

Université de Montréal

**Les nouveau-nés :
des personnes pas comme les autres**

par Amélie Du Pont-Thibodeau

Département des sciences biomédicales

Faculté de médecine

Thèse présentée
en vue de l'obtention du grade de PhD
en sciences biomédicales

Septembre 2016

© Amélie Du Pont-Thibodeau, 2016

Résumé

Les nouveau-nés ne sont pas des patients comme les autres. Contrairement aux patients plus âgés, il existe pour les nouveau-nés des recommandations qui guident leur prise en charge ou leur non-prise en charge dès la naissance en fonction de critères spécifiques, notamment l'âge gestationnel. Or l'âge gestationnel est imprécis, et demeure un mauvais prédicteur de la survie ou du pronostic des nouveau-nés. De tels critères ne sont pas utilisés pour les patients plus âgés. En plus d'être réanimés différemment, les nouveau-nés décèdent aussi autrement. Contrairement aux patients plus âgés qui décèdent majoritairement en recevant des soins actifs à visée curative, de nombreux nouveau-nés décèdent suite à une décision de réorientation de soins, et souvent ceux-ci meurent malgré une relative stabilité physiologique, en raison d'inquiétudes se rapportant à leur qualité de vie future. Lorsqu'interrogés, malgré le fait qu'une majorité d'intervenants en santé croient que la réanimation d'un nouveau-né fragile ou à risque à la naissance est dans son meilleur intérêt, une majorité presque équivalente d'intervenants seraient prêts à redéfinir ce meilleur intérêt en fonction de la famille et à malgré tout à lui offrir des soins de confort. Ceci n'est pas le cas avec les patients plus âgés. Cette dévalorisation est expliquée par le fait que les nouveau-nés sont perçus comme moralement différents des patients plus âgés. Les raisons de ce statut moral particulier sont multiples, mais incluent notamment le contexte historique et socioculturel, l'absence de relations sociales préexistantes, un attachement perçu comme étant moindre, et l'influence de biais, de valeurs et d'expériences personnelles et professionnelles défavorables aux nouveau-nés. Nous croyons que cette différence de statut moral doit être identifiée et reconnue, et doit alimenter certaines

réflexions professionnelles et sociales, notamment par rapport à sa désirabilité et aux conséquences qui en découlent.

Mots-clés : Néonatalogie, prématurité, soins palliatifs, statut moral, décès, éthique clinique, dévalorisation, meilleur intérêt.

Abstract

Neonates are different. Contrary to older patients, professional guidelines specifically addressing the resuscitation or the non-resuscitation of neonates have been established and are being used by healthcare institutions worldwide. These guidelines are mostly built around gestational age criteria. Unfortunately, gestational age is imprecise and is not a good predictor of survival or long-term prognosis. This may not be the typical perspective when dealing with older patients. Not only are neonates resuscitated differently, their modes of death are also not the same. Unlike older patients who mostly die while receiving acute care, many neonates die following a decision to withdraw or withhold care, and the majority of these die in a condition of relative physiologic stability because of concerns for their future quality of life. When investigated or surveyed, even though a majority of health care providers believe resuscitating a fragile neonate is in the baby's best interest, a similar majority is also willing to redefine this best interest according to family wishes and to accept comfort care. This is not the case with older patients. This devaluation is explained by the fact that neonates are perceived as being morally different. The reasons explaining this difference in moral status are many but include the historical and socio-cultural context, the absence of long standing pre-existing social relationships, an attachment to neonates that is perceived as being inferior, and the influence of professional and personal biases, values, and experiences that are unfavorable to neonates. We believe this difference in conferred moral status needs to be recognized and acknowledged, and should further professional and social reflections about its desirability and consequences.

Keywords: Neonatology, prematurity, palliative care, moral status, death, clinical ethics, devaluation, best interest.

Table des matières

RÉSUMÉ	I
ABSTRACT.....	IV
TABLE DES MATIÈRES	VI
LISTE DES TABLEAUX	VIII
LISTE DES ABRÉVIATIONS.....	IX
AVANT-PROPOS	XI
REMERCIEMENTS	12
CHAPITRE 1 - INTRODUCTION	13
1.1 ÉMERGENCE D'UNE IDÉE ET NAISSANCE D'UNE THÈSE	13
1.2 STRUCTURE DE LA THÈSE.....	15
CHAPITRE 2 – LA NÉONATOLOGIE.....	17
2.1 HISTOIRE DE LA NÉONATOLOGIE.....	17
2.2 QU'EST-CE QU'UNE UNITÉ NÉONATALE ?	21
CHAPITRE 3 – MÉTHODOLOGIE.....	24
CHAPITRE 4 – LES NOUVEAU-NÉS SONT TRAITÉS DIFFÉREMMENT	28
4.1 LE « QUESTIONNAIRE JANVIER ».....	28
4.2 LES RECOMMANDATIONS POUR LA PRISE EN CHARGE DES NOUVEAU-NÉS	31
CHAPITRE 5 – COMMENT MEURENT LES NOUVEAU-NÉS ?	37
5.1 LES UNITÉS DE SOINS INTENSIFS ET LES PRISES DE DÉCISION.....	37
5.2 COMMENT MEURENT LES NOUVEAU-NÉS AUJOURD'HUI ?.....	40
5.2.1 <i>Les décès en dehors de l'unité néonatale</i>	41
5.2.2 <i>Les décès à l'unité néonatale</i>	55
5.3 COMMENT MEURENT LES ENFANTS PLUS ÂGÉS ?	68
5.4 QUELLES CONCLUSIONS TIRER DE CES PROJETS DE RECHERCHE ?	69
CHAPITRE 6. LE STATUT PARTICULIER DU NOUVEAU-NÉ	73
6.1 LES NOUVEAU-NÉS DANS L'HISTOIRE.....	73

6.2 LE STATUT MORAL DU NOUVEAU-NÉ	79
6.2.1 <i>La définition du statut moral</i>	79
6.2.2 <i>Particularités associées à la définition du statut moral du nouveau-né</i>	82
6.3 POURQUOI TRAITE-T-ON LE NOUVEAU-NÉ DE MANIÈRE DIFFÉRENTE?	100
CHAPITRE 7 – CONCLUSION	119
7.1 COMMENTAIRE – NOUVEAU-NES ET INDIVIDUALISATION DES SOINS	123
BIBLIOGRAPHIE.....	I
ANNEXE 1 – QUESTIONNAIRE ÉCRIT	I
ANNEXE 2 – QUESTIONNAIRE OUVERT	VIII

Liste des tableaux

Classification des modes de décès	53
Anomalies congénitales	54
Caractéristiques démographiques des deux cohortes.....	66
Moment du décès	66
Classification des décès selon le processus décisionnel et la stabilité physiologique	67
Réanimation des nouveau-nés vs soins de confort	116
Tableau des thèmes invoqués pour la dévalorisation.....	118
Facteurs influençant la survie	140
Facteurs influençant le pronostic	140
Considérations éthiques	142

Liste des abréviations

ECMO : circulation par membrane extracorporelle

SPSS: Statistical package for the social sciences

AAP: American Academy of Paediatrics

SCCM: Society for Critical Care Medicine

SCP : Société Canadienne de Pédiatrie

AHA : American Heart Association

CCS: Canadian Critical Care Society

NRP: Neonatal Resuscitation Program

À maman et papa, sans qui rien n'aurait été possible

Avant-propos

En 1950, Danièle Thibodeau est née à l'hôpital Notre-Dame, à Montréal. Elle est née suite à une grossesse sans complications, à terme. À sa naissance, un méningomyélocèle a été découvert de même qu'une scoliose sévère. Devant ces deux malformations importantes, et conséquemment face à un risque de mortalité élevé et de morbidité sévère, Danièle fut transportée hors de la chambre de sa mère, celle-ci ayant été informée de ne pas voir ou tenir son enfant afin d'amorcer et favoriser le processus de deuil. L'histoire aurait pu se terminer ainsi, mais heureusement, ce ne fut pas le cas. Sa mère a refusé de suivre l'avis médical, et a non seulement exigé de voir sa fille mais a aussi insisté pour qu'on opère son myéломéningocèle et qu'on lui apprenne les soins de plaie afin qu'elle puisse les poursuivre à la maison. La chirurgie derrière elle, on a bien avisé la famille Thibodeau que bien qu'ayant survécu, Danièle était destinée à une vie de courte durée, remplie d'immobilisme, de déficience intellectuelle probable, et de peu de bonheur. Or tout le contraire s'est produit : elle a appris à marcher, a étudié à l'Université d'Oxford, est mère et grand-mère plus d'une fois, et de plus, à 65 années passées et malgré l'insuffisance respiratoire sévère secondaire à la scoliose qui l'afflige, Danièle continue de travailler et de voyager. Du bonheur, elle n'en a jamais manqué. Danièle Thibodeau, c'est ma mère.

Remerciements

Je n'ai jamais pensé avoir les capacités ou le désir de faire un PhD. Cette thèse, c'est l'idée folle d'Annie Janvier. Directrice, collègue et amie, je n'ai jamais rencontré quelqu'un d'aussi passionné, dévoué à ses patients, et généreux. Je lui dois ma carrière, mon poste universitaire, et l'inspiration qui quotidiennement me pousse à me dépasser pour mes patients. Elle incarne pour moi la définition même du meilleur intérêt des patients. Annie, merci.

J'aimerais aussi remercier Antoine Payot, fidèle mentor, collaborateur et complice. Merci d'avoir enduré mes milliers de questions, mes doutes et mes angoisses. Ta vision de l'éthique clinique est révolutionnaire. C'est un privilège de la faire évoluer à tes côtés.

J'aimerais remercier tout spécialement mes patients et leurs familles, qui alimentent ces réflexions et cette quête de sens. Vous côtoyer et vous accompagner dans des moments de grande vulnérabilité, de bonheur et de peine, est un privilège.

Finalement, merci à Sébastien, Olivier, Charlotte et Juliette. Vous êtes pour moi ce qu'il y a de plus important, ma plus grande fierté, et une source de joie intarissable.

Chapitre 1 - Introduction

1.1 Émergence d'une idée et naissance d'une thèse

Rapidement durant mon cours de médecine, j'ai su que je voulais devenir pédiatre. Une fois admise en pédiatrie, la néonatalogie m'a tout de suite interpellée. Tout d'abord parce qu'elle était foncièrement aigüe, excitante, technique. Mais surtout parce qu'elle permettait de travailler avec une population fragile, les nouveau-nés, ainsi que leurs familles. Fait particulier, la néonatalogie est une des disciplines médicales les plus controversées. Adulée par certains, elle est perçue par d'autres comme une « industrie du déficit », une « usine d'handicapés », un lieu où l'acharnement thérapeutique est routinier, poussée par l'égo et la réussite personnelle de certains, au détriment du bien-être de ceux qu'elle est supposée aider. Pourtant, certains des mentors que j'ai rencontré en néonatalogie et qui ont allumé et fait grandir en moi le désir de devenir néonatalogiste, sont certains des médecins les plus humains et soucieux du bien-être de leurs patients que j'ai eu la chance de côtoyer. Comment expliquer une telle dichotomie ? N'aimant pas la controverse, et désireuse de faire une profession de laquelle je pourrais être fière, j'ai commencé, avant même mon inscription au PhD, à m'interroger et à interroger mon entourage sur les raisons de cette réaction forte qu'inspirent les nouveau-nés malades à la majorité des gens qui les côtoient de près ou de loin. Les raisons évoquées tant par mes proches que par les documentaires(1), films et reportages portant sur le sujet se rapportent fréquemment à la souffrance infligée à de si petits êtres pour une qualité de vie future perçue comme indésirable. La néonatalogie semble être pour certains synonyme

d'une condamnation à une vie de souffrance et de handicap. Pourtant, même si ce constat s'avérait être le bon, les procédures douloureuses et les risques de morbidité et/ou de mauvaise qualité de vie future ne sont pas propres à la néonatalogie. Ils sont présents dans toutes les autres unités de soins intensifs, et à des degrés divers en oncologie, en chirurgie, en obstétrique, pour n'en citer que quelques uns. On m'a souvent répondu qu'au moins dans ces services, « ça vaut la peine », que « le jeu en vaut la chandelle ». Mais pourquoi une réaction si différente ? Qu'est-ce qui rend la néonatalogie si spéciale ? Est-ce en raison de la maladie qui est traitée en néonatalogie, soit principalement la prématurité, ou est-ce en raison de ceux que la néonatalogie est censée aider, les nouveau-nés eux-mêmes ? Est-ce que les réactions sont différentes en raison de leur âge, de leur apparence ? Et comment expliquer que pour moi, il n'y ait émotivement pas de différence entre sauver un nouveau-né et sauver un enfant ? Est-ce l'histoire de ma mère, qui au tout début de sa vie était un nouveau-né soumis à de nombreuses procédures douloureuses et exposé à un risque absolu d'handicap mais qui avait vécu une vie extraordinaire ? Était-ce mon biais ? Peut-être. Est-ce que j'avais tort ? C'est devenu pour moi à ce moment, une nécessité d'explorer davantage ces perspectives. Rapidement, mon intuition s'est précisée par rapport à la cause de la mauvaise réputation de la néonatalogie. Cette intuition était que cette différence de perception est due aux nouveau-nés eux-mêmes, pas seulement à « l'acharnement », à l'égo ou au risque de handicaps. Les nouveau-nés semblent être perçus différemment. Pourquoi ?

1.2 Structure de la thèse

Cette thèse a été développée afin de répondre à certaines de ces questions et interrogations. L'hypothèse que cette thèse tente de démontrer est que les nouveau-nés ne sont pas traités de la même façon que les autres patients plus âgés et que ceci est en raison du fait que les nouveau-nés ne sont pas considérés comme étant moralement équivalents. Afin de ce faire, cette thèse repose sur trois projets de recherche. Le cadre conceptuel dans lequel le projet a été réfléchi est celui des décisions de fin de vie des nouveau-nés étant donné la complexité de ces décisions et leur prévalence. Elles sont prises quotidiennement dans les unités néonatales, généralement après des discussions auxquelles participent les familles mais aussi plusieurs intervenants de l'équipe médicale, dont les médecins traitants, les médecins consultants et les infirmières. Mais surtout, ces décisions ne font pas seulement appel à des faits objectifs, mais aussi aux valeurs et principes des individus impliqués.

Ainsi, afin de mieux cerner le contexte des soins de fin de vie chez les nouveau-nés, nous avons décidé de revoir l'ensemble des décès en néonatalogie afin de mieux caractériser le mode de décès, ainsi que le processus décisionnel ayant mené au décès. En effet, beaucoup de littérature existe sur les nouveau-nés qui survivent en néonatalogie mais peu sur ceux qui y décèdent. Ce sujet de recherche semble toutefois avoir récemment gagné en popularité. Pour ce faire, deux projets de recherche ont été élaborés. Le premier a été créé afin de caractériser les modes de décès et le moment du décès des nouveau-nés admis en néonatalogie. Un deuxième a été réalisé afin de mieux caractériser les circonstances entourant les décès des nouveau-nés qui ne sont jamais admis en néonatalogie et pour qui nous ne connaissons que

très peu de choses. Une fois cette revue des décès complétée, ayant mieux détaillé les caractéristiques des nouveau-nés décédés et leur mode de décès, nous avons interrogé des personnes qui travaillent dans l'unité néonatale afin d'analyser le processus décisionnel relié aux décisions de réanimation ou de soins de confort pour les nouveau-nés et pour les patients plus vieux.

Chapitre 2 – La néonatalogie

2.1 Histoire de la néonatalogie

La néonatalogie est une spécialité médicale relativement récente. Le terme « néonatalogie » a d'ailleurs commencé à être utilisé qu'à partir d'environ 1960. Bien ancrée dans l'organisation hospitalière de nos jours, ceci n'a pas toujours été le cas. Pour la plus grande partie du 19^{ème} siècle, la néonatalogie et les soins néonataux structurés étaient inexistantes. De nos jours, elle est considérée comme une spécialité pédiatrique, bien que les nouveau-nés aient surtout intéressé initialement les médecins « adultes », dont les obstétriciens. Vers le 18^{ème} siècle, certains écrits portant spécifiquement sur les soins aux nouveau-nés ont été publiés. En 1748, William Cadogan, auteur et médecin britannique, a publié un des premiers traités sur les soins à prodiguer aux enfants(2). Dans son traité, Cadogan a notamment suggéré de cesser d'attacher les mains et les pieds des nouveau-nés à la naissance, et de ne plus les emmailloter de façon très serrée. Il a aussi recommandé de ne plus tenter de faire évacuer tout le méconium des nouveau-nés en leur donnant des produits tels que du miel, du beurre et du sirop de rose. Il a plutôt recommandé de s'en tenir au lait maternel comme source d'alimentation et d'attendre quelques mois avant d'introduire l'alimentation solide. En 1857, le premier incubateur a été utilisé afin de soigner un nouveau-né prématuré par Dr Jean Louis Paul Denucé, un chirurgien. Il s'agissait d'une baignoire de zinc à double paroi dont l'espace entre les deux parois était rempli d'eau chaude. Ceci fut la première découverte significative pour les nouveau-nés. Plusieurs autres découvertes ont eu lieu au 19^{ème} siècle malgré le peu d'intérêt porté aux

nouveau-nés par les pédiatres. Parmi les découvertes répertoriées, on retrouve le nitrate d'argent qui a été utilisé pour la première fois pour traiter l'ophtalmie néonatale. Toujours au 19^{ème} siècle, la paralysie cérébrale a été identifiée et étudiée et certaines de ses causes ont été identifiées. Les pathologies maternelles et leurs répercussions sur les fœtus ont d'ailleurs commencé à susciter l'intérêt de la communauté médicale (3, 4). Un changement majeur qui a commencé à s'opérer au 19^{ème} siècle est la migration des accouchements vers les hôpitaux. Jusque là, les accouchements se déroulaient surtout à domicile. Ceci a parallèlement mené au développement des pouponnières. Ces changements amorcés au 19^{ème} siècle ont continué à évoluer et à s'intensifier avec le temps. Au cours du 20^{ème} siècle, les pédiatres, qui ont commencé à s'intéresser davantage aux nouveau-nés, ont contribué à faire baisser la mortalité infantile en améliorant certaines techniques fondamentales telles que l'alimentation artificielle et les mesures de prévention des infections. En 1922, la première unité néonatale américaine a été créée à l'hôpital Sarah Morris de Chicago(4). Toujours au 20^{ème} siècle, plusieurs découvertes ont eu lieu en lien avec les soins néonataux. Par exemple, le mécanisme physiopathologique expliquant la maladie hémolytique du nouveau-né a été identifié, tout comme certaines de ses modalités thérapeutiques. La transfusion d'échange pour prévenir le kernictère a d'ailleurs été utilisée pour la première fois à cette époque. L'importance de la thermorégulation pour la survie des nouveau-nés a été mise en évidence notamment par une abondance de travaux sur le maintien de celle-ci. L'oxygène a été utilisé à grande échelle et certains des risques secondaires à son utilisation ont été identifiés (3, 4). L'alimentation parentérale a été développée en 1968, suivi de peu de la création des premiers ventilateurs néonataux et de l'utilisation des corticostéroïdes anténataux. Chacune de ses grandes découvertes a permis la survie de nouveau-nés toujours plus jeunes et plus petits.

Puis, en 1963 est décédé Patrick Bouvier Kennedy. Fils du président américain John Fitzgerald Kennedy et de Jacqueline Bouvier Onassis, il est né à 34 semaines de gestation et a été transféré puis traité dans un des hôpitaux les plus prestigieux des États-Unis, soit le Boston Children's Hospital. Malgré tous les soins reçus, incluant une chambre d'oxygène hyperbare, il est décédé après 39 heures de vie d'une maladie des membranes hyalines. En 2016, à 34 semaines, on ne meurt plus de cette maladie : elle est devenue presque banale. C'est possiblement en partie grâce à la famille Kennedy. Le décès de Patrick Bouvier Kennedy a grandement changé la place et la perception de la néonatalogie dans la médecine occidentale. Suite à son décès, les pathologies respiratoires néonatales, grande cause de décès encore aujourd'hui, sont devenues plus connues du grand public et ont fait l'objet d'investissements massifs en recherche, notamment grâce à l'influence de l'establishment politique américain(2). Suite au décès de Patrick Bouvier Kennedy en 1963, le développement de la néonatalogie s'est accéléré.

Malgré les bons coups et les grandes découvertes, plusieurs initiatives se sont avérées délétères voir mortelles pour les nouveau-nés. Un des exemples le plus cité est celui de l'utilisation de l'oxygène. Durant les années 1940, l'oxygène était utilisé comme traitement de première intention chez les prématurés. Les médecins croyaient que plus les nouveau-nés recevaient d'oxygène, mieux était leur développement et leur survie. Mais trop d'oxygène est toxique pour la rétine. Ceci a résulté en la cécité de milliers de nouveau-nés. Par la suite, l'utilisation de l'oxygène a été réduite de beaucoup et a mené à une augmentation de la paralysie cérébrale et des décès. Encore aujourd'hui, il n'est pas démontré hors de doute quel

seuil de saturation en oxygène est le plus sécuritaire pour les nouveau-nés (5). Un exemple de traitement tenté et maintenant abandonné est celui de la traction sternale, procédure durant laquelle un fil était fixé au thorax des nouveau-nés et attaché à une base solide dans le but d'améliorer leur stabilité thoracique(2). Afin de pallier à l'incapacité des nouveau-nés de se nourrir spontanément, la restriction alimentaire a été tentée avec des conséquences désastreuses, tout comme l'utilisation de formules artificielles toxiques. Les corticostéroïdes postnataux ont à une époque été utilisés en grandes quantités, résultant en la survie de plusieurs nouveau-nés mais avec des conséquences majeures négatives sur leur devenir neurodéveloppemental(6). Bien que non limités à la néonatalogie, ces échecs aux conséquences catastrophiques associées à des innovations sans recherche ont contribué à alimenter la méfiance du public envers la spécialité, mais ont aussi permis de sensibiliser les scientifiques et les éthiciens à l'urgence de faire des études rigoureuses chez ces populations vulnérables.

La néonatalogie elle-même semble avoir un statut moral particulier. Étant une discipline récente, elle n'a pas toujours eu une place telle que celle qu'elle occupe aujourd'hui. Tel que mentionné précédemment, à ses débuts, elle a surtout suscité l'intérêt des obstétriciens et non des pédiatres. Un obstétricien, Étienne Stéphane Tarnier, inspiré par les couveuses pour poussins, fut le premier à utiliser un incubateur dans un hôpital (7). C'est aussi lui qui a décrit la technique d'alimentation par gavage des nouveau-nés prématurés, technique encore utilisée aujourd'hui. Les pouponnières elles-mêmes se retrouvent parmi les unités de patients adultes, séparées de la portion pédiatrique de l'hôpital. Ainsi, les nouveau-nés à une certaine époque ne faisaient pas vraiment partie de la médecine, mais la néonatalogie non plus. Il est d'ailleurs

difficile de passer sous silence les travaux de Dr Couney. Ce médecin français, étudiant de Dr Tarnier, a aussi étudié sous la supervision du Dr Budin, un des pionniers de la discipline qui a notamment établi l'importance de l'alimentation, de la thermorégulation, et a mis en place certains des premiers concepts de prévention des infections. C'est Dr Budin qui lui a demandé d'aller exposer un incubateur inspiré des incubateurs de Dr Tarnier à l'exposition mondiale de Berlin en 1896. Dr Couney a eu l'idée de placer des nouveau-nés prématurés dans ces incubateurs. Ce dernier a même obtenu l'appui de l'impératrice Augusta Victoria en Allemagne, notamment car les prématurés n'avaient à l'époque que très peu de chances de survivre(8). Par la suite, ces expositions de nouveau-nés prématurés se sont multipliées. Bien que bizarres et d'un goût discutable, ces expositions ont néanmoins permis de sauver des dizaines de nouveau-nés. En effet, grâce aux fonds amassés par le biais de ces expositions, des soins avant-gardistes pour l'époque ont pu être administrés. Ces expositions de bébés n'étaient pas dans la section scientifique de ces expositions mais bien dans la section divertissement. On peut donc s'imaginer que la néonatalogie ne faisait pas réellement partie de la médecine, du moins à cette époque.

2.2 Qu'est-ce qu'une unité néonatale ?

Les unités néonatales sont des unités de soins intensifs dans lesquelles sont traités les nouveau-nés malades. Les maladies qui les affligent sont multiples. Certains sont des nouveau-nés à terme, qui naissent en ayant besoin d'aide ou de réanimation en raison de conditions aiguës et souvent imprévisibles, comme les infections, les aspirations méconiales,

et les anoxo-ischémies cérébrales. Une autre catégorie de nouveau-nés soignés à l'unité néonatale est celle des patients atteints de malformations. Ces malformations sont multiples et variées, et affectent l'ensemble des systèmes du corps. Par exemple, sont admis à l'unité néonatale les nouveau-nés souffrant de malformations cardiaques congénitales nécessitant une ou plusieurs chirurgies cardiaques, les nouveau-nés avec anomalies rénales, ceux avec une malformation intestinale, etc. Certains nouveau-nés sont atteints de plusieurs de ces malformations en même temps, parfois dans le cadre de syndromes génétiques. La troisième grande catégorie de nouveau-nés admis à l'unité néonatale consiste en les nouveau-nés prématurés.

