and Early Intervention in Cerebral Palsy. *JAMA Pediatrics*, 171(9), 897-907. doi: 10.1001/jamapediatrics.2017.1689
- Pahsini, K., Marinschek, S., Khan, Z., Urlesberger, B., Scheer, P. J. et Dunitz-Scheer, M. (2018). Tube dependency as a result of prematurity. *Journal of Neonatal-Perinatal Medicine*, 11(3), 311-316. doi: 10.3233/npm-1799
- Patel, N., Ballantyne, A., Bowker, G., Weightman, J. et Weightman, S. (2018). Family Integrated Care: changing the culture in the neonatal unit. *Archives of Disease in Childhood*, 103(5), 415-419. doi: 10.1136/archdischild-2017-313282
- Rescorla, L. A. (1989). The Language Development Survey: a screening tool for delayed language in toddlers. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, 54(4), 587-599.
- Rogers, E. E. et Hintz, S. R. (2016). Early neurodevelopmental outcomes of extremely preterm infants. *Seminars in Perinatology*, 40(8), 497-509. doi: 10.1053/j.semperi.2016.09.002
- Rosenbaum, P. L., Palisano, R. J., Bartlett, D. J., Galuppi, B. E. et Russell, D. J. (2008). Development of the Gross Motor Function Classification System for cerebral palsy. *Developmental Medicine and Child Neurology*, 50(4), 249-253. doi: 10.1111/j.1469-8749.2008.02045.x
- Ryan, M., Lacaze-Masmonteil, T. et Mohammad, K. (2019). Neuroprotection from acute brain injury in preterm infants. *Paediatrics & Child Health*, 24(4), 276-290. doi: 10.1093/pch/pxz056
- Saigal, S., Rosenbaum, P. L., Feeny, D., Burrows, E., Furlong, W., Stoskopf, B. L. et Hoult, L. (2000). Parental perspectives of the health status and health-related quality of life of teen-aged children who were extremely low birth weight and term controls. *Pediatrics*, 105(3 Pt 1), 569-574.
- Sauve, R. et Lee, S. K. (2006). Neonatal follow-up programs and follow-up studies: Historical and current perspectives. *Paediatrics & Child Health*, 11(5), 267-270.
- Scharf, R. J., Scharf, G. J. et Stroustrup, A. (2016). Developmental Milestones. *Pediatrics in Review*, 37(1), 25-38. doi: 10.1542/pir.2014-0103
- Shah, P., Yoon, E., W. et Chan, P. (2017). The Canadian Neonatal Network Annual Report. Repéré à <http://www.canadianneonatalnetwork.org>
- Shah, P. S., McDonald, S. D., Barrett, J., Synnes, A., Robson, K., Foster, J., . . . Pechlivanoglou, P. (2018). The Canadian Preterm Birth Network: a study protocol for improving

- outcomes for preterm infants and their families. *CMAJ Open*, 6(1), E44-E49. doi: 10.9778/cmajo.20170128
- Sheets, K. B., Best, R. G., Brasington, C. K. et Will, M. C. (2011). Balanced information about Down syndrome: what is essential? *American Journal of Medical Genetics. Part A*, 155A(6), 1246-1257. doi: 10.1002/ajmg.a.34018
- Shepherd, E., Salam, R. A., Middleton, P., Han, S., Makrides, M., McIntyre, S., . . . Crowther, C. A. (2018). Neonatal interventions for preventing cerebral palsy: an overview of Cochrane Systematic Reviews. *Cochrane Database Syst Rev*, 6(6), CD012409. doi: 10.1002/14651858.CD012409.pub2
- Shevell, M. I., Dagenais, L., Hall, N. et The Repacq, C. (2009). The relationship of cerebral palsy subtype and functional motor impairment: a population-based study. *Developmental Medicine and Child Neurology*, 51(11), 872-877. doi: 10.1111/j.1469-8749.2009.03269.x
- Synnes, A., Luu, T. M., Moddemann, D., Church, P., Lee, D., Vincer, M., . . . Lee, S. K. (2016). Determinants of developmental outcomes in a very preterm Canadian cohort. *Archives of Disease in Childhood: Fetal and Neonatal Edition*. doi: 10.1136/archdischild-2016-311228
- Synnes, A., Luu, T. M., Moddemann, D., Church, P., Lee, D., Vincer, M., . . . Lee, S. K. (2017). Determinants of developmental outcomes in a very preterm Canadian cohort. *Archives of Disease in Childhood: Fetal and Neonatal Edition*, 102(3), F235-F234. doi: 10.1136/archdischild-2016-311228
- Thakkar, H. S. et Lakhoo, K. (2016). The surgical management of necrotising enterocolitis (NEC). *Early Human Development*, 97, 25-28. doi: 10.1016/j.earlhumdev.2016.03.002
- Thompson, T. L. (2009). The Applicability of Narrative Ethics. *Journal of Applied Communication Research*, 37(2), 188-195. doi: 10.1080/00909880902792305
- Vohr, B. R. (2014). Neurodevelopmental outcomes of extremely preterm infants. *Clinics in Perinatology*, 41(1), 241-255. doi: 10.1016/j.clp.2013.09.003
- Warre, R., O'Brien, K. et Lee, S. K. (2014). Parents as the Primary Caregivers for Their Infant in the NICU: Benefits and Challenges. *NeoReviews*, 15(11), e472-e477. doi: 10.1542/neo.15-11-e472

- Williams, R. et Clinton, J. (2011). Getting it right at 18 months: In support of an enhanced well-baby visit. *Paediatrics & Child Health*, 16(10), 647-654.
- Wolf, H. T., Hegaard, H. K., Greisen, G., Huusom, L. et Hedegaard, M. (2012). Treatment with magnesium sulphate in pre-term birth: a systematic review and meta-analysis of observational studies. *Journal of Obstetrics and Gynaecology*, 32(2), 135-140. doi: 10.3109/01443615.2011.638999
- Yoon, P. J., Price, M., Gallagher, K., Fleisher, B. E. et Messner, A. H. (2003). The need for long-term audiologic follow-up of neonatal intensive care unit (NICU) graduates. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, 67(4), 353-357.