La prématurité consiste en tout enfant naissant avant la 37^{ème} semaine de gestation. Lorsqu'un enfant naît prématurément, tous ses organes et ses systèmes sont formés, mais immatures. Plus l'âge gestationnel à la naissance est petit, plus grand est le degré d'immaturité. En raison de cette immaturité, plusieurs systèmes ont besoin d'être supportés médicalement à la naissance et pendant les semaines subséquentes. Le système respiratoire est le plus critique car son immaturité peut mettre la vie en danger. Ainsi, bon nombre de prématurés devront recevoir un support ventilatoire, invasif ou non. La thermorégulation est un autre défi, d'où l'utilisation d'incubateurs. L'alimentation est aussi très difficile chez les prématurés, tant en raison de leur incoordination oro-pharyngée que de leur fragilité intestinale, nécessitant ainsi l'utilisation de nutrition parentérale et de gavages. En plus, les prématurés sont plus à risque de développer des infections, des atteintes auditives, oculaire et cérébrales : ces aspects sont surveillés durant l'ensemble de l'hospitalisation. La durée de cette hospitalisation est variable en fonction du degré de prématurité et des complications en cours d'hospitalisation. Pour les prématurés, on

estime que l'hospitalisation dure environ jusqu'à la date prévue d'accouchement. Un nouveau-né né à 24 semaines peut ainsi demeurer hospitalisé plus de 16 semaines. Si le nouveau-né fragile survit, une fois son congé de l'hôpital reçu, il demeure suivi par une équipe spécialisée étant donné les hauts risques de séquelles neuro-développementales. Cette équipe est composée de pédiatres, d'infirmières spécialisées, de physiothérapeutes, d'ergothérapeutes, et d'orthophonistes, pour n'en nommer que quelques uns.

Chapitre 3 – Méthodologie

Les trois projets de recherche de ce PhD s'appuient sur différentes approches méthodologiques. En effet, les deux premiers projets se sont appuyés sur une méthodologie quantitative pure, alors que le troisième, soit celui portant sur les raisons de la dévalorisation des nouveau-nés s'est articulé autour d'une méthodologie mixte, soit qualitative et quantitative. Chacune des méthodologies est décrite formellement dans le cadre des articles en question.

1) Méthodologie quantitative

Les deux premiers projets de recherche sont des projets rétrospectifs qui ont tous deux été approuvés par le Comité d'éthique de la recherche de l'Hôpital Sainte-Justine. Ces projets reposent sur une revue de dossier. Chaque dossier a été revu et les éléments d'analyse ont été compilés à l'aide d'une banque de données établie et validée au préalable par l'équipe de chercheurs. Par la suite, les données recueillies ont été analysées à l'aide du logiciel SPSS (Statistical Package for the Social Sciences). Les p-values de moins de 0,05 ont été établis comme étant statistiquement significatifs.

2) Méthodologie mixte

Une méthodologie mixte a été utilisée pour le troisième projet de recherche. Plus spécifiquement, nous avons utilisé une méthodologie mixte séquentielle exploratoire(9). Dans

cette séquence, les résultats obtenus suite à un questionnaire sont expliqués par une recherche qualitative. C'est-à-dire qu'immédiatement après avoir répondu à un questionnaire, les participants ont participé à une entrevue semi-dirigée pendant laquelle ils devaient expliquer leurs réponses et en justifier certaines. Ainsi, la première partie du projet de recherche s'est faite par questionnaire. Le questionnaire était anonyme afin de permettre aux participants de répondre de la façon la plus libre possible. Avant chaque questionnaire, les participants étaient rassurés sur l'anonymat et la confidentialité des réponses, tout comme de l'absence de bonne réponse. Ils étaient encouragés à répondre librement sans crainte de jugement. Quelques questions démographiques tel que l'âge, le sexe, et le rôle dans l'unité étaient demandées à la fin du questionnaire écrit. Il n'y avait pas de limite de temps pour répondre au questionnaire. Le questionnaire écrit se trouve en annexe 1.

Les participants au projet ont été limités aux résidents de pédiatrie et aux infirmières de néonatalogie. Nous avons choisi d'identifier un groupe cible plutôt que d'envoyer le questionnaire de façon aléatoire. Les questionnaires aléatoires génèrent généralement un taux de participation moindre et s'exposent à certains biais, notamment le biais de réponse. En effet, ce biais intervient lorsque lors des questionnaires aléatoires qui sélectionnent potentiellement des gens avec des opinions fortes qui tiennent à les partager. La représentativité d'un tel échantillonnage peut alors être remise en question tout comme la validité externe des résultats(9). Avec un échantillonnage ciblé, la validité externe peut aussi être remise en question, mais du moins avec un taux de réponse élevé, la validité interne est assurée(10).

Les néonatalogistes et obstétriciens de notre institution ont été volontairement exclus car la portion questionnaire du projet de recherche leur avait déjà été administrée lors d'un projet précédent, et ils étaient très au courant des résultats de ce projet et des hypothèses de recherche du présent projet. Ainsi, par crainte de contamination, ils ont été consciemment exclus. Pour ce qui est des résidents, 85% de la cohorte a participé, et 60% des infirmières de néonatalogie travaillant à temps plein. Les infirmières ont été restreintes à celles travaillant à temps plein en raison de considérations pratiques. D'un côté, nous souhaitons un taux suffisamment élevé de participation afin de pouvoir tirer des conclusions du projet, de l'autre le nombre d'infirmières en néonatalogie toute catégorie confondue est très élevé. Nous avons donc volontairement restreint les possibilités en nous limitant aux infirmières travaillant à temps plein.

Suite au questionnaire, la deuxième portion du projet de recherche débutait, soit une portion composée de réponses ouvertes. Il se trouve en annexe 2. Une liste de questions avait préalablement été créée par les chercheurs. Certaines de ces questions s'appliquaient à l'ensemble des participants, et certaines des questions variaient en fonction des réponses aux questions écrites dans le questionnaire. Toutes les réponses ont été enregistrées puis retranscrites verbatim. Suite à la retranscription, les réponses ont été codées dans le logiciel Nvivo. La classification selon laquelle les réponses au questionnaire ont été codées a été préalablement développée par l'équipe des chercheurs. Chacune des réponses a été codée de façon indépendante par deux chercheurs. Par la suite, des kappas ont été calculés afin de

valider l'outil d'analyse et assurer une validité qualitative. Des kappas de 85% étaient visés. Lors de kappas insuffisants, les réponses étaient analysées et recodées par les deux chercheurs ensemble pour atteindre un consensus.

Chapitre 4 – Les nouveau-nés sont traités différemment

4.1 Le « questionnaire Janvier »

Afin de confirmer l'hypothèse selon laquelle les nouveau-nés sont défavorisés en raison de caractéristiques indépendantes de leur pronostic ou de leurs chances de survie, nous avons élaboré un projet de recherche visant à connaître comment les intervenants de la santé évaluent le meilleur intérêt des nouveau-nés et ce qui alimente leur processus décisionnel. Ce projet a été élaboré à partir d'un questionnaire développé par Dre Annie Janvier et validé dans plusieurs pays. Dre Janvier a publié un article révolutionnaire en 2008(11) portant sur le meilleur intérêt des nouveau-nés. Son hypothèse était que lorsque comparés à des patients plus âgés, les nouveau-nés seraient jugés par rapport à des standards différents. Dans le but de prouver cette hypothèse, huit scénarios ont été élaborés, chacun portant sur un patient inapte et nécessitant une réanimation. Les patients incluent un prématuré de 24 semaines, un nouveau-né à terme atteint d'une malformation artério-veineuse cérébrale, un bébé de deux mois atteint de méningite, un enfant de 7 ans atteint de paralysie cérébrale et de surdité appareillée victime d'un nouveau traumatisme crânien, un adolescent de 14 ans atteint de leucémie myéloïde aigüe avec atteinte nerveuse centrale, un patient de 35 ans atteint d'une tumeur cérébrale, un patient de 50 ans impliqué dans un accident de voiture, et un patient de 80 ans atteint de démence avec un nouvel accident vasculo-cérébral. Pour chacun de ces patients, aucune information psychosociale n'est donnée. Par contre, les chances de survie et le pronostic de chacun des patients sont détaillés. Quatre de ces patients ont 50% de chance de survie, avec 50% de chance

de survie intacte et 25% de risque de handicap sévère. Ces quatre patients comprennent les deux nouveau-nés, l'enfant de 2 mois et le patient de 50 ans impliqué dans un accident. Deux patients ont déjà un handicap existant, soit le patient de 7 ans et celui de 80 ans : les deux sont décrits comme ayant 50% de chance de survie et 50% de chances d'avoir un handicap supplémentaire. Deux patients n'ont que 5% de chance de survie : l'adolescent de 14 ans, qui est décrit comme ayant un risque de handicap de 20% s'il survit, et le patient de 35 ans, qui lui a un risque de handicap de 100% s'il survit. Suite à la lecture de ces huit scénarios, présentés un à la suite de l'autre, avec les statistiques explicites, les participants au projet de recherche ont dû répondre aux questions suivantes :

- 1) Est-ce que vous intuberiez ce patient et consulteriez les soins intensifs ?
- 2) Croyez-vous que la réanimation est dans le meilleur intérêt du patient ?
- 3) Si la famille vous demandait des soins de confort, est-ce que vous accepteriez ?
- 4) Si c'était vous ou votre famille, est-ce que vous voudriez être réanimé ?

Ce questionnaire a été distribué à l'ensemble des médecins impliqués en réanimation au centre hospitalier universitaire de McGill, ainsi qu'à des étudiants de droit, d'anthropologie, de médecine et de bioéthique de l'Université McGill. Les conclusions de ce projet sont fascinantes. Tout d'abord, la réanimation et l'intubation ont été jugées être dans le meilleur intérêt des patients dans l'ordre suivant : patient de 2 mois (97%), patient de 7 ans (94%), patient de 50 ans (87%), nouveau-né à terme avec la malformation artério-veineuse cérébrale (87%), les deux patients avec 5% de chances de survie (76 et 80%), le prématuré (69%), et le patient de 80 ans (32%)(11). Donc plus de participants ont jugé que la réanimation était dans le

meilleur intérêt de patients avec un moins bon pronostic que les nouveau-nés, surtout le prématuré. De plus, même si 69% ont jugé que la réanimation était dans le meilleur intérêt du prématuré, 54% étaient prêts à accepter des soins de confort à la demande de la famille. Ceci est contraire à ce qui est traditionnellement enseigné en médecine. Généralement, si la réanimation est jugée dans le meilleur intérêt d'un patient, surtout pour un mineur ou une personne inapte, celle-ci est débutée et les soins de confort ne sont pas administrés. Si au contraire la réanimation n'est pas jugée dans le meilleur intérêt d'un patient, alors les soins de confort sont administrés.

À la lumière de ces résultats, on aurait pu se demander si ceux-ci ne sont représentatifs que d'un groupe en particulier, le reflet d'un environnement ou d'une culture professionnelle unique. Mais ces résultats ont été reproduits dans tous les pays dans lesquels ce questionnaire a été distribué. En Irlande, le patient de 2 mois et celui de 7 ans sont ceux pour lesquels la réanimation a été jugée dans le meilleur intérêt(12). Aux États-Unis, une relation inversée a été démontrée entre l'évaluation du meilleur intérêt et l'acceptabilité des soins de confort, sauf pour les deux nouveau-nés(13). L'enfant de 7 ans était systématiquement réanimé bien qu'ayant un pronostic inférieur ou similaire aux autres patients(13). En Norvège, moins de participants ont jugé que la réanimation était dans le meilleur intérêt des nouveau-nés, et un nombre significativement plus élevé serait prêt à accepter des soins de confort pour les nouveau-nés malgré avoir jugé que la réanimation serait dans leur meilleur intérêt(14). Contrairement aux autres études similaires mentionnées, celle-ci a rajouté une question avec six suggestions d'éléments ayant potentiellement contribué au processus décisionnel des participants. Parmi ceux-ci, la qualité de vie était l'élément le plus fréquemment mentionné

comme justification. En Australie, 77% des participants ont estimé que les soins intensifs étaient dans le meilleur intérêt du nouveau-né prématuré mais 96% respecteraient les souhaits de la famille pour des soins de confort(15).

Ainsi, les résultats découverts lors de la toute première réalisation du questionnaire ont été reproduits à tous les endroits dans lesquels le questionnaire a été donné. Toutefois, mis-à-part une question supplémentaire ajoutée par le groupe de Norvège, aucun projet n'a demandé aux participants d'expliquer leurs choix, afin de comprendre comment ils évaluent réellement le meilleur intérêt des patients et secondairement la dévaluation systématique des nouveau-nés. C'est avec cet objectif que notre dernier projet a été développé.

4.2 Les recommandations pour la prise en charge des nouveau-nés

Le Neonatal Resuscitation Program (NRP), ouvrage de référence en réanimation néonatale d'envergure internationale, spécifie que les nouveau-nés devraient être traités de la même façon que les patients plus âgés(16). Or, étant donné la complexité de leurs soins et la rapidité parfois requise pour la prise de décision, plusieurs sociétés professionnelles ont établi des recommandations visant à guider les cliniciens faisant face à ces situations difficiles. Ces prises en charge sont variées et ont des répercussions bien réelles sur la pratique. Ces directives visent à établir les limites de la zone thérapeutique jugée bénéfique, celle jugée grise et celle jugée futile.

Le conseil de Nuffield, un organisme sans but lucratif britannique, s'est penché sur la question de la néonatalogie, plus spécifiquement sur les recommandations de prise en charge des nouveau-nés prématurés(17). Ce conseil suggère une prise en charge des nouveau-nés basée sur l'âge gestationnel uniquement. Il énonce que la prise en charge d'un nouveau-né de moins de 22 semaines est considérée expérimentale et futile. Pour les nouveau-nés de 22 à 23 semaines de gestation, la réanimation ne devrait pas être tentée. Entre la 23^{ème} et la 24^{ème} semaine de grossesse, la réanimation devrait être entreprise selon les souhaits des parents. Entre la 24^{ème} et la 25^{ème} semaine, la réanimation devrait être tentée sauf si les parents ne croient pas que ça soit dans le meilleur intérêt de l'enfant. Finalement, au-dessus de 25 semaines de gestation, les soins intensifs devraient être offerts à tout nouveau-né à moins d'une anomalie majeure. Ce conseil conclue que les décisions prises en faveur des nouveau-nés doivent l'être en considérant leur meilleur intérêt mais aussi en considérant les intérêts des gens qui les entourent.

La société canadienne de pédiatrie, société académique et scientifique regroupant l'ensemble des pédiatres canadiens, suggère que des soins palliatifs soient offerts à 22 semaines, mais que des soins individualisés soient offerts entre 23 et 25 semaines. Ce document de principe spécifie qu'entre 23 et 24 semaines, les soins intensifs sont appropriés pour certains enfants, alors qu'à 25 semaines les soins intensifs sont jugés appropriés pour la plupart des enfants(18). Cette même société a aussi publié un énoncé de principe selon lequel si un traitement est jugé dans le meilleur intérêt d'un enfant, les intérêts de sa famille sont importants mais la préoccupation principale des soignants doit demeurer le meilleur intérêt de chaque enfant(19). Une étude(20) publiée en 2015 a

comparé 31 documents de principe provenant de 20 pays portant sur la prise en charge des nouveau-nés prématurés. Tous ces documents recommandent des soins de confort à 22 semaines et des soins intensifs à 25 semaines. À 23 et 24 semaines, il existe plus de dissensus. Pour la prise en charge à 23 semaines, 29% suggèrent des soins de confort, 35% des soins individualisés, 13% des soins en fonction des souhaits des parents, et aucun recommande des soins actifs(20). À 24 semaines, 19% suggèrent une prise en charge selon les souhaits des parents, 29% des soins individualisés, et 32% des soins actifs(20). Ces prises en charge sont basées sur l'âge gestationnel, mais ne discriminent pas en fonction des pathologies qui s'ajoutent durant l'hospitalisation. Il n'existe pas de lignes directrices aussi précises pour la prise en charge ou la non-prise en charge d'autres pathologies congénitales, par exemple le retard de croissance ou les malformations cardiaques et digestives, ou pour la prise en charge de maladies secondaires à la prématurité telles l'entérocolite nécrosante et l'hémorragie intra-ventriculaire de haut grade. Toutes ces maladies sont elles aussi associées avec des répercussions importantes au niveau de la mortalité et de la morbidité à long terme de ceux qui en souffrent, notamment au niveau du neuro-développement.

Il existe peu de lignes de conduites similaires pour la prise en charge de patients adultes ou pédiatriques dont l'état requière une prise en charge aux soins intensifs. Nous avons revu l'ensemble des documents de principe émis par l'American Academy of Pediatrics (AAP), la Society for Critical Care Medicine (SCCM), la société canadienne de pédiatrie (SCP), la American Heart Association (AHA), et la Canadian Critical Care Society (CCS). Il n'existe pas de documents de principe semblable à celui adressant la prise en charge à la

naissance des nouveau-nés prématurés. Aucun document ne traite spécifiquement de la non-initiation des soins intensifs chez un patient ayant besoin de réanimation seulement sur la base d'un type de pathologie. Il n'existe pas non plus de lignes directrices spécifiant, au-delà des pathologies et des conditions médicales particulières plutôt fréquentes, les pourcentages de survie et les pronostics rendant une prise en charge souhaitable ou au contraire, inappropriée. Il existe par contre des recommandations par rapport à la non-initiation ou au retrait de certains traitements, par exemple la dialyse(21). Les documents de principe les plus semblables au type de document existant pour les nouveau-nés portent sur la réanimation de patients ayant fait un arrêt cardiaque en dehors de l'hôpital. Ces documents de principe stipulent que les manœuvres de réanimation doivent être entreprises dans tous les cas de patients adultes faisant un arrêt cardiaque en dehors de l'hôpital à moins que la situation dans laquelle la réanimation est effectuée ne mette en danger la vie de la personne aidante, si des signes de décès irréversible sont présents (rigor mortis, décapitation, transection ou décomposition du corps), ou si une directive avancée du patient renonçant à une réanimation existe (22). L'AAP accompagnée de plusieurs autres grandes sociétés savantes a elle aussi publié un énoncé de principe sur l'arrêt de la réanimation en cas d'arrêt cardiaque pédiatrique en dehors de l'hôpital. Ce groupe suggère une seule circonstance dans laquelle l'arrêt des manœuvres peut être envisagé, soit suite à des discussions avec la famille et les professionnels de la santé et si la réanimation est entreprise sans succès depuis plus de 30 minutes et que le patient se trouve au moins à 30 minutes du plus proche centre hospitalier(23). Une autre différence intéressante est à noter par rapport à la durée de la réanimation chez les nouveau-nés par rapport à la réanimation des patients plus âgés(24). Contrairement aux nouveau-nés chez qui la réanimation devrait

se terminer s'il n'y a pas de reprise de la fréquence cardiaque après 10 minutes, il n'existe pas de telle directive chez les enfants ou chez les adultes. Cette décision de terminer la réanimation sera variable selon les médecins impliqués et leurs lieux de pratique.

Étant donné la recommandation de réanimation de tous les patients faisant un arrêt cardiaque en dehors de l'hôpital et la recommandation de réanimation sélective de certains prématurés, on peut s'imaginer que les statistiques de survie de morbidité à long terme favorisent les patients plus âgés et défavorisent les nouveau-nés. Or, ce constat n'est pas supporté par la littérature. Un enfant faisant un arrêt cardiaque en dehors de l'hôpital a entre 2 et 9.6% de chances de survivre jusqu'à un congé de l'hôpital(25-27). Parmi ceux qui survivent, 24-31% auront un bon devenir neurologique(25-27). Ainsi, à long terme, la majorité semble présenter une atteinte significative(27-29). Quant à eux, les prématurés de 22 semaines présentent une survie entre 0 et 34% selon les centres hospitaliers(30-32), avec certains centres rapportant une survie de près de 61% chez les enfants avec une prise en charge active(33). Les centres présentant des taux de survie de 0% sont traditionnellement des centres qui ne réaniment pas les nouveau-nés de 22 semaines en raison de leur âge gestationnel ou par principe. Environ 12% des prématurés survivants de 22 semaines auront un devenir neurologique normal selon les cohortes les plus récentes mais environ 50% auront une atteinte neuro-développementale significative(34-36). Ainsi, un prématuré de 22 semaines présente un pronostic de survie et de développement minimalement similaire à celui d'un enfant faisant un arrêt cardiaque en dehors de l'hôpital. Pourtant, dans le cas du nouveau-né de 22 semaines, très peu d'équipes néonatales acquiesceraient à une demande parentale de réanimation ou recommanderaient

une prise en charge active à la naissance, alors que dans le cas de l'enfant faisant un arrêt cardiaque, toutes les équipes initieraient la réanimation à moins de circonstances exceptionnelles. La prise en charge est donc diamétralement opposée, bien que ceci ne soit pas justifié par les statistiques de survie et de morbidité à long terme, étant donné que celles-ci sont comparables.

Chapitre 5 – Comment meurent les nouveau-nés ?

5.1 Les unités de soins intensifs et les prises de décision

Les unités de soins intensifs sont des unités dans lesquelles certaines des questions les plus difficiles sont débattues, réfléchies et prises sur une base presque quotidienne, soit des décisions de vie ou de mort. Auparavant, les capacités de la médecine de maintenir les patients en vie étaient plus limitées. Peu de traitements efficaces existaient. Il n’y avait souvent pas réellement de décision à prendre : les gens survivaient ou mourraient, rapidement. La « nature » prenait son cours. La circulation extra-corporelle (ECMO), les respirateurs, les chirurgies cardiaques complexes et la dialyse n’existaient pas. Par exemple, l’ECMO sous ses formes précoces n’est apparue que vers 1953. Ainsi, avant 1950, la plupart des Canadiens mourraient à la maison, confrontés à une médecine qui au-delà des progrès réalisés en hygiène et en prévention des infections, n’avait que peu à offrir face à des pathologies sérieuses et jusque là incurables. Ce n’est plus le cas aujourd’hui. La médecine a beaucoup progressé, tout comme les moyens technologiques diagnostiques et thérapeutiques à notre disposition. Ces progrès ont permis l’amélioration de la survie et de l’espérance de vie des populations qui en bénéficient, mais ont aussi changé le visage de la mort dans nos sociétés, sa place et la façon dont elle est perçue et interprétée. La mort ne fait plus simplement « arriver » comme auparavant. Elle est maintenant très souvent négociée avec les familles par les équipes soignantes, accélérée ou retardée, par le biais de l’arrêt d’un traitement essentiel au maintien de la survie, ou par la décision de ne pas le débiter. Désormais au Canada, plus de 60% des

décès ont lieu à l'hôpital(37). Parmi ceux-ci, un grand nombre a lieu dans les unités de soins aigus telles les unités de soins intensifs et les unités coronariennes, endroits où ces décisions sont prises. Aux États-Unis, par exemple, il est estimé que 22% des décès se déroulent dans les unités de soins intensifs(38). Conséquence prévisible, compte tenu que nous avons plus de moyens technologiques, nous sommes confrontés à de nouvelles questions, questions que nous n'aurions pas pu nous poser il y a quelques années seulement. En plus de foncièrement changer comment la vie et la mort se déroulent dans nos institutions, ces changements surviennent à grands coûts financiers, coûts qui menacent la pérennité de notre système de santé public. Cette pression s'accroît de plus en plus étant donné le contexte démographique de vieillissement de la population qui s'accélère, de la diminution de la population active, de l'explosion du prix des médicaments et de ressources financières qui sont limitées. Certaines études faites au Canada estiment à 10% du budget total en santé les soins requis durant la dernière année de vie(39) des patients, soit pour et par 0,67% de la population. Ceci représente une portion considérable d'un budget en santé qui n'arrive pas à répondre à l'ensemble des demandes du système. Dans ce contexte, plusieurs interventions réalisées dans le système de santé sont remises en question, tant sur la base de leurs coûts que de l'évaluation de leurs bénéfices. Les interventions en soins intensifs, y compris néonataux, n'y font pas exception.

Les décisions de vie ou de mort sont extrêmement difficiles à prendre, mais le sont d'autant plus lorsqu'il s'agit de populations fragiles et vulnérables ou lorsqu'il s'agit de décider pour quelqu'un d'autre. En effet, un adulte même si devenu incompetent à la suite d'une maladie ou d'un accident, a souvent eu des discussions préalables énonçant ses souhaits ou volontés, ou fait des choix de vie permettant d'établir ou de deviner les valeurs qui lui sont importantes.

Ceci n'est pas le cas pour un patient qui n'a jamais été apte, comme le nouveau-né. Comment prendre la décision ? Aussi, qui devrait prendre la décision ? Il fut un temps où la réponse à cette question était simple : le médecin. Depuis Hippocrate et même avant lui, le modèle paternaliste a été le modèle prédominant de la relation patient-médecin. Dans ce modèle, le médecin est l'expert du patient et de sa maladie, tant en raison de son expérience que de ses connaissances. Ainsi, c'est lui qui sait ce qui est le mieux pour le patient, et la décision lui revient. Ce modèle ne tient pas compte des préférences et des particularités du patient. Il donne tout le pouvoir au médecin. Ce modèle a longtemps été le modèle privilégié autour duquel s'est articulée la pratique médicale. Mais ce modèle était imparfait. Plusieurs failles et dérives importantes ont mené à sa remise en question. Le procès de Nuremberg, les révélations sur les expérimentations qui se sont déroulées à Tuskegee(40) et ailleurs, et l'article phare de Henry Beecher(41) mettant en lumière des projets de recherche éthiquement inacceptables en 1966 en sont de bons exemples. Ces exemples et plusieurs autres ont contribué à alimenter un mouvement d'affirmation de certains groupes de patients auparavant discriminés, mouvement réclamant le respect de l'autonomie des personnes et le respect du patient dans son individualité. Ceci a mené à l'émergence d'un nouveau paradigme ou modèle. Ce dernier, plutôt que de s'appuyer sur le médecin, s'appuie sur l'autonomie du patient. Cette autonomie devient le principe éthique suprême. Dans ce nouveau paradigme, le patient est son propre expert, connaissant ses préférences, ses valeurs, ses besoins, alors que le médecin a plutôt un rôle de technicien et d'informateur. Or ce deuxième modèle a lui aussi ses inconvénients, notamment en raison de la complexité de certaines des situations cliniques. Conséquemment, un nouveau changement de paradigme s'opère notamment grâce à l'implication grandissante des patients dans le système de santé, et dans l'enseignement. Ce nouveau modèle, qui

s'inscrit entre le paternalisme et l'autonomisme, est celui de la prise de décision partagée. Il cherche à combiner les avantages du modèle paternaliste et du modèle autonomiste, en minimisant leurs faiblesses respectives. Comme son nom l'indique, dans ce modèle, la décision est prise par le patient et le médecin, processus informé tant des préférences et particularités du patient, que par l'expérience du médecin.

5.2 Comment meurent les nouveau-nés aujourd'hui ?

Si les prises en charges en amont de l'admission sont si différentes, se peut-il que la prise en charge en cours d'hospitalisation diffère aussi entre les nouveau-nés et les patients plus âgés ? Pour ce faire, nous avons revu dans l'ensemble des décès s'étant déroulés en néonatalogie. Nous avons aussi revu les décès des patients qui n'ont jamais été admis à l'unité de soins intensifs néonataux. Ceux-ci sont rarement décrits. En effet, les décès en néonatalogie sont traditionnellement répertoriés dans l'ensemble des unités de soins intensifs néonataux, minimalement pour suivre le nombre de décès et leurs causes. Les modes de décès de leur côté ou le processus décisionnel menant au décès sont peu ou pas détaillés. De plus, les nouveau-nés qui décèdent en dehors de l'unité néonatale, sont très rarement comptabilisés, soit dans les publications et les grandes banques de données néonatales nationales et internationales. Afin de mieux connaître qui sont les nouveau-nés qui ne sont jamais admis et afin d'appuyer notre propos, nous les avons inclus dans un deuxième projet de recherche.

5.2.1 Les décès en dehors de l'unité néonatale

Article accepté avec révisions majeures par Acta Paediatrica. Cette version de l'article est le manuscrit original mais sera modifié significativement en vue de la publication.

Who makes it to the NICU? Changes in modes of death outside of the NICU over the last decade.

Amélie Du Pont-Thibodeau^{1,2,3,5,6}, Keith Barrington^{1,3,5}, Catherine Taillefer^{2,4}, Annie Janvier^{1,2,3,5,6}

1. Department of Paediatrics, University of Montreal
2. Unité d'éthique Clinique, Hôpital Sainte-Justine
3. Centre de recherche, Hôpital Sainte-Justine
4. Department of obstetrics and Gynaecology, University of Montreal
5. Neonatology, Sainte-Justine Hospital
6. Palliative care unit, Sainte-Justine Hospital

None of the authors have conflicts of interest

LIST OF ABBREVIATIONS

CDH: Congenital diaphragmatic hernia

HLHS: Hypoplastic left heart syndrome

NICU: Neonatal intensive care unit

HCP: Health care provider

PICU: Paediatric intensive care unit

ECMO: Extracorporeal membrane oxygenation

SD: standard deviation

LSI: Life sustaining interventions

KEY WORDS

Neonatal epidemiology, Decision-making, termination of pregnancy, stillbirth, ethics, end-of-life care, palliative care, death, neonatology, prematurity.

ABSTRACT

Objective: Potentially viable fetuses/neonates experiencing perinatal death are generally not accounted for in neonatal outcome studies. Despite having a direct impact on NICU admissions, modes of perinatal deaths have not been rigorously investigated.

Study design: We reviewed all perinatal deaths occurring ≥ 22 weeks, without NICU admission, during two 3-year periods in a tertiary maternal-child hospital: 2000-2002 (cohort 1), and 2007-2010 (cohort 2). We categorized deaths according to nine mutually exclusive categories.

Results: There were 444 perinatal deaths satisfying inclusion criteria. The total number of perinatal deaths increased from cohort 1 (197) to cohort 2 (247). The proportion of stillbirths of fetuses who were alive at the time of their mother's hospital admission decreased (14% vs. 18%; $p < 0.05$). There was a significant increase in TOP for congenital anomalies in the second cohort (11% vs. 41%, $p < 0.05$), as well as a decrease in deaths following induction of labor and comfort care for fetal anomalies (25% vs 13%; $p < 0.05$).

Conclusion: The approaches to end of life care have changed over time. Pediatricians should be aware of the epidemiology of perinatal mortality in their own practice; it has a direct impact on the denominator in NICU outcome studies.

Introduction

While the majority of Neonatal Intensive Care Unit (NICU) graduates survive without disabilities, many still die and others survive with a range of disabilities. Because of improvements in prenatal diagnosis and changes in neonatal outcomes, antenatal decision-making has become more complex, often leading to more options for prospective parents of fragile children: whether to terminate or continue a pregnancy; to have an operative delivery or not; to give intensive care or comfort care at birth. These decisions have life-changing impacts (42-45). When discussing the best management plan for their child, prospective parents often want to be informed about the survival and outcomes of children similar to theirs (46, 47).

When discussing prognosis with prospective parents, healthcare providers (HCPs) often use traditional indicators of benefit in modern medicine, such as survival and functional outcomes. Yet these key numbers are not simple to obtain nor are they always applicable to the precise situation at hand. Which denominator should be used? All affected fetuses, all viable affected fetuses, all affected neonates born alive, all affected neonates resuscitated or only affected neonates admitted to the NICU? Outcome statistics will be significantly different depending on the denominator chosen; the impact of which may be substantial(48). Three common NICU examples can be used to illustrate this: congenital diaphragmatic hernia (CDH), hypoplastic left heart syndrome (HLHS) and extreme prematurity. CDH and HLHS are frequently diagnosed antenatally. Numerous fetuses with CDH and HLHS are terminated but survival rates for these conditions have increased. How much of the increase in the survival of these conditions, if any, is due to termination of more severely affected infants? How are we to counsel a family with a new diagnosis of the most severe form of HLHS or

CDH if this information is not known? Wide variations of practice exist when it comes to delivery room interventions for extremely preterm infants(49): at 22 weeks gestation, survival after birth varies from 0% to 35 % (30, 34, 50-53) Centers that routinely intervene have a survival rate of around 23%, with almost all of their deaths occurring in the NICU, while in other centers, all of the deaths occur in the delivery room (in utero or not). In a recent publication, the highest survival occurred in centers that selectively resuscitated some, but not all, such infants(30); such a center could conceivably have a higher survival of infants admitted to the NICU, but a lower survival among all babies born alive.

The outcome of neonates admitted to the intensive care unit is well known and well studied. Ethical decision-making and mode of death in neonatology has been increasingly investigated (54-56). What is not rigorously described is how many foetuses and neonates, -who could be potential NICU patients if they were to receive LSI (life sustaining interventions)- do not contribute to outcome statistics. When and how does this mortality occur? Did death occur after an antenatal decision? Is the epidemiology of perinatal deaths changing over time? In order to answer these questions, we have reviewed all foetal and neonatal deaths occurring outside of our NICU and examined whether the epidemiology of perinatal deaths have changed over a decade in a large maternal-child hospital.

METHODS

In this retrospective study, we reviewed all perinatal deaths occurring at or after 22 weeks, without neonatal intensive care admission, during two 3-year periods in Sainte-Justine

University Hospital: from January 1st 2000 to December 31st 2002 (cohort 1), and from July 1st 2007 to June 30th 2010 (cohort 2). Sainte-Justine Hospital is a mother-child tertiary care university-affiliated hospital that delivers around 4000 babies each year, half of them the result of high-risk pregnancies. The NICU is a 65-bed unit with up to 30 ventilated patients and admits on average 1200 neonates a year. Inclusion criteria were as follows: birth weight of $\geq 400\text{g}$, and a gestational age of ≥ 22 weeks. Exclusion criteria were: admission to the NICU, admission to the PICU or death outside of the hospital. Each chart was reviewed and demographics, associated pathologies, and mode of death were documented. Information was collected in the chart regarding the decision making process.

We categorized deaths according to nine mutually exclusive categories:

1. Stillbirth of a foetus who was alive at mother's hospital admission
2. Stillbirth of a foetus who was already deceased at mother's hospital admission
3. Resuscitation failure
4. Feticide because of congenital anomaly
5. Feticide because of increased risk of extreme prematurity
6. Induction of labor without feticide because of malformation coupled with planned comfort care at birth
7. Induction of labor for psychological reasons with planned comfort care at birth
8. Induction of labor because of increased risk of extreme prematurity with planned comfort care at birth
9. Comfort care in the delivery room after spontaneous labor of babies not included in the other categories

Data was analysed using SPSS software (Statistical Package for the Social Sciences inc, version 22). Descriptive statistics were used. Chi-square was used to compare proportions between groups. Independent sample T-tests were used to compare averages. A p value of less than 0.05 was considered to indicate statistical significance. The Sainte-Justine Hospital Institutional Research Ethics Review Board approved this project.

RESULTS

There were 444 perinatal deaths satisfying inclusion criteria: 197 in cohort 1 and 247 in cohort 2.

Demographic characteristics

The average gestational age at the time of death was comparable between the cohorts: 27^{1/7} weeks in 2000-2002 (SD 0.38), and 27^{4/7} weeks in 2007-2010 (SD 0.31). The average birth weight was also comparable between both cohorts: 1073g in the first cohort (SD 59.5), 1115g in the second (SD 49.3). There were 47% girls in the first cohort and 44% in the second. The average age of mothers was 28.8 years in the first group (SD 0.44), and 29.6 years in the second (SD 0.41). None of these differences were statistically significant.

Congenital anomalies

In the first cohort, 52% of all deaths were foetus/neonates with a congenital anomaly. In the second cohort, an anomaly was present in 77% of cases. This difference was statistically significant ($p < 0.001$). Mortality was most commonly associated with a termination of pregnancy (feticide). The anomalies diagnosed in the pregnancies that were terminated because of a congenital anomaly, are shown in table 1.

Alive at birth

In the first cohort, 21% of perinatal deaths were neonatal deaths; this proportion was lower in the second cohort (12.5%; $p = 0.04$). For neonatal deaths, the time to die was 61 minutes in the first cohort and 126 minutes in the second (not statistically significant).

Modes of death

Modes of death, for both cohorts, are shown in table 2. There were significantly more feticides for foetuses with congenital anomalies and significantly fewer inductions with plans for comfort care during the second cohort. Also, there were significantly fewer stillbirths who had been alive at the time of hospital admission in the second cohort. The rest of the differences between modes of death were not statistically significant.

Subgroup analysis

Amongst modes of death, the average birth weights and average gestational ages were not statistically different, except for the group undergoing induction for congenital anomalies with a plan for comfort care. In this group, foetuses in the second cohort were significantly smaller:

the average birth weight in the first cohort was 875.6g compared to 620.2g in the second (p =0,013).

DISCUSSION

Neonatal mortality has been examined in a large number of investigations. The complexity of classifying neonatal deaths and decision-making is recognized(57), yet ethical decision-making for neonatal deaths is seldom described in publications presenting perinatal mortality. Little is known regarding perinatal deaths occurring outside of the NICU.

Our first finding is that the total number of perinatal deaths prior to NICU admission increased from cohort 1 to cohort 2. The neonates/foetuses in both cohorts were comparable except for the higher prevalence of congenital anomalies. While in the first cohort only 52% of perinatal mortality cases were associated with a congenital anomaly, that number rose to 77% in the second cohort.

Second, the epidemiology and mode of perinatal deaths after viability has changed in the last decade. There were fewer neonatal deaths in the second cohort. This difference is not explained by an increase in the number of stillbirths occurring after admission. On the contrary, the number of stillbirths among foetuses that were alive at admission actually decreased. The most prevalent mode of death after viability is now after a termination of pregnancy associated with a congenital anomaly. The reasons for this increase are unclear. One hypothesis is that prenatal diagnosis and imaging are improving the rates of detection, but many diagnoses may not be confirmed until later in gestation. First trimester screening has

largely replaced amniocentesis for increased maternal age in screening for aneuploidy. In some cases, confirmation of an aneuploidy or foetal anomaly may be delayed to the 2nd or 3rd trimester. Another reason that could explain the increase in the number of terminations for congenital anomalies might be a change in referral pattern; it may be that more women with suspected foetal anomalies are being referred to our center. While our institution has always been recognized as a referral center for obstetrics, in 2010 was created an integrated center for antenatal diagnosis, which is comprised of a multi-disciplinary team that evaluates mothers carrying a fetus with an antenatal diagnosis, including consultation services, a complete acute care setting, as well as the ability and availability to perform late terminations in exceptional situations. Finally, we might ask ourselves whether we as a society are increasingly intolerant of disability. We have shown that some parents with an antenatal diagnosis report pressure to terminate the pregnancy (58, 59). Some parents who make a decision to terminate a pregnancy also state that the attitudes of society to handicapped children had an influence on their decision(60). Could this finding be explained both by a change in physician beliefs and parental preferences as well? These hypotheses should be further investigated. In Canada, termination of pregnancy has been decriminalised since 1988. Since then, no law regulates abortion. While there is no legal maximum gestational age at which abortions are performed, the vast majority occur in the first trimester. In our institution, terminations of pregnancy after viability are always discussed during a multidisciplinary committee including diverse specialities, depending on the case. Families who are found to be carrying a foetus with a serious prenatal diagnosis, including those who choose termination of the pregnancy, are offered psychological support and bereavement care.

Our third finding is that mode of death of foetuses with a congenital anomaly has changed in the last decade. Indeed, in cohort 1, the majority of deaths associated with a congenital anomaly were neonatal deaths following induction of labor. In the later years, the vast majority die after a termination of pregnancy, with neonatal death being much less prevalent. The foetus undergoing induction in cohort 1 were also 250g bigger than those in cohort 2. Why has this occurred? There has been much more focus in recent years on neonatal palliative care, therefore one might have expected less, not more feticides, and a subsequent increase in comfort care at birth. Is this secondary to a neonatal community who are more accepting of disability or more interventionist, and less willing to withhold intensive care? This could partly be explained by the increasing proportion of terminations performed for foetuses for whom palliative care would not be acceptable, for example for isolated trisomy 21(61). This finding may also be explained by an insufficient knowledge or discomfort related to neonatal deaths compared to in utero deaths. Are parents asking for more feticides or are they being offered feticides more frequently by providers? Another important question for potentially surgically correctable lesions is the severity of the lesion. Is it possible, for example, that the most severe cases of cardiac anomalies and other anomalies are being terminated? If so, the improved survival of babies admitted to the NICU may not only be because of improved neonatal care.

Finally, extremely preterm infants are underrepresented in the deaths occurring outside of the NICU. While there are huge numbers of publications and much research regarding the ethics of decision-making at the limits of viability, there is in comparison a relative paucity of

research dedicated to important decision-making associated with other perinatal deaths, in particular congenital anomalies.

There are limitations to this study. Because of its retrospective nature, there was some variation in the documentation present in the charts. Also this study took place in a tertiary hospital, and we are unaware of the characteristics of perinatal deaths in peripheral centers. These could represent a substantial proportion of perinatal deaths after viability. Furthermore, it is unknown if these findings are applicable in other tertiary care centers. On the other hand, a similar study in Holland, using the similar categorizations, has also demonstrated similar changes in mode of perinatal deaths outside of the NICU.(54) It is possible they would in some but not in others, for example in centers where terminations of pregnancy do not occur after viability. Indeed, a recent publication categorizing all neonatal deaths in Ireland illustrate that the ethical context in which these decisions are taken influences perinatal mode of death(62). Because these variations of practice likely have a significant impact on reported neonatal outcomes, investigating and describing decision-making for perinatal deaths outside of the NICU should be transparent in the neonatal and pediatric literature.

CONCLUSION

While controversial at times and sensitive, describing and investigating perinatal deaths after viability is important as it likely has an impact on neonatal statistics. With time, societal influences and changes in values, different centers have led to different approaches regarding perinatal decision-making. These approaches vary greatly around the world. When examining neonatal outcomes in our institution, it is important to recognize our institutional culture in

order to better interpret our local data and better counsel parents. Knowing how neonates/foetuses die when they are not admitted to the NICU is part of this information, and research regarding this should therefore be encouraged, supported, and shared. Pediatricians who specialize in the outcome of sick neonates should be active participants in this research.

Table 1. Modes of death: Classification of all foetal/neonatal mortality outside of the NICU

	Cohort 1 (N=197)	Cohort 2 (N=247)	P-value
Comfort care after spontaneous labor	27 (14%)	21 (9%)	0.08
Resuscitation failure	6 (3%)	4 (2%)	0.31
Stillbirth, dead at hospital admission	40 (20%)	50 (20%)	0.98
Stillbirth, alive at admission	28 (14%)	19 (8%)	0.026
TOP and feticide, congenital anomaly	22 (11%)	101 (41%)	<0.001
TOP and feticide, risk of extreme prematurity	2 (1%)	1 (0.4%)	0.43
TOP, congenital anomaly	49(25%)	32 (13%)	0.001
TOP, psychological Indications	14 (7%)	14 (6%)	0.53
TOP, risk of extreme prematurity	9 (5%)	5 (2%)	0.12

Table 2. Congenital anomalies in both cohorts

Type of malformation	Specific anomaly	First cohort (N)	Second cohort (N)
Cardio-thoracic		9	22
	Hypoplastic Left Heart Syndrome	1	8
	Congenital diaphragmatic hernia	1	6
Genetic		17	34
Neurologic (ex)		17	37
	Spina Bifida	2	8
Renal (ex)		3	4
Digestive (ex)		4	2
Anomalies in Multiple systems (ex)		10	11
Others (ex)		9	15

5.2.2 Les décès à l'unité néonatale

Publié dans *Acta Paediatrica*, novembre 2014, 103(11), 1148-1152, doi: 10.1111/apa.12747, reproduit avec permission

Later Rather Than Sooner: the impact of clinical management on timing and modes of death in the last decade

Amélie Dupont-Thibodeau MD, FRCPC; Rosalie Langevin, BN; and Annie Janvier, MD, PhD.

Neonatology and clinical ethics, Université de Montréal, Sainte-Justine Hospital, 3175 Chemin de la Côte Sainte-Catherine, Montreal, Quebec, H3T 1C5, Canada

None of the authors have any conflicts of interest

ABSTRACT

OBJECTIVE: Describe changes in the mode and timing of death for neonates in a tertiary neonatal intensive care unit over a ten-year period. **METHODS:** All deaths occurring in the NICU during two 3-year periods over a decade were analyzed. We categorized deaths and compared timing, cause and mode of death in cohort 1 (2000 to 2002) vs. cohort 2 (2007 to 2010) as well as ethical decision-making, end-of-life communications and comfort medications. **RESULTS:** 203 neonatal deaths were analyzed. The average age at death nearly doubled, from 10 days to 18.6 days in cohort 2 ($p = 0.028$). Fifty-three percent of deaths occurred in the first 48 hours of life in the earlier period compared to 29% in the second ($p < 0.001$). Mode of death and ethical decision-making related to life sustaining interventions remained similar from one period to the other. In both cohorts, 25% of patients who died had a “do not resuscitate” (DNR) order in their chart. Of the 151 patients without a DNR order, 9% died while receiving CPR. The majority of neonates received comfort medications and their use remained similar in both time periods. **CONCLUSIONS:** Changes in neonatal management have led to a reduction in early deaths, and an increase in age at death. The impacts of later deaths on families and health care providers deserve further study. **KEY WORDS:** Neonatal intensive care unit (NICU), prematurity, congenital anomalies, bioethics, ethics, end of life care, palliative care, resuscitation, modes of death.

KEY NOTES: The modes of death in our unit haven’t changed in over a decade. But changes in neonatal management have led to a reduction in early deaths, and an increase in age at death. The impacts of later deaths on families and health care providers deserve further study.

INTRODUCTION

Technological progress and improved clinical knowledge have expanded the limits of medicine. Many neonates who previously would have died now survive. However, life threatening conditions and medical interventions often lead to potentially serious sequelae and complex decision-making involving withholding or withdrawing of life sustaining interventions (LSIs) (63-65). The majority of pediatric deaths in industrialized countries occur in hospitals, generally in intensive care units. In the past, critically ill children often died despite LSIs, because of an inability to sustain their life. Currently, children are most likely to die following a decision to withhold or withdraw LSIs (65-68). End-of-life decisions in NICUs are generally taken by the parents of the sick children after discussions with healthcare providers (HCPs). Decisions on when to start, withhold, or withdraw LSIs in critically ill neonates are among the most difficult decisions in pediatric practice. These decisions are fraught with ethical dilemmas, for example deciding whether withholding LSIs (which generally leads to death) is superior to uncertain survival with a high risk of disability and the additional burden of intensive care (69-71).

The decision-making process that leads to such decisions generally takes into consideration mortality, morbidity and quality of life issues. These considerations and circumstances are rarely described in detail in publications discussing neonatal mortality, yet can vary greatly. Multiple factors can explain this variation, including health care providers' attitudes and beliefs (72), (11). The context of these decisions may be drastically different depending on the NICU where a neonate is admitted (57, 65, 73-75). Indeed, in some units, the majority of neonates that die do so despite maximal LSIs while in others the majority die

with a stable physiology after LSIs are withdrawn because of quality of life reasons. Uniform classification of neonatal deaths is important and feasible; it offers an important step towards transparency about norms and values of HCPs and enables true comparison of intensive care outcomes. While previous publications have mainly compared NICUs [1, 2, 4, 5, 12, 14] empirical investigations on ethical decision-making within one unit are scarce. It is unclear if and how values and attitudes towards critically ill neonates change over time while technology is improving. The aim of this research was to investigate modes of death and ethical decision-making over a decade. The goal was to clarify if and how modes of death and ethical decision-making related to end-of-life have changed in the past decade in a large tertiary care NICU.

METHODS

In this retrospective study, we reviewed all consecutive deaths occurring during two 3-year periods in patients cared for at the NICU of Sainte-Justine University Hospital: from January 1st 2000 to December 31st 2002 (cohort 1), and from July 1st 2007 to June 30th 2010 (cohort 2). Sainte-Justine Hospital is a mother-child tertiary care university-affiliated hospital that delivers around 3500 babies each year, half of those the result of high-risk pregnancies. The NICU is a 65 bed unit with 25 ventilated patients and admits on average 1200 neonates a year (76).

The inclusion criteria were the following: NICU admission, death in the NICU, gestational age (GA) over 22 weeks, birth weight (BW) over 400g. Information was collected in each chart regarding demographic characteristics, associated pathologies, causes of death, and

modes of death. Each chart was examined for information about end of life considerations, communication with parents and decision-making.

We categorized all deaths along the dimensions of decision-making and physiology, as previously described by Verhagen and colleagues (57, 65, 75). Deaths were classified according to ethical decision-making in the following categories: (a) children who died despite cardiopulmonary resuscitation (CPR) (no withholding nor withdrawing of LSIs), (b) children who died while on the ventilator, without CPR (no withdrawing of LSIs, but CPR withheld), (c) children who died after LSIs were withdrawn or (d) withheld. For the deaths in the third category (c), we further classified children as being physiologically stable (c/quality of life (QOL)) or unstable (c/U) before the decision-making leading to death. To be classified as unstable, neonates needed to meet one of the following criteria: inadequate saturation in 100% oxygen on a respirator > 1 hour, hypotension despite use of more than one vasopressor > 1 hour, bradycardia > 1 hour, progressive acidosis with pH of 7.0 or less despite maximal medical management or multiple organ failure. Those who met none of these criteria were classified as being stable (with or without mechanical ventilation).

SPSS software was used for statistical analysis (Statistical Package for the Social Sciences inc, version 22). We compared demographics, causes of deaths and classification of deaths. Descriptive statistics were used; chi-square was used to compare proportions between groups. Independent sample T-test was used to compare averages. A p value of less than 0.05 was considered to indicate statistical significance.

This project was accepted by Sainte-Justine Hospital Institutional Research Ethics Review Board.

RESULTS

There were 95 deaths in the first time period and 117 in the second. We were unable to localize 3 charts from the first cohort and six charts from the second cohort and therefore reviewed 92 deaths in the first cohort and 111 in the second cohort. There were more deaths of extreme preterm infants and fewer of asphyxiated infants in the second cohort (Table 1).

Timing of death

Deaths occurred later in the second cohort: at 18.6 days (standard deviation (SD) 32.9) compared to 10 days (SD 18.6) on average ($p = 0.028$) (Table 2). Deaths occurring in the first 48 hours after NICU admissions and in the first week of life have decreased significantly (Table 2). Very late deaths (after 90 days) occurred twice in the first cohort, and seven times in the second cohort. Deaths from asphyxia and congenital anomalies occurred later (Table 2). The timing of deaths associated with prematurity also occurred later, but did not quite reach statistical significance ($p = 0.053$).

Modes of death

Despite the overall increase in age at death, modes of death have remained unchanged between both cohorts. Most babies die because LSIs are withdrawn, either in the context of medical instability or concerns about future quality of life. CPR at the end of life and deaths on a ventilator remain rare (Table 3).

DNR orders

For both periods, about a quarter (n = 53) of neonates had a DNR order in their chart. None of the patients with a DNR order in their chart died while receiving CPR; all died after LSIs were withheld. Of those who had no DNR order (n = 151), 9% (n=14) patients died while receiving CPR.

Medications

Use of comfort medications was similar in both cohorts. During the hour preceding their death, 61% of neonates in the first cohort and 68% of the second cohort were receiving comfort medications (analgesics or anxiolytics). Opioids were the most frequently administered comfort medications. More patients in the second cohort were receiving steroids in the week preceding death (27% vs. 4%; p = 0,0001). Steroids were generally ordered for life-threatening respiratory insufficiency or shock. All but one patient who received steroids had unstable physiology.

Written communication

All of the charts had written documentation pertaining to end of life decision-making and communication with parents. These communications increased in frequency in the week preceding death.

DISCUSSION

The goal of this study was to investigate changes in mode of deaths and ethical decision-making over time in a single large tertiary NICU. In the second cohort, there were more deaths of extreme preterm infants. This may be because there were more admissions of

preterm infants < 29 weeks in the second cohort (n = 309) compared to the first cohort (n = 213), mainly because of an increase in NICU admission capacity. Furthermore, in the later cohort, more of these admissions were preterm infants <26 weeks GA (111 vs. 63); it is possible that at the lowest gestations, a larger proportion of neonates born in the first cohort received comfort care at birth and were not admitted to the NICU. Thus, an increase in interventions for extremely preterm neonates have probably lead to an increase in NICU deaths for small infants. A decreased proportion of deaths due to asphyxia in the second cohort may have occurred because of the effect of whole body cooling after neonatal ischemic encephalopathy. Our unit became a referral center for whole body cooling in 2008.

Our second finding is that in the recent cohort, deaths occurred later. Indeed, the vast majority of neonatal deaths between 2000 and 2003 occurred in the neonates' first week of life. This is no longer the case. It is hard to know what drives this change in timing of deaths: physicians, parents or changes in medical therapies?

Between the two cohorts, there have been some changes in neonatal care, mainly therapeutic hypothermia for asphyxia, increased use of high frequency ventilation and nitric oxide and, an increase in the use of corticosteroids. The use of corticosteroids for respiratory insufficiency has been associated with a later time at death for preterm infants without increasing survival (77). Therapeutic hypothermia has been demonstrated to increase survival for asphyxiated infants (78) and decrease the proportion of impaired survivors. On the other hand, in the past, infants with the most severe encephalopathy may have had withdrawal of LSI shortly after admission. This is now less frequent, as improvement in encephalopathy may occur during the first 48 hours of therapeutic hypothermia. LSIs are now seldom withdrawn

during cooling (which lasts 72 hours). This could explain the 3-day difference in the timing of death for asphyxiated infants. The majority of the asphyxiated neonates who died in the first period had LSI withdrawn, because of QOL concerns, during a period of time when their respiratory drive was very poor; they were extubated and died quickly. In the second period, some asphyxiated neonates were not on a respirator when LSIs were withdrawn and they died after feeds and nutrition were withheld; which never happened during the first period. It is also possible that deaths occur later because physicians or parents need more investigations before they estimate that withdrawing LSIs in a physiologically stable neonate is acceptable. It is also possible that physicians or parents want neonates to “declare themselves” and attempt other approaches to therapy (such as high frequency ventilation and steroids) before concluding that the infant is unlikely to survive. It may be that some of these attempts are only temporarily successful, leading to a delay in death rather than its prevention. In a society where medico-legal concerns are rare but increasing, HCPs may feel the need to better document outcomes and be more certain before withdrawing LSIs. The increase of “miracle stories” in the media may also give hope to many parents; some parents might find it even more difficult to make end-of-life decisions knowing that some “doomed infants” beat the odds and survive.

Our third finding is that ethical decision-making and modes of death have remained similar over a 10-year time period, despite an increase in the age at death and an increase in smaller more fragile patients. In both cohorts, the majority of deaths occurred because LSIs were withdrawn. The proportions of stable neonates that died after LSIs were withdrawn for QOL reasons were similar in the two cohorts. Use of comfort medication surrounding death was also stable over time. It has been demonstrated that ethical decision-making and modes of death differ between NICUs (57, 65). Interestingly, modes of death in our unit stayed static

despite technological changes and increased patient load. We suspect that every intensive care unit develops habits around end-of-life issues: when and how communications with parents occur, choices parents are offered for different critical clinical situations, and the way LSIs are withdrawn or withheld. These habits are likely to stay stable over time. HCPs in our NICU may have adapted to the proportion of neonates who die *despite* LSIs (category a and b and c/U), those who die *because* (category c/QOL) LSIs are withdrawn. Doing what we think is “right” is often a delicate balance between trying to avoid doing “too much” and doing “too little”. Perhaps each intensive care unit is an ethical microcosm where some ethical decisions appear “normal” and become routine. For example, in some units, dying on the respirator or with CPR is frequent (57, 65). In our unit, this is rare, creates moral distress in HCP and is considered a “bad death”. Another characteristic of our “ethical microcosm” is that critically ill patients generally do not have a DNR order in their chart. The majority of patients in our unit die without a written DNR order, but without CPR, and after withdrawing of LSIs, we feel that withdrawal of LSI implies that CPR will not be used, and a written order is not considered necessary. This is not the case in many intensive care units (79). Empirical investigations about the opinions of parents regarding what constitutes an appropriate death and how they judge these variations of practice are sorely lacking (79).

This study has many limitations, mainly because of its retrospective nature. Also, not all neonates who died within our hospital were included. We excluded babies who died outside of the NICU, for example the delivery room, but these patients represent the minority of neonatal deaths in our hospital. Also, we wanted to examine if and how the intensive care culture had changed over time and purposefully chose to exclude these patients who died outside the NICU. Despite these limitations, analyses of how intensive care culture may

impact neonatal deaths are scarce. Technological advances and changes in medications used in the NICU increase the chances of survival but change the timing of death. Later deaths translate into increased emotional costs to babies, families and HCPs. Late deaths generally increase moral distress (80). Later deaths also impact costs to the healthcare system. When neonates die after weeks in the NICU, they have generally been receiving LSIs all their lives. Later deaths in intensive care units may be inevitable and reflect increased survival which often accompanies improvement in medical care. This increased survival probably increases the expectations of parents and HCPs. We often speak to parents about the risks of death, but rarely about the timing of death and how their baby may die (80). In most publications, percentage (and not timing) of death is considered as an important factor in decision-making. In our opinion, timing of death should be considered in any ethical analysis of neonatal outcomes.

We are getting better at helping neonates survive: some babies survive today who would have died despite maximal intensive care a few years ago. That implies more and more situations in which the baby does not decide, but its fate lies in the decision of its parents and healthcare team. This may be associated with an increase in uncertainty and distress for families and health care providers. With changes in medical management, some neonates who died quickly in their first days of life now declare themselves later and the way they die is different. How this impacts both parents and healthcare providers needs to be investigated.

Table 1. NICU deaths: demographic characteristics of two cohorts

	Cohort 1 N = 92	Cohort 2 N = 111	p-value
Average gestational age (wks.)	32 2/7 (SD 5 5/7)	30 5/7 (SD 5 5/7)	0,048
Birth weight, average (g)	1901 (SD 1095)	1511 (SD 975)	0,008
Birth weight <1000g (N)	28 (32%)	55 (49%)	0,013
Female Sex (N)	31 (34%)	52 (47%)	0,072
Congenital malformation (N)	41 (43%)	35 (32%)	0,09
Asphyxias (N)	15 (17%)	8 (8%)	0,045

Table 2. Timing of death

	Cohort 1 N =92	Cohort 2 N = 111	p-value
Average age at death (days)	10 (SD 18,6)	18,6 (SD 32,9)	0,028
Median age at death (days)	2	7	0,001
Death in first 48 hours	53%	29%	0,001
Death in first week	69%	50%	0,003

Death after three weeks	15%	25%	0,071
Death after 2 months	2%	7%	0,09
Death after 3 months	2%	5,6%	0,15
DOL at death – Asphyxias	2	5,6	0,029
DOL at death – Congenital Anomaly	7,3	14,4	0,019
DOL at death – BW <1000g	13,4	24,9	0,182
DOL at death- Preterm infants	10,8	20,8	0,053

Table 3. Classification of death according to decision-making and physiological stability

	Cohort 1 N = 92	Cohort 2 N = 111	p-value
With CPR (N)	7 (7%)	7 (6%)	NS
On ventilator without CPR (N)	2 (2%)	6 (5%)	NS
LSIs withdrawn: instability (N)	30 (32%)	47 (42%)	NS
LSIs withdrawn: QOL (N)	47 (51%)	44 (39%)	NS
Intubation withheld (N)	6 (6%)	7 (6%)	NS

5.3 Comment meurent les enfants plus âgés ?

En milieu hospitalier pédiatrique, les deux unités avec les plus hauts taux de décès sont les unités de soins intensifs pédiatriques et les unités de soins intensifs néonataux. Un article récent réalisé par une équipe australienne a entrepris de revoir l'ensemble des publications portant sur les décès en soins intensifs pédiatriques. Les auteurs ont faits plusieurs constats. Tout d'abord, dans leur unité 19% des patients sont décédés d'un échec de réanimation, 7% sont morts suite à un diagnostic de mort cérébrale, 19% sont morts dans le contexte d'une ordonnance de non-réanimation et 56% sont décédés suite à une limitation de traitement ou à une redirection des soins essentiels au maintien de la survie (81). Cette étude ne répertoriait que 27 décès. Par contre, ces mêmes auteurs ont effectué une revue exhaustive de la littérature portant sur les modes de décès en soins intensifs pédiatriques. Ils ont identifié 15 articles portant spécifiquement sur les décès en soins intensifs pédiatriques cumulant 2700 décès dans 73 hôpitaux. Entre 16-73% des décès étaient la conséquence d'un échec de réanimation, 8-32% des patients sont décédés après un diagnostic de mort cérébrale, et 18-65% des décès étaient suite à une limitation ou un retrait de traitement curatif (81). Dans cette revue de littérature, une étude incluse était canadienne et a comparé les décès en néonatalogie et ceux aux soins intensifs pédiatriques. Dans cette étude (67), tout comme dans la revue de littérature précédente, l'arrêt de soins essentiels au maintien de la survie était le mode décès le plus fréquent, soit dans 69% des décès néonataux et dans 34% des décès pédiatriques. Cette différence était statistiquement significative. Il y a eu 29% des décès pédiatriques suite à un échec de réanimation, contre 13% des décès néonataux. Cette différence était elle aussi statistiquement significative. Une étude effectuée à l'hôpital Sainte-Justine a comparé les

modes de décès aux soins intensifs pédiatriques et ceux dans l'unité de néonatalogie(82). Leur étude indique que le décès sur ventilateur était le mode de décès le plus fréquent aux soins intensifs pédiatriques (51%) et le moins fréquent aux soins intensifs néonataux (5%). Les décès pédiatriques étaient le plus souvent dans le contexte d'une instabilité clinique (82%) alors que c'était le cas dans moins de la moitié des cas néonataux (47%). En néonatalogie, l'arrêt des soins intensifs en raison de la qualité de vie future prédite était la cause de décès la plus fréquente (53%). Ce mode de décès n'était présent que dans 16% des décès pédiatriques et cette différence était elle aussi statistiquement significative.

5.4 Quelles conclusions tirer de ces projets de recherche ?

Ces deux projets de recherche nous ont permis de mieux identifier les nouveau-nés qui décèdent à l'hôpital et leur mode et circonstances de décès. Ceci nous a permis de tirer plusieurs conclusions. Tout d'abord, un grand nombre de nouveau-nés qui possèdent des chances de survie ou de survie sans séquelles décèdent sans jamais être admis dans une unité de soins intensifs néonataux (cf 5.2.1). Plusieurs de ces décès se déroulent en grossesse, moment pendant lequel certaines décisions (terminaison de grossesses) sont légalement et socialement permises. Dans notre cadre légal actuel, aucune restriction officielle ne détermine les circonstances dans lesquelles les terminaisons sont permises, ou l'âge gestationnel auquel ces terminaisons sont permises. Le mode de terminaison aussi n'est pas réglementé. Tel que démontré, les circonstances entourant les terminaisons changent et vont continuer à changer au gré des projets législatifs et de l'évolution des valeurs sociales. Par rapport aux

décès en néonatalogie, plusieurs constats ont été posés dans le cadre de notre recherche. Le premier est que l'âge au moment du décès a significativement augmenté. Le deuxième est que le mode de décès le plus fréquent est le retrait de soins essentiels au maintien de la survie, qui est présent dans plus de 80% des décès des 2 cohortes. L'échec de réanimation, n'était présent que dans moins de 10% des cas. Les décès sur ventilateur étaient présents dans moins de 5% des cas en néonatalogie.

Ces constats sont importants pour plusieurs raisons. Tout d'abord, lorsque les familles reçoivent de l'information entourant les prises de décisions, ces informations reposent généralement sur des statistiques de survie et de pronostic à long terme. Or ces statistiques varient beaucoup en fonction du dénominateur utilisé. Une étude réalisée par Guillen en 2011(48) a démontré que selon les nouveau-nés inclus dans ces statistiques, le taux de survie au congé peut varier de 26.5% à 87.8%. Pour les prématurés de moins de 28 semaines de gestation ou de moins de 1000g à la naissance, si toutes les naissances sont incluses dans le calcul de la survie, la survie moyenne est de 45%. Si seuls les nouveau-nés admis en néonatalogie sont inclus, alors la survie moyenne est de 71.6%. On peut se demander de quelle façon les taux de survie et les pronostics seraient influencés si l'ensemble des décès néonataux était inclus dans les publications et calculs statistiques. Aussi, plus de 80% des décès en néonatalogie sont le résultat d'une décision de retirer ou de ne pas instaurer un traitement essentiel au maintien de la survie. De ceux-ci, environ la moitié se déroule dans des conditions de stabilité physiologique, c'est-à-dire que la vie du patient n'est pas en danger. Ceci implique une décision active d'arrêt ou de réorientation de soins intensifs. Ces décisions sont difficiles à prendre, et traditionnellement sont le fruit d'un échange entre la famille du patient et de

l'équipe médicale. Traditionnellement, on nous enseigne de prendre ces décisions dans le meilleur intérêt du patient. Ces décisions devraient être guidées par les statistiques de survie et de pronostic. Or est-ce réellement le cas ? La comparaison avec des cohortes de patients ayant des taux de survie et de morbidité à long terme comparables nous laissent présager que des facteurs autres que les indicateurs traditionnels de bénéfice (survie, qualité de vie) influencent ces décisions. C'est ce que nous avons tenté d'investiguer avec notre troisième projet de recherche

Chapitre 6. Le statut particulier du nouveau-né

Tout d'abord, avant de tenter d'expliquer pourquoi les nouveau-nés sont traités différemment, il est important d'effectuer un rappel historique de la place du nouveau-né dans l'évolution de notre société. La situation actuelle des nouveau-nés est bien différente de ce qu'elle était il y a quelques dizaines d'années à peine. Or pour bien comprendre comment les nouveau-nés sont perçus maintenant, il est important de comprendre les différents éléments historiques et anthropologiques ayant pu alimenter ces perspectives. L'évolution de la survie des nouveau-nés, les rites culturels les entourant, et les succès et échecs de la médecine néonatale sont certains des éléments que nous analyserons dans ce chapitre.

6.1 Les nouveau-nés dans l'Histoire

Nous sommes capables aujourd'hui d'aider plusieurs nouveau-nés à survivre quand il y a quelques années à peine, ils auraient été condamnés à une mort certaine. Par exemple, la célèbre limite de la viabilité, seuil sous lequel la survie est perçue comme étant impossible, se trouve désormais aux alentours de 22 semaines de gestation, alors qu'il y a quelques années seulement elle se trouvait plutôt aux environs de la 24^{ème} semaine de gestation. Un seuil de la viabilité aussi prématuré n'a pas toujours existé. La mortalité infantile est un des paramètres démographiques ayant le plus évolué durant le dernier siècle. Influencée par les conditions socioéconomiques, l'environnement, et les conflits, elle a beaucoup changé au cours du temps, bien que de façon inégale entre les pays et entre les continents. La culture du recensement et

des statistiques dans laquelle nous évoluons présentement n'a pas toujours existée elle non plus, ce qui rend difficile les estimations de mortalité infantile avant le 19^{ème} siècle. Toutefois, certaines équipes de scientifiques ont réussi à étudier la question à l'aide de protocoles de recherche rigoureux. Pour les fins de l'exercice, le taux de mortalité infantile se définit comme le nombre de décès par 1000 naissances durant la première année de vie. Ainsi, on estime qu'en 1850, le taux de mortalité infantile était de 162 en Angleterre, 217,4 aux États-Unis, 225,3 en Espagne et 297 en Allemagne(83). Ceci correspond en moyenne à 1 enfant sur 5 qui décède avant son premier anniversaire. En 1900, cinquante années plus tard, ce taux était de 141 en Angleterre, 145 aux États-Unis, 204 en Espagne, et 229 en Allemagne(83). Il est important de noter que ces pays sont parmi les pays les plus industrialisés de l'époque. La situation était bien différente ailleurs. Par exemple en 1899, le pourcentage de mortalité infantile est estimé à 26.8% à Montréal et à 49.9% à Québec(84). En d'autres termes, au début du 20^{ème} siècle, 1 enfant sur deux décédait à Québec durant sa première année de vie, contre 1 enfant sur 4 à Montréal, contre 1 enfant sur 6 en Angleterre. Ces taux sont beaucoup plus importants que certains des taux décrits précédemment dans d'autres pays développés. En 1950, le taux avait déjà diminué à 35 en Angleterre et aux États-Unis, de 42 en Allemagne, de 64 en Espagne et de 49 au Japon(83), soit environ 1 enfant sur 20. En 2000, ces taux avaient davantage diminués à 5.5 en Angleterre, 7 aux États-Unis, 4.3 en Allemagne, 4.6 en Espagne et 3.4 au Japon(83). Au Canada, en 2012, ce taux est désormais de 4.8 décès pour 1000 naissances(85). À l'intérieur même du Canada toutefois, ce taux varie entre 3.8 en Colombie-Britannique et 21.4 au Nunavut(86). Cette diminution, bien que d'une ampleur différente, est aussi rapportée dans les pays en voie de développement et s'explique par les améliorations en santé reproductive, le statut nutritionnel des mères et des enfants, la plus grande utilisation des

services de santé, les conditions environnementales et le niveau socioéconomique(85). Ainsi, la majorité de l'Histoire s'est déroulée en présence d'un taux de mortalité infantile élevé. La mort d'enfants, perçue comme terrible au 21eme siècle en Occident, a déjà fait partie de façon beaucoup plus évidente et attendue du quotidien des familles et des sociétés.

C'est dans ce contexte de mortalité infantile très élevée que les cultures et grandes religions ont évolué et développé leurs rites et leurs coutumes. Ces rites, présents depuis des siècles, informent la notion de personne dans nos sociétés contemporaines. Au-delà des débats philosophiques et sémantiques, certaines pratiques existent depuis longtemps et mettent en relief le statut moral particulier qui traditionnellement a toujours été accordé aux nouveau-nés dans différentes sociétés, à différents moments. Certaines de ces pratiques sont culturelles, certaines de ces pratiques sont religieuses. Qu'elles soient encore pratiquées ou chose du passé, elles continuent certainement d'exercer une influence sur nos conduites et notre vision des choses.

Prenons l'exemple des cérémonies durant lesquelles un nom est attribué au nouveau-né. C'est historiquement le moment où le nouveau-né est officiellement présenté à la communauté, moment auquel il acquiert une identité propre. Cette coutume existait déjà durant l'Empire romain et la Grèce Antique. Chez les Grecs, l'amphidromie avait lieu le 5e ou le 7e jour après la naissance. Durant cette célébration, le père courait autour du foyer de la maison avec son nouveau-né dans les bras, et ce rituel correspondait à la reconnaissance de l'enfant par son père, synonyme de l'entrée officielle du nouveau-né dans la communauté. Cette cérémonie était suivie du baptême. Certains croient que cette cérémonie n'avait pas lieu durant les

premiers jours après la naissance car c'est historiquement durant cette période que plusieurs nouveau-nés décédaient. Les enfants qui recevaient un nom avaient donc plus de chance de survivre étant donné qu'ils avaient survécu à leur première semaine de vie. Suite à la purification des femmes ayant participé à l'accouchement, l'enfant était présenté à Jupiter dans une cérémonie festive(87, 88). Chez les Romains, le Dies Lustricus se tenait le huitième jour pour les filles, et le neuvième jour chez les garçons. Encore une fois, la cérémonie permettait de purifier les personnes ayant participé à l'accouchement ainsi que le nouveau-né. Ce dernier, lors de la cérémonie, était officiellement admis dans la communauté. Les raisons derrière la journée différente pour les deux sexes demeurent nébuleuses(89). Or traditionnellement, tant que l'enfant n'a pas de nom, il n'a pas une pleine appartenance à la communauté. Il n'est pas un membre comme les autres.

Parmi les grandes religions, le Christianisme et l'Islam permettent de donner un nom au nouveau-né le jour de sa naissance. Chez les Chrétiens, le baptême a lieu rapidement. Encore aujourd'hui, si un nouveau-né dans une unité de soins intensifs risque de décéder, le sacrement du baptême est offert même en pleine nuit. Un prêtre est de garde en tout temps. Ceci n'est pas le cas par exemple pour le Judaïsme et l'Hindouisme. Chez les Juifs, plusieurs règles et superstitions entourent les nouveau-nés. Les Juifs Ashkénazes ont la coutume de nommer le nouveau-né en l'honneur d'un membre décédé de la famille afin de garder le nom et les souvenirs de cette personne bien vivants. Les Juifs Sépharades quant à eux nomment les nouveau-nés en l'honneur d'un membre vivant de la communauté. Une tradition bien établie par contre demeure celle de ne pas nommer les nouveau-nés de sexe mâle avant leur circoncision ou le Bris, et de ne pas nommer les nouveau-nés de sexe féminin avant le Zeved

Habat. Le nom peut être annoncé avant ces cérémonies, mais métaphysiquement, l'enfant ne « reçoit » pas son nom avant la cérémonie en question. Un garçon par exemple ne reçoit pas « la pleine mesure de son esprit » avant son Bris(90). Une personne ne peut donc pas être réellement « nommée » avant d'atteindre ce stade(90). En clinique, nous encourageons souvent les médecins résidents à connaître les bébés par leurs prénoms afin de personnaliser les soins. Or pour les bébés juifs orthodoxes par exemple, le prénom ne sera donné donc connu qu'après le congé. Dans la tradition hindoue, la cérémonie lors de laquelle le nouveau-né reçoit son prénom s'appelle le Namakarana Samskara. Elle se déroule le 11ème jour après la naissance. Durant les 10 premiers jours de vie, la mère et son nouveau-né sont considérés comme impurs et sont isolés du reste de la famille et de la communauté. Le 11ème jour, la maison est nettoyée et le nouveau-né est bienvenu dans la communauté et présenté à Dieu(91). De façon plus contemporaine, certaines cultures ont des rites similaires. Les Japonais pratiquent le Oshichiya et nomment leurs nouveau-nés le septième jour après la naissance du bébé.

Étudier les rituels durant lesquels les nouveau-nés sont nommés est intéressant. C'est souvent suite à ces cérémonies que les bébés accèdent au plein statut moral dans leur communauté. Bien que certaines de ces coutumes soient anciennes, elles sont encore pratiquées aujourd'hui. Nous ne croyons pas pouvoir déduire le statut moral que les parents issus de ces communautés confèrent à leurs nouveau-nés sur la base de leur pratique de ces rituels. Mais minimalement, ceux-ci informent ou influencent la perception de la « personnalité » et de la valeur des nouveau-nés.

Il est aussi intéressant d'étudier les rituels reliés à la mort des nouveau-nés afin de mieux comprendre la perspective sociale des nouveau-nés, surtout afin de les comparer à des patients plus âgés. Ceux-ci historiquement ont toujours été bien différents des adultes. Revenons à la Rome antique. Les funérailles d'enfants avaient des règles qui variaient selon l'âge du défunt. Les jeunes enfants n'étaient pas incinérés, mais plutôt inhumés s'ils étaient morts avant la poussée des dents. Les démonstrations publiques du deuil augmentaient en fonction de l'âge de l'enfant. Pour les tout-petits, le deuil était jugé « partiel ». À partir de trois ans, on pouvait pleurer autant de mois que l'enfant avait vécu d'années. Les funérailles de nouveau-nés avaient lieu la nuit, rapidement, sans pleureuses(92). Chez les Juifs, un être humain est jugé devenir une personne viable si la durée de sa vie dépasse les 31 jours. Si un enfant décède avant 31 jours, il est considéré comme n'ayant pas vécu et il n'y a pas de rituels de deuil à proprement parler(93). Dans l'Hindouisme, les rituels ont lieu pour les enfants décédés, par contre ceux-ci sont enterrés et non pas incinérés étant donné qu'ils sont considérés comme des êtres purs(94).

L'infanticide est une pratique intéressante à considérer dans ce contexte. Historiquement, deux formes d'infanticides étaient pratiquées : le meurtre des nouveau-nés handicapés et le meurtre des enfants normaux. Les premiers cas rapportés d'infanticides remontent à 4000 ans avant Jésus-Christ chez les Babyloniens et les Chaldéens. Ils étaient très répandus dans les sociétés gréco-romaines et servaient plusieurs buts : le contrôle de la population, l'eugénisme, l'élimination d'enfants jugés illégitimes. Chez les Romains, les pères avaient l'autorité légale complète sur leur progéniture. En Égypte par contre, l'infanticide était interdit. L'infanticide sélectif basé sur le sexe a été largement répandu à une certaine époque en Chine et en Inde.

Des évidences d'infanticide ont été rapportées dans la majorité des civilisations et des continents. La pratique de l'infanticide persiste encore aujourd'hui : l'infanticide bien qu'illégal fait encore partie des coutumes dans certains pays de l'Afrique de l'ouest comme le Bénin(95), l'infanticide est pratiqué en Corée du Nord pour un certain groupe de femmes(96), et des cas sont fréquemment rapportés dans les pays comme l'Inde et le Pakistan.

Ces différents rituels ont des origines diverses, mais qui ont un lien évident avec la précarité des nouveau-nés à l'époque à laquelle ils ont débuté. La mortalité infantile dans la Rome antique par exemple est difficile à évaluer mais certains auteurs avancent qu'elle pouvait atteindre un enfant sur quatre. Heureusement, les statistiques démographiques ont changé. Mais l'influence de ces rituels et de ce qu'ils impliquent pour les nouveau-nés persiste à ce jour. Dans un contexte clinique de plus en plus diversifié sur le plan de l'origine des familles, il est important de réaliser que pour certaines d'entre elles, ces coutumes et leur signification demeurent d'actualité. Et mêmes pour les individus qui assurent s'être détachés de ces traditions, l'influence de celles-ci possiblement perdue.

6.2 Le statut moral du nouveau-né

6.2.1 La définition du statut moral

Quelqu'un ou quelque chose a un statut moral si le statut de cette personne ou de cette chose lui confère une importance significative en soi. En conséquent, nous devons nous préoccuper

et prendre en compte leurs intérêts, même si personne d'autre ne le fait(97). Ceci repose sur des caractéristiques intrinsèques propres aux personnes, et ne dépend pas des intérêts des autres. Pour certains, le statut moral est présent ou absent. Ainsi, les humains ont un statut moral, mais pas les animaux ou les objets, par exemple. C'est ce qui justifie que tuer un enfant n'est pas moralement acceptable, mais tuer une fourmi peut l'être. Légalement, notre système est conçu sur la présupposition que tous les êtres humains, peu importe leurs caractéristiques, ont le même statut moral. Ainsi, tous les êtres humains de notre société sont considérés égaux et bénéficient des mêmes droits. Pour d'autres auteurs, il existe des degrés de statut moral. Par exemple, au sein même de la race humaine, certains individus bénéficient d'un plein statut moral, alors que d'autres bénéficient d'un degré moindre. Ainsi, l'être humain peut bénéficier d'un statut moral complet, et certains animaux peuvent aussi en détenir un, mais de degré moindre(98). La distinction peut aussi être faite au sein même d'une catégorie, par exemple parmi les êtres humains. Bien que le statut moral de l'adulte compétent soit rarement ou jamais remis en question, ce n'est pas le cas par exemple des nouveau-nés anencéphales ou des adultes en coma neurovégétatif. Historiquement, le statut moral des femmes, des étrangers, des handicapés a été remis en question. Désormais, il est accepté que ces groupes jouissent d'un statut moral complet, mais le débat est lancé pour les cellules souches et les embryons.

Au-delà de sa valeur philosophique et intellectuelle, ce débat sur la définition du statut moral est important car en fonction des conclusions tirées, les impacts sociaux sont majeurs. Par exemple, la définition de ce statut moral est au cœur des débats portant sur les terminaisons de grossesse, sur la recherche impliquant des tissus fœtaux et embryonnaires, et sur le don

d'organe en cas d'anencéphalie. Selon notre interprétation du statut moral, par exemple en lien avec le fœtus, l'avortement devient moralement permissible ou éthiquement inacceptable. Dans le prochain chapitre, nous tenterons de démontrer les conséquences tangibles de ces interprétations variées.

6.2.2 Particularités associées à la définition du statut moral du nouveau-né

“WHEN DO WE BECOME A PERSON AND WHY SHOULD IT MATTER TO PEDIATRICIANS?”, Amelie Du Pont-Thibodeau and Annie Janvier, **Ethical Dilemmas for Critically Ill Babies**, Springer Netherlands, 2016, p. 13-24, reproduit avec permission

When do we become a person? Rarely has a question been so ethically charged and morally divisive. After decades of public debate and controversies, it remains largely unresolved. « At what point in its development does a being that is genetically human attain the moral and legal status associated with being a person? ». (99) Many definitions of personhood have been proposed, falling in the following seven categories. For some, a fetus becomes a person at a specific time: either after conception (99), when pain can be experienced (100), after viability, at the emergence of sentience or consciousness (101), or after birth (102). Other conceptions of personhood define a person in terms of human relationships. Some believe a mother (or a family) will decide when her child becomes a person (103); others, that a person exists only when there are specific interactions with others or the environment (104). The spectrum of divergent and conflicting opinions remains as wide as ever and continues to directly impact laws, politics, public policy and personal decision-making, whether it is by determining, for example, inheritance eligibility, abortion laws, as well as end of life care, reproductive technology and euthanasia. Also, with advancing new technologies, the boundaries of what was once thought as possible are now being pushed, forcing the redefinition of fundamental concepts such as what constitutes medical viability. With the emergence of new controversies, such as human embryo and stem cell research, what should society allow or

accept morally and or legally? The definition of personhood has vigorously been debated over the years as it is considered by many as being the main notion that can enable navigating these rough, murky waters and differentiate between what is moral and what is not. Various interpretations of who is a person will lead to different political and clinical decisions. For Warren, “It deserves emphasis that our difficulties in saying *when* a person begins are primarily the result of our inability to say *what* a person is. [...] The question which we must answer [...] is this: how are we to define the moral community, the set of beings with full and equal moral rights, such that we can decide whether a human fetus is a member of this community or not?»(100) For most contemporary authors, the issue of personhood must be resolved for debates relating to issues such as abortion to abate if not be put to rest. The present chapter will review the 7 various definitions of personhood, their effect on society and on the outcomes of neonates.

1. CONCEPTION

For many, personhood begins at conception. This view has been defended for centuries by institutions including the Roman Catholic Church considering that all life is sacred from conception until death. According to the Congregation for the Doctrine of the Faith, “Thus the fruit of human generation, from the first moment of its existence, that is to say from the moment the zygote has formed, demands the unconditional respect that is morally due to the human being in his bodily and spiritual totality. The human being is to be respected and treated as a person from the moment of conception; and therefore from that same moment his rights as a person must be recognized, among which in the first place is the inviolable right of

every innocent human being to life”(105). In Hinduism, ensoulment of the fetus occurs at conception according to the major tradition(106). The fetus or embryo therefore has personhood and deserves protection. In Judaism, “according to the Talmud, within the first forty days after conception the zygote is simply water”(107). The fetus seemingly only attains full person status at birth. Yet, abortion “is not viewed as a morally neutral matter of individual desire or an acceptable form of post facto birth control”(107). For Jehovah’s witnesses, life begins at conception, making abortion even if the life of the mother is in danger impermissible(108). Finally, in Islam, ensoulment of the fetus is thought to occur between 40 and 120 days of gestation(109).

More recently, the concept of personhood beginning at conception has been supported by a wide range of philosophers. For authors such as Larmer, «the potential for human consciousness is a sufficient condition of personhood and, since the fetus possesses this potential, it is a person.»(101) Many suggest that it is simply the potential to become conscious, which obligates us to protect the life of a human organism.(101)

This view of a fetus as a person has been largely influential in today’s political, ethical and legal beliefs. It has shaped how abortion is viewed by many, how societies legislate in this matter, and the precedents the courts have set. The conception of personhood at conception is also fundamental in the debate regarding the permissibility of in vitro fertilisation (IVF). It extends to how many embryos are created and used. During IVF, more than one embryo is frequently available to implant in the woman’s body. A physician can either implant all the generated embryos, which could be more than 3 or 4, or implant one or two and freeze the remaining embryos. By implanting more than one embryo, there are increased chances of a

successful pregnancy, but also increased risk of twins and triplets or higher order multiple births. Multiple births increase the risks to pregnant women and their children, mainly because of the increased risk of prematurity. It has been demonstrated that implanting a maximum of one or two embryos is safer for women and future children. But in countries where there is a tradition of considering that a person exists from the time of conception, freezing remaining embryos is considered either morally problematic or unacceptable, and may contravene their regulations, even if implanting all embryos represents significant health risks. Also during IVF, in cases of a multiple pregnancy with 3 or more embryos, selective abortions are often performed in some countries in order to “reduce” the pregnancy to a safer twin pregnancy. Selective reductions are not acceptable when personhood is defined as occurring at conception. This definition of personhood has led many jurisdictions to limit or prohibit embryo and stem cell research, and to introduce restrictions on IVF. For example, in Germany, a law was enacted in 1992 prohibiting all research on human embryos that is not carried out exclusively to preserve embryos or facilitate uterine transfer.(102) In addition, only a maximum of three embryos can be transferred, none of them can be frozen after a certain stage and all of the embryos produced have to be implanted. In Austria, as of 2008, preimplantation diagnosis (before implantation before IVF) remains forbidden on the basis that embryos cannot be used for anything but pregnancy. In Italy, a religious catholic country, only 3 eggs can be fertilized during IVF, even if more are generally produced after burdensome induction of ovulation. Also, all embryos have to be implanted and preimplantation diagnosis, genetic screening and pregnancy reduction is not permitted. In Switzerland, preimplantation diagnosis is explicitly forbidden.(102) In Finland, preimplantation diagnosis as well as the number of embryos transferred are not legally determined.(102) In Quebec, single embryo transfer is the

norm and all remaining embryos are either destroyed, donated to science, to another couple or frozen. In contrast, many are of the opinion that the embryo deserves respect, but that embryonic research -which can destroy the embryo- is permissible on embryos that were not implanted during IVF, unlike research on fetuses or neonates. Indeed, many ethical and scientific policies define a time during which embryonic research is acceptable, which is the first 14 days.(110) In the USA, the Ethics Advisory Board (EAB) was appointed in 1978 and had the mandate to review both IVF research and research using embryos resulting from IVF. The EAB did not support research on embryos older than 14 days but specified that embryos were different from persons: "The human embryo is entitled to profound respect; but this respect does not necessarily encompass the full legal and moral rights attributed to persons".(111) Therefore, large variations exist between legislations, in the treatment of infertile couples, research, and the care of pregnant women, impacting reproductive care and the outcome of children depending on the way personhood is conceived.

2. PAIN

A second answer to the question "when does the fetus become a person" has been when the fetus begins to feel pain. "The claim is that the sensory input stored by the brain (along with other types of input later in life) is the essential basis upon which our experiential individuality as persons rests»,(103) and «identifying the initiation of the coordinated functioning of these three aspects of the central nervous system of the fetus is the step that would convert this approach from a philosophical argument into a practical, pragmatic tool for promoting agreement among secularists regarding the time during gestation beyond which it is ethically

impermissible to abort a fetus except under special circumstances.»(103) The central nervous system appears during the third week post conception. The basic divisions of the brain start developing around a gestational age of 6 weeks. The first fetal movements have been detected at eight weeks of gestational age but these are believed to be automatic, not voluntary, under the control of the brainstem.(104) This potential pain perception has influenced certain laws and regulations in relation to embryonic research.

But pain is felt by all vertebrate animals. If pain is to define a person, then the cortical response to pain is what should be examined. Rudimentary cortical evoked responses to somatosensory stimulation can be recorded as early as 23-24 weeks of post-menstrual age (PMA), reflecting the commencing ingrowth of thalamocortical axons in the somatosensory cortex.(104) As far as pain perception goes, functional thalamocortical connections are required for more advanced conscious perception of pain, and these appear around 29-30 weeks of gestation. Already, these findings have had repercussions on the way current medicine is practiced. For example, analgesia is now given to fetuses before third trimester abortions in many centers. Most protocols include Fentanyl administration prior to the feticide in order to make sure the fetus does not suffer from the termination of pregnancy. In the United States, legislation requiring physicians to inform pregnant women, consulting for an abortion, about fetal pain and fetal anaesthesia is becoming more and more popular. States such as Nebraska, Idaho, Oklahoma, Kansas, Indiana and Alabama, have already passed laws to this effect.(112)

3. VIABILITY

Viability has been a frequent answer to the question of when a fetus becomes a person. This argument has been crucial most notably in key legal cases such as Roe vs. Wade in 1973, one of several famous and relevant American lawsuits. Jane Roe filed a suit to challenge the constitutionality of Texas abortion laws, which at that time made abortion a crime, except if it was performed to save the mother's life. The U.S. Supreme Court chose to sidestep the issue of when the fetus becomes a person because of the sheer complexity of the religious, ethical and philosophical implications. Instead, the majority of the Court decided to recognize the woman's fundamental right to privacy and to control her own body, including taking the decision to terminate a pregnancy. The majority of the Court acknowledged that although maternal health was important, protecting the potential of human life was also an important factor.(113) The state's interest in fetal life became compelling when it was declared viable, referring to the fetus' ability to be "capable of a meaningful life outside the mother's womb".(113) After viability, the protection of the fetus becomes at least equally as important as the protection of the mother's health. This has allowed the legal prohibition of third trimester abortions except when medically necessary for the mother in many American States, and has greatly influenced all cases pertaining to unborn children, for example on statutes of wrongful death and homicide.(113)

So far, the threshold for viability has been set around the beginning of the third trimester. But viability cannot be exactly defined and there is a great deal of variation of outcomes for extreme preterm infants born "at the threshold of viability". A fetus at 23-weeks of gestation has characteristics compatible with life outside the womb, however, it does not survive alone. In order to survive, it needs a full neonatal intensive care unit with, minimally, incubators,

ventilator support, and parenteral nutrition. Thus early third trimester viability is extremely technology-dependant. Viability in rich countries vs. poor countries is therefore not equivalent. Does that mean that at the same gestational age and with the same characteristics, a fetus in an American womb is more a person than a fetus in an African womb? Should the socio-economic context have such a radical influence on moral rights and protection?

Survival becomes a possibility in high resource countries at around 22 weeks of gestation, even though the chances of survival are poor; but other fetal characteristics will increase potential survival: girls survive more than boys, singletons more than twins, etc. Should personhood be different for girls and boys, twins? Also, in rich countries, there are large variations of practice for neonates at the threshold of viability. Survival and consequently viability will be influenced by the attitudes of physicians and professional guidelines. Some countries -such as Japan- are more interventionist and offer life sustaining interventions at 22 weeks of gestational age. Others -such as the Netherlands - generally do not intervene before 25 weeks of GA. Should public policy, or professional guidelines determine when one becomes a person? Should viability be defined by the youngest baby ever saved? Will there come a time where maintaining life outside the womb from conception will be possible, rendering abortion at any stage not permissible on moral and legal grounds? Viability therefore constitutes a quite complex -and messy- threshold for personhood.

4. SENTIENCE AND CONSCIOUSNESS

Some authors define personhood as the emergence of sentience and consciousness. This may comprise wakefulness, somato-sensory awareness, hearing and seeing, awareness of smell, self-awareness, purposeful behaviour, memory, internal perspective and language. There is some evidence that neonates can display all these components and signs of consciousness.(114) Neonates remember rhythmic sounds and vowels which they have been exposed to during fetal life. At the end of the 23rd post menstrual week, there is an accumulation of thalamocortical afferents in the superficial part of the subplate zone: it has been documented in the visual, frontal, auditory and somatosensory cortex.(115, 116) Sounds can be heard from around 23 weeks of gestational age. A histological study of prestriate visual projections in human fetuses, each at a different developmental age, concluded that thalamic projections reach the visual cortex at 21 to 25 weeks' of post conceptional age (approximately 23-27 weeks' gestational, post-menstrual, age).(115-117) Based on the above findings, at around 6 months of age, the fetus is able to receive stimuli and inputs from the environment around him. The fetus becoming self-aware, being able to have perceptions and reactions is also known as fetal sentience.

For some authors, this consciousness defines human viability and for others personhood. This theory of personhood is appealing for many reasons. It is demonstrable and offers some conceptual stability. Contrary to the viability argument which we have discussed, fetal development is universally similar and there is no reason to believe that significant variability exists between individuals of different socio-economic background, or countries. Also, while a viability threshold is unequal and constantly redefined by advancing technologies, the timeframe of brain development appears more stable and less likely to change with time.

Finally, the supporters of fetal sentience as the criterion believe that this more scientific approach can be more easily accepted by all and truly provide a unified answer to the question when does one become a person.

5. BIRTH

In a book called “The Moral Relevance of Birth” Warren argues that “birth remains the most appropriate place to mark the existence of a new legal person».(118) But for many philosophers, birth is irrelevant to moral rights; for some, those rights are present ever since conception, whether the individual is in the womb or outside it is not truly relevant. For others, these rights are acquired at viability or when the fetus becomes sentient, once again events that are much anterior to birth in most cases. Those who believe that birth makes no difference, point out the conflict between the currently occurring late abortions and prohibited neonatal infanticides. For those who accept third trimester abortions, there has to be a significance for birth or how else to differentiate between abortion and infanticide? Although some authors have argued that both are acceptable to a certain degree.(119)

Legally, in many countries, at the moment of birth a fetus becomes a person. At the moment of birth, the baby becomes a full-fledged citizen, endowed with legal rights that should be no different from any other citizen. In the medical context, these rights are said to be identical to those of any other vulnerable incompetent patient who lacks decision-making capacity. This instantaneous transition from intrauterine to extrauterine life has major legal implications. For example, in Canada, maternal autonomy is paramount:(120) The fetus’ only rights are to

inherit, if born alive, or to sue for avoidable insults that may have been experienced during the pregnancy.(121) On the other hand, the fetus has no right to life. Indeed, abortion at any gestational age is not illegal in Canada (*R. v. Morgentaler*) and, moreover, a father cannot legally prevent the abortion of the fetus by the woman carrying his baby (*Tremblay v. Daigle*). If a fetus dies *in utero* from professional negligence (*Sullivan and LeMay v. The Queen*), or because of battery to the woman, the person causing the injury can be prosecuted for the injury to the woman, but cannot be charged with murder or homicide, because the fetus (even past the expected delivery date) is not considered to be a person.(122) In Canada, as the highest judicial Court has repeatedly ruled, despite varying beliefs about when the fetus becomes a person, that a fetus acquires legal rights only if born and born alive. The same appears true in many other countries but is not universal. A growing number of legal cases throughout the USA show a trend toward forced treatment of pregnant women: for example forced caesarean sections, mandatory diet restrictions, or incarceration for failing to follow medical advice. In countries where a fetus becomes a person at birth, certain paradoxes are observed. A fetus close to term can die *in utero* because his mother refuses a fetal transfusion (a somewhat simple technique that causes minimal harm to the woman) but if that same baby had been born, transfusion would be legally enforced to avoid death or significant harm to the child. Moral opinion on the forced treatment of pregnant women is sharply divided. All parties agree that every person has a fundamental right to freedom of choice and control over their own body. But those who support forced treatment on pregnant women over their will –for example in cases of drug abuse or anti-HIV medication- claim that society has a duty to protect the future child. Is the future child a person that has equal rights to his mother? The

answer to this question will change the ethical analysis of forced treatment of pregnant women.

6. HUMAN RELATIONSHIPS

Feminists over time have influenced the personhood debate, especially in connection to abortion. While some feminists(100, 118, 123) defend views comparable to non-feminist philosophers, others, such as Sherwin, have defended the “relational” conception of personhood.(124) This view rests on the relationship between the mother and the fetus, recognizing that it is the only direct relationship the fetus can have: “Their very existence is relationally defined, reflecting their development within particular women’s bodies: that relationship gives those women reason to be concerned about them.”(125) Feminists consider the actual concerns that women face in their decision-making, such as their feelings about the fetus, relationships with partners and other children, and their other obligations. (125) For many feminists, the fetus exists only in relationship to its mother, on whom they are entirely dependent for survival. Basically, the feminist position is that the woman carrying a fetus decides when it becomes a person: “Hence the specific status of a fetus will vary according to the value ascribed to it by the woman in whose womb it is developing. »(124) As Sherwin adds, “the fact that fetal lives can neither be sustained nor destroyed without affecting the women who support them implies that whatever value others may attach to fetuses generally or to specific fetuses individually should not be allowed to outweigh the ranking that is assigned to them by the pregnant women themselves”.(125) In practice, we can see many examples of this relationship. Some women who became pregnant after a rape never consider

their fetus to be a person and request abortion, or they do not consider their neonate a person either and the baby is given for adoption. Conversely, some women who have recurrent miscarriages may say, “I had 4 children and they all died”. Others immediately after a positive pregnancy test name their child, speak to him and imagine many aspects of his life with their family. For feminists, personhood becomes a matter of social relationship.

These relationships will be influenced by culture and the fragility of the life of fetuses or neonates. Some women only speak about their pregnancies, their child and only give a name after 12 weeks of pregnancy, or after the first ultrasound, or after the genetic screening tests results are normal. They consider their fetus to be a person when their life is unlikely to be threatened. In some countries, babies who don't breathe immediately after birth are left to die; many are full term babies who need only a few assisted breaths to survive intact. Five to ten percent of babies are born this way and need a little help to start breathing on their own. In many countries, a neonate receives the same urgent care as older children when he has “declared himself” and breathed at birth. In some cultures, children get named after their first weeks of life, when their survival is more likely. In all these cases, neonates seem to be considered morally different from older children. Neonates seem to become persons -who have the same rights as any other citizen- at a different time depending on the likelihood they will survive and they will develop relationship with others.

7. UNIQUE HUMAN CHARACTERISTICS

For some, a human being needs to demonstrate certain unique characteristics to be considered a person. This theory of personhood has been defended by some philosophers. For Peter Singer, one of the most influential contemporary philosophers, a neonate becomes a person when he can start interacting with his environment. Peter Singer is not against abortion because in his view, being alive and being human does not automatically give an embryo or fetus a right to life. For Peter Singer, an embryo, a fetus and even a neonate are not yet persons because they lack essential characteristics of personhood, mainly rationality, autonomy, and self-consciousness. For this reason, Singer is not against infanticide nor the killing of disabled neonates or humans who lack personhood, such as very disabled humans.

Other philosophers, such as Tooley and MacMahan also believe that personhood is gradual and does not occur at birth and rather during infancy. For them, a neonate becomes a person at a certain time in development, for example when smiling or with the emergence of language. This view has been widely criticized by other academics who claim that even humans lacking these characteristics retain the same moral significance: merely being a member of a species that typically exhibits rationality is enough. Singer disagrees that all human beings have superior value and calls this attitude Speciesism. On the other hand, he believes that persons (the way he defines a person) are equal, but that non-human animals also have value. For example, he is against eating meat from animals that were made to lead a miserable life so that their flesh can be used by humans at the lowest possible cost.

Although this extreme personhood view has been widely criticized, there is some evidence that some human beings are not treated like others. Savulescu has pointed out that this fact:

many think that humans who lack the most important mental characteristics possessed by typical adult humans also lack some of their rights, claims and interests. For example, it is widely accepted that brain-dead humans in intensive-care units have significantly weaker claims to life-sustaining treatment than ordinary living persons -when the brain dies, everything that matters in the life of that person also seems to die. We procure organs from brain dead humans and give them to other human beings. Also, even permanently unconscious persons who do not meet the criteria for brain death are often thought to have lost many of their interests and may have life-sustaining interventions withheld or withdrawn.

Are neonates considered persons? Legally, they are. But are they “full persons”? Historically, they have not always benefited from the same protection older or adult patients have. In many societies, infanticide was tolerated if not permitted whereas homicide was banned. Considering a category of human beings as being lesser persons than others leads to many injustices. Other groups have been heavily discriminated in the past, some being granted a second-tier citizen status, others not being considered as persons at all: women, homosexuals, the disabled, Jews and African-Americans for example. Many things have improved over the last few decades, although some discrimination remains.

Despite vivid criticisms of Singer’s opinions, we have observed over the years in our practice and empirically demonstrated in our research that neonates are treated differently compared to older persons. This may be observed in unequal pain treatment, variations of practice for neonates, and end of life decisions. Also, economic analysis of neonatal intensive care has often emphasized how expensive it is, when in fact it is much better value for money than

adult intensive care(126). Neonatal mortality in low-resource countries is staggeringly higher than in wealthier nations, but until recently there were no worldwide attempts to improve this situation, all of the resources being put into saving older children or ‘productive’ adults. Factors that have contributed to the perceived difference in moral status between neonates and older persons are many, probably including religious rites and previously high infant mortality rates. Until the late twentieth century, most parents experienced the death of at least one newborn or infant. Is it possible that to survive the commonness of infant death, some protective cultural and emotional mechanisms in the form of moral (philosophic) differentiation of the newborn from older people might have been selected? Waring, a philosopher, remarks that the way we value a person is indicated by how we react to their death. Indeed, feelings of tragedy, loss and sharp regret are often more appropriate responses to the deaths of younger people than of very old persons.(127) One might view the deaths of older people as tolerable. Indeed, it is not rare to hear that it is “better this way, nature took its course,” that “he/she lived long enough” for an older individual.” Similar statements such as “it is better this way, nature took its course” and “at least he/she did not suffer too long” are also said for the death of neonates. Maybe a newborn infant has not yet lived long enough to justify feelings of tragedy and regret; do we have feelings of detachment that desensitize us to the loss of newborns? Our society has evolved and individuals with disabilities and psychiatric illness are now integrated in society, although at times imperfectly. We can see wheelchair ramps, seeing-eye dogs are admitted in all public institutions, it is now possible for persons who live with deafness or with other limitations to find a job. Will our society evolve to find the death of premature infants less acceptable, the way we now find that the death of a 3-year-old “is not supposed to happen, a tragedy”?

In conclusion, the debate on personhood and everything that it influences is far from resolved. For example, the right to abortion is still being heavily debated in many countries. All of the tentative definitions of personhood described in this chapter have potential impacts on reproductive research, on fundamental research which uses embryos or embryonic stem cells, on abortion laws, on reproductive technologies and their regulation, on the number of implanted embryos during IVF, and on procedures and programs for prenatal diagnosis, to name only a few. All of these areas of modern life affect women and children and can have a huge impact on their health outcomes. In addition, there is mounting evidence that, even when we move past the fetus and the abortion debate, there still seems to be differential treatment between neonates and older patients, in society and among health care professionals. While potentially not providing us with a complete answer, the detailed analysis of the personhood concept and how it is applied in various cultures will most likely allow further analysis and a better understanding why neonates and older children are treated differently, why neonates might be perceived as being a different kind of person. By having a better understanding of the moral status of neonates, its origin, legitimacy, and moral acceptability, we hope to enable easier navigation through these controversial issues. Issues such as abortion, a pregnant woman's right to refuse treatment, her responsibilities and liabilities during pregnancy may be made illuminated, not to mention the new issues that will arise from future technological and societal advances. It may be that our evolutionary "wiring" has made us inherently tolerant of neonatal deaths, and the relative devaluation of the newborn could be more nature than nurture. Considerations of personhood will continue to be important for decision-making for

fetuses, pregnant women and newborns. Will morality of our society change in regards to the relative devaluation of neonates? Only time will tell.

6.3 Pourquoi traite-t-on le nouveau-né de manière différente?

Article accepté avec revision majeure par the Journal of Pediatrics en mars 2017. Il s'agit de la version originale, avant les modifications faites en vue de sa publication.

“Babies are a different kind of persons”: Provider perspectives on the best interest principle and the relative value of neonates

Amélie Dupont-Thibodeau MD PhD cand^{1,2,3}, Jade Hindié MD³, Claude-Julie Bourque PhD², and Annie Janvier MD PhD^{1,2,3}.

(1) Division of Neonatology and palliative care unit, CHU Sainte-Justine, Montréal,

Québec, Canada

(2) Clinical Ethics Unit and Centre de recherche du CHU Sainte-Justine, Montréal, Québec,

Canada

(3) Department of pediatrics, Université de Montréal, Montréal, Québec, Canada

Funding: this project was funded by a start-up grant from the FRQS (Fédération de Recherche en Santé du Québec).

Potential conflicts of interest: The authors have no conflicts of interest relevant to this article to disclose.

Abbreviations:

LSI: life sustaining interventions

NICU: neonatal intensive care unit

Abstract

Background: In empirical studies, neonates are devalued compared to older patients; the best interest principle is not followed for this population.

Methods: Pediatric providers were surveyed regarding 6 critically ill patient scenarios of different ages with outcomes explicitly described. They were asked 1) if resuscitation was in patients' best interest; 2) whether they would accept families' wishes for comfort care; 3) to rank patients (order of resuscitation). In a structured interview, participants explained 1) how they evaluated best interests' and ranking order; 2) their answers for neonates (if indicated, when devaluation occurred). Interviews were audiotaped; transcripts were analyzed using mixed thematic analysis and mixed methods.

Results: Eighty pediatric residents and neonatal nurses participated (response rate 74%). When evaluating best interests and deciding ranking-order, participants considered: 1) patient characteristics (96%), 2) family's wishes and desires (81%), 3) disease characteristics (74%), 4) personal experience/biases (85%), and 5) societal perspectives. These factors were not in favor of neonates, who were seen as different kind of people with different conditions; 85% reported having negative biases towards neonates and 60% misinterpreted/distrusted neonatal outcomes. All participants devalued neonates. They invoked additional themes to explain/justify their answers for newborns: personhood and lack of relationships/attachment (73%); prioritization of family's best interest and social acceptability of death (36%). When these preconceptions were pointed out, 70% reported they would change their answers in favor of neonates.

Conclusion: Resuscitation decisions for neonates are made based on many factors other than traditional indicators of benefit, which may explain their relative devaluation.

Technological progress has enabled many more patients to survive after a critical illness. However, life threatening conditions and medical interventions often lead to potentially serious sequelae and complex decision-making involving withholding or withdrawal of life-sustaining interventions (LSI). In industrialized countries, the majority of pediatric deaths occur in intensive care units(64, 82), most often after a decision to limit LSI(55, 57, 67, 128, 129). These decisions are generally taken by the parents of sick children with their healthcare providers. Ethically and legally, these decisions should be based on an evaluation of what is in the best interest of incompetent patients.

Empirical investigations have demonstrated that when these life-and-death decisions are taken for neonates, the best interest principle is often not followed(11-14, 130-135). Although many physicians may evaluate that resuscitation is in the best interest of a preterm infant, a much larger proportion estimate that resuscitation is in the best interest of older patients with similar, or even worse, outcomes(11, 12, 14, 132). Furthermore, providers rank neonates after other patients, and are more frequently willing to withhold resuscitation from sick neonates than from older patients with similar or worse prognoses, despite estimating that resuscitation is in their best interest (11, 12, 14, 132). These previous studies have not investigated why this relative devaluation of neonates occurs. The goal of this study was to investigate how pediatric providers take such life-and-death decisions, and if and why their decision-making was different for neonates.

METHODS

Participants were asked to answer a questionnaire, which set the stage for a subsequent structured interview, which addressed the main goal of the study.

Questionnaire

The questionnaire, previously used and validated, was distributed amongst participants (11-13, 15, 136-138). Six scenarios of critically ill incompetent patients of different ages were presented. All arrived alone by ambulance. Outcomes were explicitly described. Four patients had a survival of 50%: if they survived, 50% would be unimpaired, 25% mildly or moderately impaired, and 25% severely impaired. These included a 24-week-gestation premature, a term infant with a congenital anomaly, a 2-month-old with meningitis/shock and a 50-year-old who suffered a motor-vehicle accident. The fifth scenario was a severely disabled 7-year-old (cerebral palsy, deafness, learning disability, hyperactivity) with a new head trauma, with 50% survival and 50% risk of having further impairments. The last scenario was a 35-year-old with brain cancer, with 5% survival and 100% risk of disability with interventions (surgery, radio and chemotherapy).

After each scenario, the following questions were asked:

- Do you think resuscitation and admission to intensive care is in the patient's best interest?

- If the family asks you not to resuscitate, would you respect their decision and give comfort care?
- In which order would you resuscitate patients if all needed intervention at the same time?

Structured interview

After the questionnaire, all participants were asked the following questions:

- How did you evaluate the best interest of these patients?
- How did you decide the order of resuscitation?

Differential treatment of neonates occurred when participants: 1) triaged neonates after other patients or 2) evaluated resuscitation was not in their best interest when evaluating it was in the best interest of other patients with similar or worse outcomes or 3) evaluated resuscitation was in their best interest but accepted a decision for comfort care.

Participants were asked additional questions (when indicated):

- Why do you think resuscitation is in the best interest of [*patient*], but not in the best interest of the [*neonatal scenario(s)*]?
- Why did you rank the premature/term neonate(s) after [*other patient(s)*]?
- You evaluate resuscitation is in the best interest of the [*neonate(s)*], but you accepted to give comfort care, why?

- The 7-year-old in the scenario was designed to be a “bad outcome” preemie. If I told you that less than 5% of 24-week preemies are as disabled at the 7-year-old in the scenario, would you change your answers?

Participants

Two target groups of healthcare providers were approached in a tertiary university-affiliated academic center: pediatric residents and full-time neonatal nurses. Sainte-Justine hospital has a 65 bed neonatal intensive care unit.

All answers to the open ended questions were transcribed. Answers were analyzed using NVivo 9 software (QSR international)(139-141). After reading all the transcripts, using a thematic qualitative content analysis approach, three investigators developed themes and subthemes independently. They then finalized together the main themes and sub-themes that would be used for coding (nodes and sub-nodes)(141). Each code was strictly defined to ensure thoroughness. Coding of all interviews was then performed independently by two investigators. To ensure reliability, 85% percentage agreement between coders was aimed for. All discrepancies in coding were resolved by consensus. Quantitative descriptions of participants’ answers/coding were also described.

The project was approved by the Sainte-Justine Internal Review Board. The first sheet of the questionnaire was an informed consent form.

RESULTS

Eighty healthcare providers agreed to participate. Amongst the 50 residents, 88% were women, 68% were < 30 years-old and 30% had children. Among nurses, 96% were female, 64% were < 30-years-old, 11% were over 50-years-old, and 18% had children.

QUESTIONNAIRE

The 2-month old and the 7-year old had the largest proportion of respondents stating that resuscitation was in their best interest compared to the other patients (Figure 1).

The 2-month-old, 7-year-old and 50-year-old had the smallest proportion of respondent accepting comfort care, compared to other patients. The vast majority accepted comfort care for the neonates: 92% for the 24-week-preterm and 72% for the term infant, more than for other patients, except the 35-year-old ((Figure 1).

The median ranking was the following:

1st: 2-month-old

2nd: term neonate

3rd: 7-year-old

4th: preterm infant

5th: 50-year-old

6th: 35-year-old

Amongst participants, 86% placed the 2-month-old and 42% placed the 7-year-old in the first two positions, and 57% placed the 24-week-preterm in one of the last 3 positions.

STRUCTURED INTERVIEWS

When explaining how they determined the patients' best interest, respondents stated reasons pertaining to six large categories: 1) patient characteristics (96%), 2) family's wishes/desires (81%), 3) disease characteristics (74%), 4) personal experience/biases (85%), 5) societal perspectives (36%). All participants treated neonates differently in their questionnaire answers and explained/justified their answers (Table 1).

1) Patient characteristics:

Survival (70%), and quality of life (65%) were frequently mentioned as influencing decision-making throughout the paper questionnaire:

“Yes he has handicaps, learning difficulties and a corrected deafness, but I didn't find that his multiple handicaps impacted his quality of life”.

Prior level of functioning was also important for 78% of the respondents:

“He's not in a wheelchair, and doesn't have a feeding tube, a urinary catheter, and no quality of life, and will not be able to move. He can move”.

Age was also important for 54% of participants, generally favoring children over adult scenarios:

“Children have not lived as long as adults, they have a right to live to be adults.”

Additional characteristics for neonates

When justifying their answers for neonates, personhood/attachment was invoked by 76% of participants:

“A seven-year-old is more of a person than a neonate”;

“Babies are different kind of persons.”

“Because he had a life before, it makes want to save him more”;

“When a baby is born, his life has not started yet”;

“A child, an adult, they have a past. People are attached to them”;

“The contact of parents with a seven-year-old is more established than with a neonate or a preemie”;

“For two months, the parents have had the chance to know him, more than the neonate”;

“He has learned to love people, he has an attachment for the world, not babies”;

“For a family, you can make another 24-weeker. You cannot make another 7-y old, with the same characteristics”;

“It’s easier to grieve a child you don’t know than a child you know”.

“It’s easier for me personally to grieve a child that I haven’t known as long”.

2) Family’s wishes and desires

Family desires and the impact of the patient’s survival were mentioned by 81% of participants:

“I consider the future quality of life the patient will have, the way the family perceives the quality of life and if they are willing to put up with disability and its consequences”;

“The parents have lived with him for 7 years. They are used to him being like that and love him that way”;

Considerations for neonates: family’s best interests

Respondents invoked the family’s best interests when explaining why they accepted comfort care for neonates, even when they thought resuscitations was in their best interest:

“When a baby has just been born, his life has not started. I will therefore listen to the parents first and foremost”;

“I think a child’s best interest follows his attachment to his parents, the parents’ interests”;

“There are things we do that are not in the best interest of the patient but in the best interest of the family”.

3) Disease characteristics

Disease characteristics were addressed by 74% of participants. More specifically, participants discussed disease treatability and reversibility (50%), the burden of the disease (35%), and the related uncertainty (36%):

“The 2 month old has a reversible condition meaning that the danger to his life is immediate”;

“Meningitis is something acute we can completely cure”;

Different characteristics of neonatal conditions

Participants explained why prior level of functioning, reversibility and curability was difficult to evaluate for neonates. Neonatal conditions were considered to be different kinds of conditions for which burden of care was larger:

“Infection is more curable, versus the congenital malformation: that’s something innate not acquired, so of course it is more serious”;

“The neonates don’t have a baseline, they are born sick”;

“The children were normal before they were sick, not the neonates”;

“It’s just a different kind of disease. It is not curable. We try to do what should have happened in the uterus. We try to avoid iatrogenic complications, we try to avoid giving diseases”;

“The 24-weeker, he will go through so many things during his stay in the ICU, and it can change at any moment”;

“I find it much worse for a baby to have one out of two chances of dying after 6 months of intensive care when he hasn’t known anything else than for a 50-year-old to go through 6 months of intensive care and then die”.

4) Personal experience/biases of respondent

Personal experience and biases were invoked by 85% of participants:

“There is a lot of subjectivity when answering these questions. I am in pediatrics and I am a mother. I placed children first and adults after.”;

“I’ve ranked them based on what I would want if it happened to me”;

“There are a lot of gut feelings in these judgments”;

Negative biases towards neonates

The principal biased mentioned was a negative bias towards neonates:

“I’m extremely marked by the babies I take care of and that don’t do so well”;

“It seems like we see all the bad stuff”;

“I wouldn’t be able to live with such a young baby and the long term consequences that come with them”;

“Regarding the 24 weeker, you see, if I had one, I would deliver at home”.

This lead to a distrust of misinterpretation of given statistics by 57% of nurses participating in the project, but only by 1 resident:

“The difference between my babies and babies in the PICU, is that I know that my babies will be sick and have difficulty surviving”;

“When I saw 24 weeks, I did not read the rest of the text. I just thought: they have bad outcomes”;

“The 2-month-old and the term baby has more chances than the 24-weekers even with the same prognosis”;

“A 24-weeker just has less chances than anyone older”.

“I don’t believe the statistics”;

“Older kids are stronger, have a better immune system. They can fight”;

5) Societal perspective

Society, nature and the legal system were discussed by 36% of participants, generally to justify accepting comfort care for neonates and not for other patients:

“At 24 weeks, the woman is allowed to abort. It’s not like he’s a person yet”;

“One is as bad as the other, but it goes with what as a society we find acceptable to do or not”;

“Legally, you are allowed to not resuscitate a 24 weeker”;

Change of mind

When participants were asked if they would change their mind knowing that only 5% of premature 24-weekers were at risk of becoming as disabled as the 7-year-old patient, 70% of participants answered positively:

“Yes because it is not a severe handicap. It might be for the parents’ daily life but it is not a reason not to resuscitate. I would value him more than the 7-year-old”;

“Yes of course [...] he has more chances of living normally than the one who is already there, therefore it would change my perspective”;

“Yes. I have the impression that a 24-weeker will have severe deficits with many many many problems. I have to change this perception”.

DISCUSSION

Decisions on when to withhold/withdraw LSIs in critically ill patients are amongst the most difficult decisions in medicine. When taking these decisions, neonates are valued differently.(11, 12, 132, 133, 136-138, 142) To our knowledge, this is the first study investigating why.

Our first finding is that neonates were treated differently to older patients by participants. Neonates were often ranked after other patients with similar or worse outcomes. Also, the best interest principle was followed for all the patients, except for the neonates. Indeed, despite believing that resuscitation was in their best interests, the majority accepted comfort care for them. This finding has already been demonstrated in other studies(11-13, 15, 137, 138, 143).

Our second finding is that providers consider a number of important factors when taking life-or-death decisions for incompetent patients. Some of these factors are traditionally used in medicine to evaluate risks and benefits of interventions: survival, quality of life, nature/reversibility/curability of the disease, burden of care and family's wishes.

Our third finding is that respondents reported that some factors used to evaluate best interests of patients were difficult to use for neonates (Figure 1). Newborns do not have a pre-existing prior level of functioning enabling us to assess their previous quality of life. Prematurity is indeed a different condition to many occurring later in life: it is not reversible nor curable. Additional themes were invoked for neonates. The majority used personhood and attachment for decision-making, stating that babies were different kind of persons. Neonates lack any established social relationships, time-tested family ties, and memories. Attachment to a baby was often perceived as being less intense/important than attachment to older children/adults. Their death was also perceived differently. Life-and-death decisions for neonates were often considered to be in the realm of reproductive choice; providers were more likely to follow the best interest of the family than the best interest of the patient (Figure 1).

Our fourth finding is that providers reported that many personal biases and experiences influence these decisions, such as their profession, and being a parent. They reported a negative bias towards neonates. One could hypothesize that being exposed to the sickest neonates, not being in significant contact with the less ill ones, and not being able to follow these children as they grow up might contribute to this phenomenon. This lack of knowledge and understanding might be an important contributor to the moral distress experienced by some neonatal providers. It is our responsibility to recognize this and to put in place mechanisms that address it. While we often focus on teamwork and debriefing following difficult situations, we should also make a conscious effort to share successes with all members of our team.

Finally, when providers were exposed to these preconceptions, the majority reported they would change their answers in favor of neonates. This may be because providers were unaware of outcomes, as has been previously reported. It is possible that the questionnaire provided a substrate for ethical reasoning, and the interview was done in a safe environment. Participants were able to confront certain ideas/perspectives, reflect on the morality of their own valuations and acknowledge certain biases. This questionnaire could be used as an accessible teaching tool promoting self-reflexivity amongst providers.

There are many limitations to this study. We were unable to interview all pediatric providers. Also, we only interviewed nurses working full time. It is possible that had a different target groups been interviewed, answers would have varied. On the other hand, we were reassured

that our target group of respondents had similar questionnaire answers to participants in 6 other countries in different settings.

Physicians will continue to have to make life-and-death decisions for and with their patients/families. In pediatrics, the best interest of patients is important to consider when taking these decisions. Policy statements pertaining to decision-making before a preterm birth often state survival and disability as justifications for optional intervention; but thresholds recommended for non-intervention in preterm infants are not consistent with thresholds set in older individuals with comparable risks of death/disability(11, 12, 138, 142). Evaluating an individual's best interest indirectly requires placing a value on his life. The results of our study are consistent with the literature: neonates are valued differently to older patients. It is important to be aware of these considerations as they likely influence decision-making for our most vulnerable patients. The first step towards ethical care of neonates is to acknowledge and recognize these biases and perspectives and examine their moral validity.

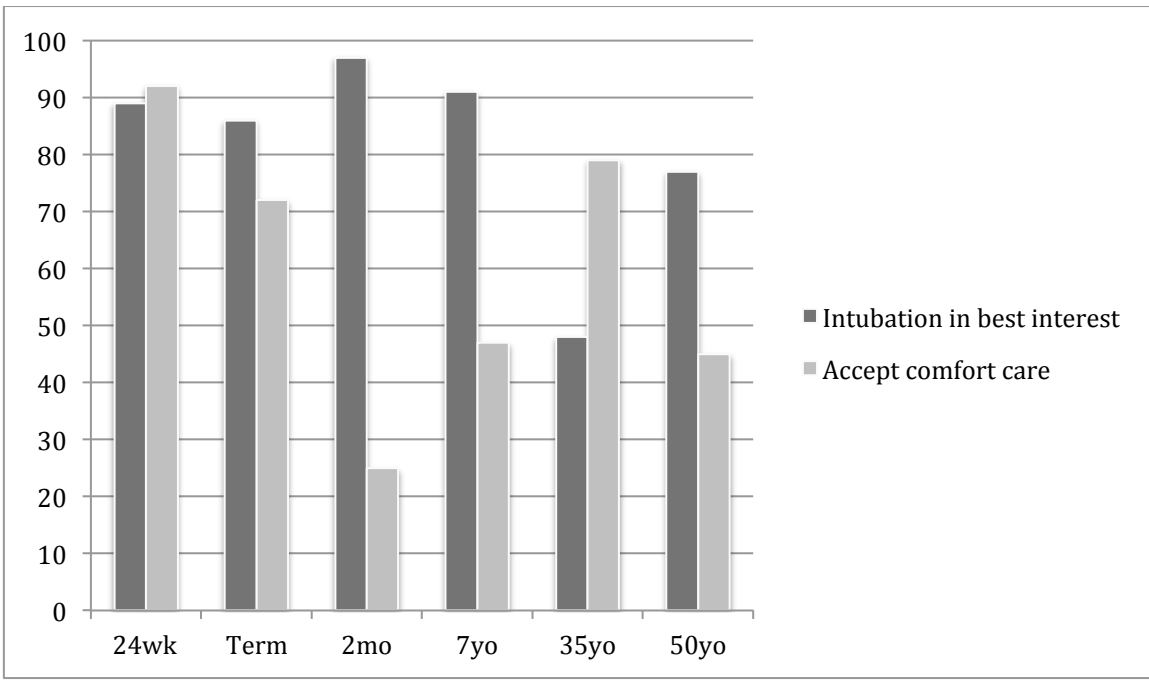


Figure 1: Proportion of respondents who estimated resuscitation was in the best interest of patients vs. proportion of respondents who accepted comfort care at the family's request. Patients are presented from the youngest to the oldest.

24wk: 24 week gestation preterm infant; mo.: month old; yo: year old.

	ALL PATIENTS	ADDITIONAL CONSIDERATIONS FOR NEONATES
PATIENT CHARACTERISTICS	Survival Quality of life Prior level of functioning Age	Lack of personhood Attachment: no pre-existing social and personal relationships Grieving easier for neonates
FAMILY'S WISHES/DESIRES	Impact of future condition on family	Family's best interest used for decision-making
DISEASE CHARACTERISTICS	Treatability/curability Reversibility to prior level of functioning Burden of care	Neonatal conditions are not curable; prematurity is a different disease Conditions not reversible Worse burden of care
EXPERIENCES/BIASES OF PARTICIPANTS	Past experiences with similar diseases Fair innings (children before adults)	Negative bias towards neonates Misinterpretation/distrust of given outcomes

	Being a pediatric provider and/or a parent	
SOCIETAL PERSPECTIVE		<p>Legal permissibility of abortion at the same gestational age</p> <p>Position statements regarding preterm infants</p>

Table 1: Themes invoked by respondents when evaluating the best interests of patients and deciding ranking order.

Chapitre 7 – Conclusion

Tous les individus de notre société jouissent du même statut légal et des mêmes droits qui s’y rattachent. Il en est de même pour les nouveau-nés. Or bien qu’ayant un statut légal identique, pour bien des individus, les nouveau-nés ne détiennent pas le même statut moral que les personnes plus âgées. Historiquement, ils ont toujours présenté un taux de mortalité plus élevé que le restant de la population. Ils ont conséquemment des rites d’introduction à la société et de décès différents. De nos jours, ils sont jugés différemment car ils n’ont pas autant de relations sociales préexistantes, l’attachement que l’on ressent envers eux est perçu comme étant différent et moins intense ou important, ils n’ont pas d’histoire, et leur mort peut être vécue plus facilement que celle de patients plus âgés. De plus, le vécu et les valeurs personnelles, en plus de l’expérience professionnelle des travailleurs de la santé, semblent défavoriser les nouveau-nés. Ainsi, même dans des contextes d’égalité ou de supériorité des pronostics de future qualité de vie et de survie, ils sont réanimés après des patients plus âgés. Même si une majorité de professionnels de la santé croit qu’il est dans le meilleur intérêt des nouveau-nés d’être réanimés, une grande proportion est aussi prête à leur offrir des soins de confort à la demande de leurs parents, ce qui n’est pas le cas pour les autres patients. Le meilleur intérêt de la famille est souvent perçu comme le meilleur intérêt du nouveau-né, alors que les deux ne sont pas nécessairement synonymes lorsqu’il s’agit de déterminer le meilleur intérêt de patients plus âgés.

Certains pourraient débattre que les perspectives des professionnels de la santé dans un questionnaire ne sont pas représentatives de la pratique médicale, et qu’il s’agit d’une limite

importante de ce type de méthodologie. Or, les répercussions de cette perception des nouveau-nés pour leur prise en charge sont bien tangibles. La réanimation des nouveau-nés est découragée à certains âges gestationnels alors que le pronostic de survie et de qualité de vie est similaire et souvent meilleur à celui des enfants faisant des arrêts cardiaques en dehors de l'hôpital, circonstances dans lesquelles la réanimation est encouragée pour tous. Le mode de décision le plus fréquent en néonatalogie est l'arrêt des soins intensifs en raison de qualité de vie future, mais en présence de stabilité physiologique. Ceci est différent des autres unités de soins intensifs pédiatriques.

Que faire face de ces constats ? Selon nous, deux pistes de réflexions sont possibles. La première est de reconnaître que nous traitons les nouveau-nés différemment car ils le sont, de reconnaître qu'ils jouissent d'un statut moral différent des personnes plus âgées, et que nous devons arrêter de prétendre qu'ils sont équivalents aux autres. Cette position permettrait de donner une explication valable à leur relative dévaluation. Toutefois, accepter ce constat aurait des répercussions au niveau de notre société et des règles qui la régissent. Si nous acceptons que les nouveau-nés jouissent d'un statut moral différent, est-ce vrai de d'autres membres de notre société ? Dans les sociétés occidentales actuelles, le discours populaire et la loi décrivent les individus comme étant tous égaux peu importe leur âge ou leurs caractéristiques et capacités. Il s'agit de l'article 15 de la charte canadienne des droits et libertés. À partir du moment où comme société nous acceptons que certains jouissent de droits moraux différents, alors il est possible que cette même conclusion s'applique à d'autres. Ainsi, sur quelles caractéristiques nous baserions-nous pour déterminer le degré de statut moral des individus ? L'âge seul semble très arbitraire et discriminatoire. De plus, la

reconnaissance et l'acceptation de cette différence de statut nous forcera à réexaminer certains débats sociaux qui encore aujourd'hui sont en mouvance, notamment la permissibilité morale des terminaisons de grossesse, même tardives, et l'euthanasie infantile.

L'alternative est de reconnaître que nous accordons un statut différent aux nouveau-nés et que nous les traitons différemment mais reconnaître, aussi, que ceci ne devrait pas être le cas. Bien que légalement identiques, ils sont dévalorisés par rapport aux patients plus âgés, même lorsque le pronostic est comparable ou pire. Si nous acceptons que le statut des nouveau-nés devrait être le même, alors la question suivante devrait porter sur comment les traiter. Est-ce qu'on adopte les lignes de conduite qui s'appliquent aux patients plus âgés, lignes de conduite qui sont généralement plus agressives, ou au contraire est-ce qu'on modifie les lignes de conduites qui s'appliquent aux plus vieux pour les rendre plus semblables à celles que nous avons adoptées pour les nouveau-nés ?

Au-delà du statut moral des nouveau-nés, les décisions de vie ou de mort demeureront difficiles et risquent, avec l'évolution des technologies diagnostiques et thérapeutiques, de devenir de plus en plus complexes pour tous les groupes de patients. En effet, avec plus de moyens, nous aurons la possibilité de maintenir en vie, voir de guérir, plus de personnes qu'auparavant. Malheureusement, étant donné les limites de ces technologies, la démographie changeante et les contraintes financières pesant sur le système, les possibilités seront limitées. Toutefois, tout comme avec les nouveau-nés, ces décisions demeureront complexes. Peu importe le contexte, ces décisions resteront fondamentalement difficiles. Les énoncés de principe tentant de faciliter et généraliser les décisions de prise en charge pour les nouveau-

nés sont simplistes, évacuent les particularités d'une situation du processus décisionnel, et ultimement sont nuisibles pour les patients que ces énoncés de principe veulent aider. Nous croyons qu'à l'avenir il sera important d'éviter d'ériger des règles trop strictes et générales, qui dépersonnalisent ces décisions foncièrement intrinsèques et personnelles.

7.1 Commentaire – Nouveau-nés et individualisation des soins

End of life decisions for extremely low gestational age infants: why simple rules for complicated decisions should be avoided, *Semin Perinatol.* 2014 Feb;38(1):31-7. doi: 10.1053/j.semperi.2013.07.006, reproduit avec permission

Amélie Dupont-Thibodeau¹, MD, PhD (cand)

Keith J. Barrington², MB ChB

Barbara Farlow³, BEng, MBA

Annie Janvier¹, MD, PhD

1: Department of Pediatrics and Clinical Ethics, University of Montreal.

Neonatology and Clinical Ethics, Sainte-Justine Hospital, Quebec.

2: Department of Pediatrics, University of Montreal. Chief of Neonatology, Sainte-Justine Hospital, Montreal Quebec.

3: Parent and patient representative. The DeVeber center for Bioethics and Social Research, Canada and Patients for Patient Safety Canada

Key words: Extreme prematurity, Extremely low gestational age infants (ELGAN), Ethics, Life sustaining interventions, end of life decisions, withhold and withdraw intensive care, futility, experimental medicine, informed consent, disability, parental adaptation.

Abbreviations:

CPR: Cardiopulmonary Resuscitation

ELGAN: Extremely low gestational age infants

GA: Gestational age

HCP: Health Care Providers

LSI: Life sustaining interventions

NICU: Neonatal intensive care unit

WD: Withdraw

WH: Withhold

Abstract

Interventions for extremely preterm infants bring up many ethical questions. Guidelines for intervention in the “peri-viable” period are generally simplistic formulae dividing infants into futile, beneficial and ‘grey zone’ categories based on completed 7-day periods of gestation (which differ from one country to the next). The ethical justification for using gestation age (GA) as the determination of the category boundaries is never discussed. In this review, we show that basing the fate of a newborn on GA guidelines alone is irrational and unethical. Rational criteria used to make decisions regarding life-sustaining interventions

must incorporate other important prognostic information. Precise guidelines based on imprecise data are irrational.

GA Guidelines include an implicit judgement of what is deemed to be an unacceptably poor chance of 'intact' survival but fail to explore (or explain?) the determination of acceptability. Furthermore, conflation of death and disability, unclear definitions of severe disability, the difficulty, or indeed impossibility, of accurately predicting outcome in the prenatal or immediate postnatal period, and the failure to incorporate the values of the individual family, make such simplistic formulae unethical.

Guidelines for intervention for the newborn are based on suppositions regarding qualitative futurity which should be explicit. They should discuss whether newborn infants are morally different to older individuals, or explain why thresholds recommended for intervention are different to recommendations for those in older persons. The aim should be to establish individualized goals of care with families while recognizing uncertainty, rather than acting on labels derived from GA categories.

Introduction

Mike and Julianne Caron were overjoyed to be expecting their first baby. They did not want to know if they were expecting a boy or a girl and named their baby Sam, for Samuel or Samantha. Last night, long before Sam’s due date, Julianne began bleeding. She and Mike rushed to the hospital. They learned she was in labour, and doctors told her any interventions to save Sam would be “futile”, because of the degree of prematurity. Sam would be given palliative care with the view of making Sam’s short life comfortable. The doctors said that if Julianne had gone into labour a week or two later then perhaps attempts *could* have been made to save Sam’s life, but even then then, efforts would be “experimental” at best. Despite the empathy and care provided by the health care providers (HCP), Mike requested that his wife be transferred to a larger academic center nearby.

At the academic center, the parents were told that, given Sam’s prematurity, palliative care would be a very acceptable option. With interventions, doctors gave Sam a 30% chance of survival. Even if he survived, the first years would be difficult and Sam would have significant risk of long term disability. The Carons hoped for the best but expected the worse.

Survival has improved dramatically for extremely low gestational age neonates (ELGANs) over the last 50 years. In most tertiary care centers, providing care to ELGANs has become commonplace. The proportion of ELGANs surviving with long-term disabilities has

decreased, but since more ELGANs survive, so too have the number of children in the community living with disabilities(35).

Decision-making for critically ill incompetent patients who are at high risk of sequelae raises three major ethical issues: whether to start life sustaining intervention (LSI) for a patient, whether LSI should be withdrawn when there are adverse outcomes, and who should be responsible for the decisions. Legally, physicians need a patient's consent in order to care for them. Babies, being naturally incompetent, are generally in the care of their parents who take decisions for them, a process known as "substitute consent".

Situations such as the one in which Sam's family find themselves bring to the forefront questions of futility, the best interest of the child and quality of life. Values and experience, religious beliefs and overall outlook on life are embedded in the decision-making process. HCP have written many guidelines on how to take decisions for babies like Sam. These guidelines have almost always been tailored around completed weeks of GA (17, 18, 144). These guidelines are easy to use and avoid case-by-case in-depth analysis of ethical decision-making. They are also patently flawed.

Shades of white, black and grey

ELGANs have frequently been classified in three broad categories: the first one consisting of patients for whom interventions are determined to be beneficial; the second for those whom interventions are futile and the third for those in-between. This last class is often

referred to as the “Grey Zone”. Traditionally, patients in the first category receive LSI, patients in the second category receive comfort care. In the grey zone, the parents decide, following counselling from HCP. Guidelines which establish the boundaries of the zones vary, depending on where the baby is born. The determination of the borders of the grey zone is subjective. Many guidelines identify infants born at 22 weeks GA as “futile”, 23 and 24 weeks as “grey zone” (or experimental) and 25 weeks as “beneficial”(18, 145, 146), Other guidelines deem neonates born before 25 weeks as futile(144) .

GA estimation is imprecise. For example, a first trimester ultrasound has a 5-day margin of error, and a second trimester ultrasound may be inaccurate by up to 2 weeks (147). GA based on menstrual dates is also uncertain(148). Estimation of fetal weight is even more inaccurate (within 10%, 75% of the time) (149). GA assessment by neonatologists is also very inaccurate. Given these uncertainties, it is illogical and unjust to base the fate of the newborn on GA guidelines with rigid boundaries. Indeed, a baby born just before midnight might be denied the chance that would be offered if born just after midnight. Survival and long-term outcomes of ELGANs also depend on many factors other than GA (150). (Table 1)

Long term impairment (particularly neurologic or cognitive) is a concern of many HCP and families. It must be emphasized that at all gestations, even the earliest, more than half of survivors have no impairments when examined after 2.5 years of age when evaluations are fairly predictive of the long term (35). Also, among surviving ELGANs born before 26 weeks, the rate of impairment is not strongly associated with GA (35, 151, 152). As infants mature into children even the minor trends reported in some cohorts often disappear (153). Many

policy statements use a low Bailey score at 18 months as a definition of cognitive impairment. However, the Bailey score is a screening tool designed to evaluate developmental delay, *not* cognitive impairment. At least two thirds of former preterm infants with a Bailey score below 70 at 18 months, and in some cohorts more than 80%, do not have cognitive impairment when evaluated at 5-8 years of age(154, 155). However, many important factors that do affect the risk of long term impairment are usually disregarded in guidelines(156) [ENREF_16](#) (Table 2).

The definition of futility

If the justification for not offering LSI before 23 weeks GA is futility, then definitions of futility must be considered. Futility can be quantitative or qualitative. Quantitative futility implies that an intervention “does not work”(157). Some suggest that the intervention may have more than 0% success rate, but “success is ... so unlikely that its exact probability is often incalculable” (158). Survival after delivery at 22 weeks GA with intensive care is between 5 and 32% in recent publications (159). These survival rates do not satisfy the definition of quantitative futility.

Qualitative futility generally means that the intervention is considered to be “not worth it”. This subjective consideration of whether the intervention reaches desirable goals may be evaluated by HCP or patients. Schneiderman defines futility as: “the unacceptable likelihood of achieving an effect that the patient has the capacity to appreciate as a benefit » (157). What is unacceptable? What is a benefit? Who assesses the goals of care? When futility is invoked in ELGANs born at or after 22 weeks GA, it is qualitative, value-laden futility (“not worth

it”): LSIs are unlikely to attain the goals of care. It is imperative to determine how and by whom goals are established as well as to recognize the variations in values that may lead to differing goals.

Whenever the word futility is used, it should be explained. In Sam’s case it would have been more honest for HCP in the first hospital to say: “Intervention for a baby with a 30% chance of survival, months in the NICU and a high risk of disability is not worth it, *in our opinion*. We think comfort care represents more appropriate goals of care.” This statement is morally superior to statements such as “This is futile and unethical” or “Intervention would be irresponsible”.

It is not clear if there have ever been survivors with confirmed GA below 22 weeks; LSI before 22 weeks could therefore, almost certainly, be considered to be quantitatively futile. This would be consistent with other policy statements regarding resuscitation for older patients who have an acute life threatening event which may lead to altered neurological outcomes, such as a cardiac arrest, a stroke or a head trauma (160): “*When is a rate of survival to hospital discharge so low that resuscitation should not be offered to a patient –5%, 1%, 0.5%? Resuscitation should be offered to all patients who want it unless there is clear evidence of quantitative futility. Quantitative futility implies that survival is not expected after CPR under given circumstances.*” (161).

How can we classify Sam?

A few years ago Dr Lucey referred to LSIs for ELGANs as “an uncontrolled experiment” (162). We beg to differ. Neonatologists invented the whole field of outcomes research (163), and there are now many thousands of ELGANs less than 25 weeks of GA that have been enrolled in comprehensive programs of long term evaluation which have published their results. These children have been examined and tested for many years. No other field of medicine has described the outcomes of their patients in such a detailed fashion. Neonatologists should be proud of their thorough and transparent work. The decision to provide intensive care for ELGANs is based on well-documented statistics derived from extensive evaluations.

How should Sam be classified? In the first institution, he was categorized as “futile”, while in the second, he was considered to be in the “grey zone”. In another institution, Sam may have been considered to be in the “beneficial” category. HCP define these 3 zones subjectively (164). In the policies of industrialized countries, the borders of the grey zone range from 21 and 26 weeks of gestation, depending where the baby is born (17, 144, 164-169). In a center that does not provide LSI to babies like Sam there will be no survivors, and therefore no impaired survivors. Another center might treat *some* babies like Sam will have some survivors, some of which are impaired. However, the center that treats *all babies* like Sam will have more survivors, and likely more impaired survivors. However, there will likely be proportionally fewer impaired survivors, since the quality of care for the frailest of neonates is improved by practice (170). Which of these outcomes is preferable?

Practice variations for babies like Sam are driven by explicit philosophic principles. Those who are more interventionist think that LSI is ethically appropriate. Others think that

over-intervention is more problematic than under-intervention. Both argue that they are doing what is in the best interest of the baby and the family. Both invoke local or national policies, based on local or national outcome data, to justify their approach. There is an iterative relationship between policies, guidelines and facts(164). If Sam’s parents are told that Sam’s chances of survival are low, they will be less likely to choose intervention and less children will survive(145, 171). A high mortality rate for babies like Sam will then be used to justify a policy of non-intervention of babies like Sam.

Practice variations raise an interesting and important question about informed consent. What, exactly, *should* Sam’s parents be told about survival? *In the story above, Sam’s mother could be at 22, 23, 24 or 25 weeks of gestation.* Parents are often given a “gestational age mantra”: “22 weeks futile; 23 weeks experimental, 24 weeks ambiguous; 25 weeks beneficial”(18). Clinicians may be uncomfortable dealing with complex probabilistic information, life and death decisions, and feel conflicted by their personal values, and thus try to simplify decision-making by using recommendations based solely on the GA. This may be easier for the HCP, but there is no evidence that the “gestational age mantra” is better for neonates and their families. Shared decision-making is important for many parents. The provision of personalized and comprehensive information will help to establish a trustful relationship with parents and enable them to make the best decisions for their baby, decisions that will give them peace without regrets in the long term.

Looking further at ethical issues related to the care of ELGANs: (Table 3)

1.Survival and the timing of death

For ELGANs, the personal values of HCP and parents regarding survival without impairment, survival with any degree of impairment or death should be explored. The average age at death of neonates who die in the NICU has been increasing. The harm of intensive care before death should be accounted for in ethical considerations. Some babies die in the ICU after many months, suffering much harm and incurring a greater burden of care. Such a death is very different in terms of harm to the child than a rapid death at 36 hours of age. We have recently reviewed deaths in our NICU (12). We realized that ELGANs born before 24 weeks of GA tend to die quicker than more mature ELGANs. It is possible that this is because they are physiologically more fragile and die despite LSI. It is also possible that it may be psychologically harder for HCP to withdraw LSI for ELGANs born after 24 weeks for whom a better outcome is hoped for, and who were initially classified in the ‘beneficial’ zone. Knowing when to withhold LSI in the delivery room for ELGANs is important, but in our opinion, adapting the level of care in the NICU to prevent late deaths, serious morbidity and tremendous burden of care is an urgent line of investigation. Every time a fragile neonate in the NICU has a serious adverse event, such as significant NEC, infection, respiratory failure, continuation of LSI should be questioned; we should be able to calculate survival and long term outcomes not only at admission, but all along the NICU stay of preterm infants. The debate on whether or not to intervene in the delivery room has taken all the focus. This aspect has been neglected.

2. Conflating death and disability: a conceptual error

Guidelines and “calculators” for decision-making tend to conflate survival and disability (18, 172). Survival and disability do not have the same meaning for families. HCPs tend to judge disability more harshly than parents, (173) they are much more likely to think that being severely disabled is worse than being dead(173, 174). The majority of parents of very preterm infants judge the quality of life of their infants good, even when they are disabled(175). Rarely, some families are devastated by these outcomes(176). Quantifying survival without disability to make a single dichotomous outcome helps the design of research projects, but conflating them in the clinical setting should be avoided, as it sends an ambiguous message. Parents should be informed of the possibility of survival and disabilities separately because they might have disparate values related to disability than that which is typically presumed in “calculators” and policy statements.

3.Limitations of the “disability categorization”

Almost three decades ago, children with Down syndrome were left to die because of their ‘unacceptable’ outcomes (177). The approach to Life sustaining interventions for children with Down syndrome has drastically changed. Despite these changes, many parents have reported that prenatal counselling regarding this condition was unbalanced: that only what children could not do was mentioned, not what they could do(178, 179). If children with Down Syndrome were categorized using “neonatologists” categorization of long term outcomes, they would be classified as having profound impairments: their long term IQ averages below 50 in adolescence(180), many will not live independently and they often die in early adulthood of Alzheimer’s disease. Interestingly, LSIs are no longer considered optional

for children with Down syndrome. By comparison, neonates born before 26 weeks GA had an average IQ in early childhood of 82 in the Epicure cohort(181) and the majority of former extremely low birth weight can live independently(182, 183). The quality of life of children with Down syndrome is considered to be good, but so is that of ELGANs (184). The long term outcome of ELGANS seems, in many ways, superior -or at least equivalent- to that of Down syndrome children. It is rare for an ELGAN to have cognitive impairments in the long term as marked as those which are common for children with Down syndrome.

For preterm infants, some disabilities which are labelled “minor” in the medical literature, such as behavioural problems, may be much harder for some families to cope with than “severe” disabilities, such as correctable deafness or ambulant cerebral palsy. By categorizing deafness as major and behavioural problems as minor, HCPs have made value judgements that may not be shared by families. Parents of preterm infants -disabled or not- should have a voice in how their children are classified in the medical literature.

4. Adaptation and coping of families

Many authors have stated that the disabilities of ex-preterm infants cause harm to their families. This has been also assumed for many other conditions such as trisomy 21, 13 and 18 (185). However, there is no empirical evidence that having an ex-preterm infant, disabled or not, causes harm to families (186). An urgent line of investigation in neonatology is to investigate further how families cope with prematurity. Parents should be partners in this research and not only research subjects. The meaning of disability -and not just the risks of

disability and their division into categories created by physicians- and the impact on families should be measured. Valuable research done on Down syndrome is a good example of how parents may deal with disability. In a recent study, the majority of parents of children with Down syndrome felt their outlook on life was more positive because of them, that their siblings had positive relationships and that their children are great sources of love and pride (179, 187). Parents recommended that parents with a new diagnosis should receive balanced information, including the challenges of disability as well as the positive transformation that some parents experience (188, 189).

Sam may die or survive. If Sam survives he may or may not have long term impairment. In each of these scenarios, the parents and the family may or may not adapt to the challenges. Parents may ask HCP questions that are not about survival and disability: “will Sam have a good quality of life?”, “Will Sam be OK?”, “Will we be OK?”, “how can I be the mother of a dead child?”, “How can I be the mother of a disabled child?” These important concerns of parents are often neglected (190). To be balanced, we should also inform parents of the infants’ abilities and not just disabilities; of what their families can do with them, their quality of life, how they cope, adapt, what factors seem to influence resilience (186). We could also inform them about how parents of preterm infants cope with their child’s death in the NICU (191).

5. The difference between neonates and older patients: moral status, personhood and justice

The period immediately before and immediately after birth is a time during which a foetus becomes a person. This transition has enormous moral and legal implications. At the moment of birth, a neonate becomes a full-fledged citizen, endowed with rights that should be no different from any other citizen. In the medical context, these rights are identical to those of any other vulnerable patient who lacks decision-making capacity. Specifically, the preterm infant has a right to medical treatment that is in its best interest.

The Neonatal Resuscitation Programme textbook, which is the standard neonatal resuscitation text used in North America and many other countries states: “The ethical principles regarding resuscitation of newborns should be no different from those followed in resuscitating an older child or adult.(16) In practice, however, newborn infants are treated differently (11, 18, 138, 160, 192-197).

5a.Pain treatment

Analgesia is grossly underused in neonates (198-200). Endotracheal intubation, lumbar punctures and even sometimes chest tubes are performed without adequate analgesia (198, 200). Trials comparing analgesia to placebo are not rare despite the existence of many studies showing the benefit of analgesia. This indifference or neglect would be inconceivable in older patients. It is ironic that prolonged pain and suffering are often used as reasons for withholding active intensive care in preterm infants. Intolerable, persistent and untreatable pain is an ethically appropriate reason for withdrawing LSI. Failure to prevent and treat pain is not.

5b. Variations of practice and the best interest principle

Thresholds recommended for non-intervention in preterm infants are not consistent with thresholds set in older individuals with comparable risks of death or disability (160). For older children, near certain death or disability is necessary before withholding of withdrawing LSI (195). This is not the case for preterm infants who may have LSI WH despite predicted survival of over 80% (171). The best interest principle is not actually applied when considering LSI for neonatal patients (138, 197). Policy statements for preterm infants often state survival and handicap as justification for optional intervention. The fact that such outcome statistics would not be used to justify non-intervention approaches at to older patients suggests that neonates are treated differently to older patients.

5c. The moral difference between preterm infants and older patients.

Newborns are considered differently compared to older children. ELGANS do not yet have a personality of their own, they did not go home, they may live all their lives in the NICU and die there. The attachment parents and HCP feel towards them may be different. HCP do not react the same way for the death of a baby with potential impairments at 24 weeks GA than for seven-year-old a child with known impairments (138, 197). HCP may also feel responsibility when an ELGAN is discharged from NICU disabled. HCP may feel they created the disabled preterm infant while they “saved” a child with near drowning.

Conclusion

In conclusion, there is no easy way to make decisions regarding life and death. Labelling infants according to completed 7-day periods of GA is not only scientifically flawed, but ethically questionable (160). What should we do for Sam? It will not be simple, nor will it be quick. Information related to survival and outcomes should be personalized, following an analysis of the risks for this particular infant, taking into account all of the relevant medical characteristics, the joint decision must incorporate and be consistent with the values and desires of the parents. In this field there are many opinions but little good evidence (190). The limitations of the evidence should be an incentive to examine each case in a personalized fashion. Establishing individualized goals of care with families while recognizing uncertainty is morally superior to quickly labelling their child in one of three GA categories. New horizons for research should seek to understand and to rectify the inequities that exist between the care offered to ELGANS and to similar, fragile populations. Practitioners may be unaware of their own implicit valuations. Individualizing care for ELGANS and their families should be the goal.

Table 1: Factors influencing survival in ELGANs

What influences survival in ELGANs
-Official pronouncements of professional societies
-Willingness of Obstetrician to actively intervene
-Birth in tertiary center
-Tertiary center with > 100 admissions of ELGANs / year
-Gestational age
-Weight for gestational age
-Singleton (vs. multiple birth)
-Female gender
-Exposure to prenatal steroids
-Chorioamnionitis

Table 2: factors influencing long term outcomes in surviving ELGANs

What positively influences long term outcomes in surviving ELGANs
-Female sex
-Not being SGA
- Socioeconomic factors:
--- Higher family income
--- Education of mother
--- Two parent family
-Absence of perinatal complications: chorioamnionitis, large intracerebral hemorrhage (especially bilateral), extensive cystic periventricular leukomalacia, posthemorrhagic ventricular dilatation, any surgery, postnatal steroids, sepsis/infection, necrotizing enterocolitis, bronchopulmonary dysplasia, inadequate nutrition.
-Breastmilk

Table 3: Ethical considerations that are frequently neglected and that require investigation

Ethical considerations: frequently neglected and requiring investigation
-Not all NICU deaths are equivalent: early vs. late
-The adverse effect of NICU complications on survival and long term outcomes
-Death and disability should not be conflated
-Parental and HCP values regarding the following issues differ:
Survival thresholds at which to intervene,
Whether disability should alter intervention thresholds
Definitions of profound, major, and minor disability; what affects functioning of child and the family
-How families cope with and adapt to the death of their child, life with a baby in the NICU and their life after the NICU: resilience
-The moral difference between neonates and older patients, should this be accepted, recognized, fought against?

Bibliographie

1. Office national du film du Canada. Médecine sous influence [image animée bidimensionnelle]. Montréal: Office national du film du Canada,; 2004.
2. Ryan MS. Patrick Bouvier Kennedy : a brief life that changed the history of newborn care. Minneapolis, MN: MCP Books; 2015. xviii, 135 pages p.
3. Lussy RC, Cifuentes RF, Siddappa AM. A History of Neonatal Medicine-Past Accomplishments, Lessons Learned, and Future Challenges: Part II-The 1990s, the New Millennium, Future Challenges. *J Pediatr Pharmacol Ther.* 2005;10(3):143-58.
4. Lussy RC, Cifuentes RF, Siddappa AM. A history of neonatal medicine-past accomplishments, lessons learned, and future challenges. Part 1-the first century. *J Pediatr Pharmacol Ther.* 2005;10(2):76-89.
5. Network SSGotEKSNNR, Carlo WA, Finer NN, Walsh MC, Rich W, Gantz MG, et al. Target ranges of oxygen saturation in extremely preterm infants. *The New England journal of medicine.* 2010;362(21):1959-69.
6. Philip AG. The evolution of neonatology. *Pediatric research.* 2005;58(4):799-815.
7. Dunn PM. Stephane Tarnier (1828-1897), the architect of perinatology in France. *Archives of disease in childhood Fetal and neonatal edition.* 2002;86(2):F137-9.
8. Silverman WA. Incubator-baby side shows (Dr. Martin A. Couney). *Pediatrics.* 1979;64(2):127-41.
9. Creswell JW. *Research design : qualitative, quantitative, and mixed methods approaches.* 4th ed. Thousand Oaks: SAGE Publications; 2014. xxix, 273 p. p.

10. Creswell JW. Research design : qualitative, quantitative, and mixed methods approaches. Fourth edition. ed. Los Angeles: SAGE; 2014. xxix, 273 pages p.
11. Janvier A, Leblanc I, Barrington KJ. The best-interest standard is not applied for neonatal resuscitation decisions. *Pediatrics*. 2008;121(5):963-9.
12. Armstrong K, Ryan CA, Hawkes CP, Janvier A, Dempsey EM. Life and death decisions for incompetent patients: determining best interests--the Irish perspective. *Acta paediatrica*. 2011;100(4):519-23.
13. Laventhal N, Spelke MB, Andrews B, Larkin LK, Meadow W, Janvier A. Ethics of resuscitation at different stages of life: a survey of perinatal physicians. *Pediatrics*. 2011;127(5):e1221-9.
14. Hagen EM, Therkelsen OB, Forde R, Aasland O, Janvier A, Hansen TW. Challenges in reconciling best interest and parental exercise of autonomy in pediatric life-or-death situations. *The Journal of pediatrics*. 2012;161(1):146-51.
15. Mills BA, Janvier A, Argus BM, Davis PG, Froisland DH. Attitudes of Australian neonatologists to resuscitation of extremely preterm infants. *Journal of paediatrics and child health*. 2015.
16. American Academy of Pediatrics. Neonatal Resuscitation Program (NRP) Textbook - 6th edition: American Academy of Pediatrics; 2010.
17. The Nuffield Council on Bioethics. Neonatal medicine: Critical care decisions in fetal and neonatal medicine: ethical issues 2007 [Available from: <http://www.nuffieldbioethics.org/sites/default/files/CCD> web version 22 June 07 (updated).pdf.

18. Jefferies AL, Kirpalani HM, Canadian Paediatric Society FaNC. Counselling and management for anticipated extremely preterm birth. *Paediatrics and Child health*. 2012;17(8):443.
19. C Harrison CPS. Treatment decisions regarding infants, children and adolescents. *Paediatr Child Health*. 2004;9(2):99-103.
20. Guillen U, Weiss EM, Munson D, Maton P, Jefferies A, Norman M, et al. Guidelines for the Management of Extremely Premature Deliveries: A Systematic Review. *Pediatrics*. 2015;136(2):343-50.
21. Clinical practice guidelines on shared decision-making in the appropriate initiation of and withdrawal from dialysis. Renal Physicians Association/American Society of Nephrology Working Group. *J Am Soc Nephrol*. 2000;11(9):2 p following 1788.
22. Morrison LJ, Kierzek G, Diekema DS, Sayre MR, Silvers SM, Idris AH, et al. Part 3: ethics: 2010 American Heart Association Guidelines for Cardiopulmonary Resuscitation and Emergency Cardiovascular Care. *Circulation*. 2010;122(18 Suppl 3):S665-75.
23. American College of Surgeons Committee on T, American College of Emergency Physicians Pediatric Emergency Medicine C, National Association of Ems P, American Academy of Pediatrics Committee on Pediatric Emergency M, Fallat ME. Withholding or termination of resuscitation in pediatric out-of-hospital traumatic cardiopulmonary arrest. *Pediatrics*. 2014;133(4):e1104-16.
24. Pediatrics AAO. Textbook of neonatal resuscitation: American Academy of Pediatrics; 2016. 313 p.
25. Kamarainen A. Out-of-hospital cardiac arrests in children. *J Emerg Trauma Shock*. 2010;3(3):273-6.

26. Jayaram N, McNally B, Tang F, Chan PS. Survival After Out-of-Hospital Cardiac Arrest in Children. *J Am Heart Assoc.* 2015;4(10):e002122.
27. Lin YR, Wu HP, Chen WL, Wu KH, Teng TH, Yang MC, et al. Predictors of survival and neurologic outcomes in children with traumatic out-of-hospital cardiac arrest during the early postresuscitative period. *J Trauma Acute Care Surg.* 2013;75(3):439-47.
28. Slomine BS, Silverstein FS, Christensen JR, Holubkov R, Page K, Dean JM, et al. Neurobehavioral Outcomes in Children After Out-of-Hospital Cardiac Arrest. *Pediatrics.* 2016;137(4).
29. Rosell-Ortiz F, Mellado-Vergel F, Garcia Del Aguila J. [Comment on: "Survival and neurological outcome in out-of-hospital cardiac arrests due to shockable rhythms treated with mild therapeutic hypothermia"]. *Med Intensiva.* 2015;39(4):258-9.
30. Rysavy MA, Li L, Bell EF, Das A, Hintz SR, Stoll BJ, et al. Between-hospital variation in treatment and outcomes in extremely preterm infants. *The New England journal of medicine.* 2015;372(19):1801-11.
31. Berger TM, Bernet V, El Alama S, Fauchere JC, Hosli I, Irion O, et al. Perinatal care at the limit of viability between 22 and 26 completed weeks of gestation in Switzerland. 2011 revision of the Swiss recommendations. *Swiss medical weekly.* 2011;141:w13280.
32. Itabashi K, Horiuchi T, Kusuda S, Kabe K, Itani Y, Nakamura T, et al. Mortality rates for extremely low birth weight infants born in Japan in 2005. *Pediatrics.* 2009;123(2):445-50.
33. Mehler K, Oberthuer A, Keller T, Becker I, Valter M, Roth B, et al. Survival Among Infants Born at 22 or 23 Weeks' Gestation Following Active Prenatal and Postnatal Care. *JAMA pediatrics.* 2016.

34. Ishii N, Kono Y, Yonemoto N, Kusuda S, Fujimura M, Neonatal Research Network J. Outcomes of infants born at 22 and 23 weeks' gestation. *Pediatrics*. 2013;132(1):62-71.
35. Moore T, Hennessy EM, Myles J, Johnson SJ, Draper ES, Costeloe KL, et al. Neurological and developmental outcome in extremely preterm children born in England in 1995 and 2006: the EPICure studies. *Bmj*. 2012;345:e7961.
36. Serenius F, Kallen K, Blennow M, Ewald U, Fellman V, Holmstrom G, et al. Neurodevelopmental outcome in extremely preterm infants at 2.5 years after active perinatal care in Sweden. *Jama*. 2013;309(17):1810-20.
37. Canada S. Deaths in hospital and elsewhere, Canada, provinces and territories. 2013.
38. Truog RD, Cist AF, Brackett SE, Burns JP, Curley MA, Danis M, et al. Recommendations for end-of-life care in the intensive care unit: The Ethics Committee of the Society of Critical Care Medicine. *Crit Care Med*. 2001;29(12):2332-48.
39. Tanuseputro P, Wodchis WP, Fowler R, Walker P, Bai YQ, Bronskill SE, et al. The health care cost of dying: a population-based retrospective cohort study of the last year of life in Ontario, Canada. *PloS one*. 2015;10(3):e0121759.
40. Brandt AM. Racism and research: the case of the Tuskegee Syphilis Study. *Hastings Cent Rep*. 1978;8(6):21-9.
41. Beecher HK. Ethics and clinical research. *N Engl J Med*. 1966;274(24):1354-60.
42. Korenromp MJ, Page-Christiaens GC, van den Bout J, Mulder EJ, Visser GH. Adjustment to termination of pregnancy for fetal anomaly: a longitudinal study in women at 4, 8, and 16 months. *American journal of obstetrics and gynecology*. 2009;201(2):160 e1-7.

43. Korenromp MJ, Christiaens GC, van den Bout J, Mulder EJ, Hunfeld JA, Bilardo CM, et al. Long-term psychological consequences of pregnancy termination for fetal abnormality: a cross-sectional study. *Prenatal diagnosis*. 2005;25(3):253-60.
44. Korenromp MJ, Page-Christiaens GC, van den Bout J, Mulder EJ, Hunfeld JA, Potters CM, et al. A prospective study on parental coping 4 months after termination of pregnancy for fetal anomalies. *Prenatal diagnosis*. 2007;27(8):709-16.
45. Munson D, Leuthner SR. Palliative care for the family carrying a fetus with a life-limiting diagnosis. *Pediatr Clin North Am*. 2007;54(5):787-98, xii.
46. Miquel-Verges F, Woods SL, Aucott SW, Boss RD, Sulpar LJ, Donohue PK. Prenatal consultation with a neonatologist for congenital anomalies: parental perceptions. *Pediatrics*. 2009;124(4):e573-9.
47. Yee WH, Sauve R. What information do parents want from the antenatal consultation? *Paediatrics & child health*. 2007;12(3):191-6.
48. Guillen U, DeMauro S, Ma L, Zupancic J, Wang E, Gafni A, et al. Survival rates in extremely low birthweight infants depend on the denominator: avoiding potential for bias by specifying denominators. *American journal of obstetrics and gynecology*. 2011;205(4):329 e1-7.
49. Arzuaga BH, Meadow W. National variability in neonatal resuscitation practices at the limit of viability. *Am J Perinatol*. 2014;31(6):521-8.
50. Perlberg J, Ancel PY, Khoshnood B, Durox M, Boileau P, Garel M, et al. Delivery room management of extremely preterm infants: the EPIPAGE-2 study. *Archives of disease in childhood Fetal and neonatal edition*. 2016.

51. Larroque B, Breart G, Kaminski M, Dehan M, Andre M, Burguet A, et al. Survival of very preterm infants: Epipage, a population based cohort study. *Archives of disease in childhood Fetal and neonatal edition*. 2004;89(2):F139-44.
52. Stoll BJ, Hansen NI, Bell EF, Shankaran S, Laptook AR, Walsh MC, et al. Neonatal outcomes of extremely preterm infants from the NICHD Neonatal Research Network. *Pediatrics*. 2010;126(3):443-56.
53. Group E, Fellman V, Hellstrom-Westas L, Norman M, Westgren M, Kallen K, et al. One-year survival of extremely preterm infants after active perinatal care in Sweden. *Jama*. 2009;301(21):2225-33.
54. Koper JF, Bos AF, Janvier A, Verhagen AA. Dutch neonatologists have adopted a more interventionist approach to neonatal care. *Acta paediatrica*. 2015.
55. Dupont-Thibodeau A, Langevin R, Janvier A. Later rather than sooner: the impact of clinical management on timing and modes of death in the last decade. *Acta paediatrica*. 2014.
56. Murray PD, Esserman D, Mercurio MR. In what circumstances will a neonatologist decide a patient is not a resuscitation candidate? *J Med Ethics*. 2016.
57. Verhagen AA, Janvier A, Leuthner SR, Andrews B, Lagatta J, Bos AF, et al. Categorizing neonatal deaths: a cross-cultural study in the United States, Canada, and The Netherlands. *The Journal of pediatrics*. 2010;156(1):33-7.
58. Janvier A, Farlow B, Wilfond BS. The experience of families with children with trisomy 13 and 18 in social networks. *Pediatrics*. 2012;130(2):293-8.
59. Guon J, Wilfond BS, Farlow B, Brazg T, Janvier A. Our children are not a diagnosis: the experience of parents who continue their pregnancy after a prenatal diagnosis of trisomy 13 or 18. *Am J Med Genet A*. 2014;164A(2):308-18.

60. Korenromp MJ, Page-Christiaens GC, van den Bout J, Mulder EJ, Visser GH. Is there pressure from society to terminate pregnancy in case of a fetal anomaly? *Prenatal diagnosis*. 2006;26(1):85-6.
61. Payot A. [Prenatal palliative care: a challenge of consistency between prenatal and postnatal care]. *Archives de pediatrie : organe officiel de la Societe francaise de pediatrie*. 2009;16(6):597-9.
62. Finn D, Collins A, Murphy BP, Dempsey EM. Mode of neonatal death in an Irish maternity centre. *European journal of pediatrics*. 2014;173(11):1505-9.
63. Wilkinson DJ, Savulescu J. Knowing when to stop: futility in the ICU. *Curr Opin Anaesthesiol*. 2011;24(2):160-5.
64. Feudtner C, Silveira MJ, Christakis DA. Where do children with complex chronic conditions die? Patterns in Washington State, 1980-1998. *Pediatrics*. 2002;109(4):656-60.
65. Fontana MS, Farrell C, Gauvin F, Lacroix J, Janvier A. Modes of Death in Pediatrics: Differences in the Ethical Approach in Neonatal and Pediatric Patients. *The Journal of pediatrics*. 2013.
66. Finan E, Bolger T, Gormally SM. Modes of death in neonatal intensive care units. *Ir Med J*. 2006;99(4):106-8.
67. Ryan CA, Byrne P, Kuhn S, Tyebkhan J. No resuscitation and withdrawal of therapy in a neonatal and a pediatric intensive care unit in Canada. *The Journal of pediatrics*. 1993;123(4):534-8.
68. Roy R, Aladangady N, Costeloe K, Larcher V. Decision making and modes of death in a tertiary neonatal unit. *Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed*. 2004;89(6):F527-30.

69. Wilkinson D. The window of opportunity for treatment withdrawal. *Archives of pediatrics & adolescent medicine*. 2011;165(3):211-5.
70. Wilkinson D. The window of opportunity: decision theory and the timing of prognostic tests for newborn infants. *Bioethics*. 2009;23(9):503-14.
71. Meadow W, Lagatta J, Andrews B, Caldarelli L, Keiser A, Laporte J, et al. Just, in time: ethical implications of serial predictions of death and morbidity for ventilated premature infants. *Pediatrics*. 2008;121(4):732-40.
72. Janvier A, Barrington K, Deschenes M, Couture E, Nadeau S, Lantos J. Relationship between site of training and residents' attitudes about neonatal resuscitation. *Archives of pediatrics & adolescent medicine*. 2008;162(6):532-7.
73. Weiner J SJ, Lantos J, Kilbride H. How infants die in the neonatal intensive care unit: trends from 1999 through 2008. *Arch Pediatr Adolesc Med*. 2011;165(7):630-4.
74. Fajardo CA, Gonzalez S, Zambosco G, Cancela MJ, Forero LV, Venegas M, et al. End of life, death and dying in neonatal intensive care units in Latin America. *Acta Paediatr*. 2012;101(6):609-13.
75. Verhagen AA, Janvier A. The continuing importance of how neonates die. *JAMA pediatrics*. 2013;167(11):987-8.
76. Bureau de la direction générale Ceap, Hôpital Sainte-Justine. Rapport annuel 2010-2011 2011 [Available from: http://www.chu-sainte-justine.org/documents/General/pdf/PDF-2012/rapport_annuel_2010-2011.pdf].
77. Fortin-Pellerin E, Petersen C, Lefebvre F, Barrington KJ, Janvier A. Evolving neonatal steroid prescription habits and patient outcomes. *Acta Paediatr*. 2013;102(8):799-804.

78. Jacobs SE, Berg M, Hunt R, Tarnow-Mordi WO, Inder TE, Davis PG. Cooling for newborns with hypoxic ischaemic encephalopathy. *Cochrane Database Syst Rev.* 2013;1:CD003311.
79. Janvier A, Barrington K. What is an "appropriate code"? *Am J Bioeth.* 2011;11(11):18-20.
80. Janvier A, Leuthner SR. Chronic patients, burdensome interventions and the Vietnam analogy. *Acta Paediatr.* 2013;102(7):669-70.
81. Moore P, Kerridge I, Gillis J, Jacobe S, Isaacs D. Withdrawal and limitation of life-sustaining treatments in a paediatric intensive care unit and review of the literature. *Journal of paediatrics and child health.* 2008;44(7-8):404-8.
82. Fontana MS, Farrell C, Gauvin F, Lacroix J, Janvier A. Modes of death in pediatrics: differences in the ethical approach in neonatal and pediatric patients. *The Journal of pediatrics.* 2013;162(6):1107-11.
83. M. Rodwan Abouharb ALK. A new dataset on infant morality rates, 1816-2002. *Journal of Peace Research.* 2007;44(6):743-54.
84. Milot J. La mortalité infantile au tournant du XXe siècle au Canada français. *Paediatrics & child health.* 2010;15(5):e6-8.
85. Rutstein SO. Infant and child mortality in developing countries during the 1990s. *Bulletin of the World health Organization.* 2000;78(10):1256-70.
86. Canada S. Infant mortality rates, by province and territory 2015 [Available from: <http://www.statcan.gc.ca/tables-tableaux/sum-som/l01/cst01/health21a-eng.htm>].
87. Brind'Amour L. La deuxième satire de Perse et le dies lustricus. *Latomus.* 1971;30(4):999-1024.

88. Brind'Amour L. Le dies lustricus, les oiseaux de l'aurore et l'amphidromie. *Latomus*. 1975;34(1):17-58.
89. V. D. Rites d'agrégation à la communauté [Available from: elearning.unifr.ch/antiquitas/fiches.php?id_fiche=50].
90. RS S. Naming a baby 2002 [Available from: <http://www.aish.com/jl/1/b/4891326>].
91. G. S. Namakarana Samskara, the hindu name giving ceremony 2009 [Available from: <http://www.myhindupage.org/index.php/namakarana-samskara>].
92. Dansen V. Naissance et petite enfance à l'époque romaine [Available from: elearning.unifr.ch/antiquitas/modules.php?id_module=13].
93. Lamm M. *The Jewish Way in Death and Mourning*: Jonathan David Publishers; 2000.
94. AR Gatrad MR, A Sheikh. Hindu Birth Customs. *Archives of disease in childhood*. 2004;89(12):1094-7.
95. Sargent C. Born to Die: Witchcraft and Infanticide in Bariba Culture. *Ethnology*. 1988;27(1):79-95.
96. Hawk D. *The Hidden Gulag: The Lives and Voices of "those who are sent to the Mountains"*. 2012.
97. Jaworska AaT, Julie. The Grounds of Moral Status [Summer 2013]:[Available from: <http://plato.stanford.edu/archives/sum2013/entries/grounds-moral-status>].
98. Singer P. *In defense of animals*. 1st Perennial Library ed. New York: Perennial Library; 1986. xi, 224 p. p.
99. Kerckhove LF, Waller S. Fetal personhood and the sorites paradox. *The Journal of value inquiry*. 1998;32(2):175-89.
100. Warren MA. On the moral and legal status of abortion. *The Monist*. 1973;57(1):43-61.

101. Larmer R. Abortion, Personhood and the Potential for Consciousness. *Journal of Applied Philosophy*. 1995;12:241-52.
102. Beauchamp S, Lance JM. Fecondation in vitro: portrait comparatif de pays d'Europe et d'Océanie. (In vitro fertilization: comparative profile European and Oceania countries. Montréal, Agence d'évaluation des technologies et des modes d'intervention en santé (AETMIS): 2009.
103. Penner PS, Hull RT. The beginning of individual human personhood. *J Med Philos*. 2008;33(2):174-82.
104. Gatti MG, Becucci E, Fagnoli F, Fagioli M, Aden U, Buonocore G. Functional maturation of neocortex: a base of viability. *The journal of maternal-fetal & neonatal medicine : the official journal of the European Association of Perinatal Medicine, the Federation of Asia and Oceania Perinatal Societies, the International Society of Perinatal Obstet*. 2012;25 Suppl 1:101-3.
105. Faith CftDot. Instruction on respect for human life in its origin and on the dignity of procreation 1987.
106. Coward HG. *Hindu Ethics: Purity, Abortion and Euthanasia*: State University of New York Press; 1989. 139 p.
107. Dorff EN. *The Jewish Tradition: Religious Beliefs and Healthcare Decisions*: Park Ridge Center for the Study of Health, Faith and Ethics.
108. Edwin R. Dubose MJP. *The Jehovah's Witness Tradition: Religious Beliefs and Healthcare Decisions*: Park Ridge Center for the Study of Health, Faith and Ethics.
109. Waugh EH. *The Islamic Tradition: Religious Beliefs and Healthcare Decisions*: The Park Ridge Center for the Study of Health, Faith, and Ethics.

110. Parkinson M, Creswell C. Worry and problem-solving skills and beliefs in primary school children. *Br J Clin Psychol*. 2011;50(1):106-12.
111. HEW support of research involving human in vitro fertilization and embryo transfer. In: U.S. Department of Health E, and Welfare, editor. Washington, DC: U.S. Government Printing Office; 1979.
112. Fausset. Abortion wars: "Fetal pain" bill advances in Georgia. *LA times*. 2012.
113. Peterfy A. Fetal viability as a threshold to personhood. A legal analysis. *The Journal of legal medicine*. 1995;16(4):607-36.
114. Lagerkrantz H. The birth of consciousness. *Early HumDev*. 2009;85:S57-8.
115. Kostovic I, Jovanov-Milosevic N. The development of cerebral connections during the first 20-45 weeks' gestation. *Seminars in fetal & neonatal medicine*. 2006;11(6):415-22.
116. Kostovic I, Rakic P. Development of prestriate visual projections in the monkey and human fetal cerebrum revealed by transient cholinesterase staining. *The Journal of neuroscience : the official journal of the Society for Neuroscience*. 1984;4(1):25-42.
117. Lee SJ, Ralston HJ, Drey EA, Partridge JC, Rosen MA. Fetal pain: a systematic multidisciplinary review of the evidence. *JAMA*. 2005;294(8):947-54.
118. Warren MA. The Moral Significance of Birth. *Hypatia*. 1989;4:46-65.
119. Tooley M. Abortion and Infanticide. *Philosophy and Public Affairs*. 1972;2:37-65.
120. Weiler KM, Catton K. The unborn child in Canadian law. *Osgoode Hall law journal*. 1976;14(3):643-59.
121. Klasing MS. Death of an unborn child: jurisprudential inconsistencies in wrongful death, criminal homicide, and abortion cases. *Pepperdine law review*. 1995;22(3):933-79.

122. McConnell ML. Sui generis: the legal nature of the foetus in Canada. *The Canadian bar review*. 1991;70:548-56.
123. Thomson JJ. A defense of Abortion. *Philosophy and Public Affairs*. 1971;1:47-66.
124. Gibson S. The problem of abortion: essentially contested concepts and moral autonomy. *Bioethics*. 2004;18(3):221-33.
125. Sherwin S. *No Longer Patient: Feminist Ethics and Health Care*. Philadelphia: Temple University Press; 1992.
126. Meadow W, Lagatta J, Andrews B, Lantos J. The mathematics of morality for neonatal resuscitation. *Clin Perinatol*. 2012;39(4):941-56.
127. Waring DR. Fair Innings and Need over Lifetime. In: Springer, editor. *Medical Benefit and the Human lottery: An Egalitarian Approach to Patient Selection*. Toronto, Ontario, Canada: York University; 2004. p. 89-97.
128. Sands R, Manning JC, Vyas H, Rashid A. Characteristics of deaths in paediatric intensive care: a 10-year study. *Nurs Crit Care*. 2009;14(5):235-40.
129. Lago PM, Piva J, Garcia PC, Troster E, Bouso A, Sarno MO, et al. End-of-life practices in seven Brazilian pediatric intensive care units. *Pediatric critical care medicine : a journal of the Society of Critical Care Medicine and the World Federation of Pediatric Intensive and Critical Care Societies*. 2008;9(1):26-31.
130. Janvier A, Leuthner SR. Chronic patients, burdensome interventions and the Vietnam analogy. *Acta paediatrica*. 2013;102(7):669-70.
131. Marcello KR, Stefano JL, Lampron K, Barrington KJ, Mackley AB, Janvier A. The influence of family characteristics on perinatal decision making. *Pediatrics*. 2011;127(4):e934-9.

132. Karam O, Roy M, Barrington K, Janvier A. Long-distance air transport of an infant weighing less than 500 g: Is it in the patient's best interest? *Paediatrics & child health*. 2011;16(2):79-81.
133. Janvier A, Meadow W, Leuthner SR, Andrews B, Lagatta J, Bos A, et al. Whom are we comforting? An analysis of comfort medications delivered to dying neonates. *The Journal of pediatrics*. 2011;159(2):206-10.
134. Zhong R, Knobe J, Feigenson N, Mercurio MR. Age and disability biases in pediatric resuscitation among future physicians. *Clin Pediatr (Phila)*. 2011;50(11):1001-4.
135. Batton D, Batton B. Advocating for equality for preterm infants. *CMAJ : Canadian Medical Association journal = journal de l'Association medicale canadienne*. 2013;185(18):1559-60.
136. Janvier A, Mercurio MR. Saving vs creating: perceptions of intensive care at different ages and the potential for injustice. *Journal of perinatology : official journal of the California Perinatal Association*. 2013;33(5):333-5.
137. Hansen TW, Janvier A, Aasland O, Forde R. Ethics, choices, and decisions in acute medicine: a national survey of Norwegian physicians' attitudes. *Pediatric critical care medicine : a journal of the Society of Critical Care Medicine and the World Federation of Pediatric Intensive and Critical Care Societies*. 2013;14(2):e63-9.
138. Janvier A, Leblanc I, Barrington KJ. Nobody likes premies: the relative value of patients' lives. *J Perinatol*. 2008;28(12):821-6.
139. Creswell JW. *Research design : qualitative, quantitative, and mixed method approaches*. 2nd ed. Thousand Oaks, Calif.: Sage Publications; 2003. xxvi, 246 p. p.

140. Denzin NK, Lincoln YS. Handbook of qualitative research. 2nd ed. Thousand Oaks, Calif.: Sage Publications; 2000. 1142 p. en pag. multiple. p.
141. Hsieh HF, Shannon SE. Three approaches to qualitative content analysis. *Qual Health Res.* 2005;15(9):1277-88.
142. Dupont-Thibodeau A, Barrington KJ, Farlow B, Janvier A. End-of-life decisions for extremely low-gestational-age infants: why simple rules for complicated decisions should be avoided. *Seminars in perinatology.* 2014;38(1):31-7.
143. Aaltonen T, Abazov VM, Abbott B, Abolins M, Acharya BS, Adams M, et al. Combination of Tevatron searches for the standard model Higgs boson in the W+W- decay mode. *Physical review letters.* 2010;104(6):061802.
144. Gerrits-Kuiper JA, de Heus R, Bouwers HA, Visser GH, den Ouden AL, Kollee LA. [At the limits of viability: Dutch referral policy for premature birth too reserved]. *Nederlands tijdschrift voor geneeskunde.* 2008;152(7):383-8.
145. Kaempf JW, Tomlinson M, Arduza C, Anderson S, Campbell B, Ferguson LA, et al. Medical Staff Guidelines for Periviability Pregnancy Counseling and Medical Treatment of Extremely Premature Infants. *Pediatrics.* 2006;117(1):22-9.
146. Chervenak FA, McCullough LB, Levene MI. An ethically justified, clinically comprehensive approach to peri-viability: Gynaecological, obstetric, perinatal and neonatal dimensions. *Journal of Obstetrics & Gynaecology.* 2007;27(1):3-7.
147. Sladkevicius P, Saltvedt S, Almstrom H, Kublickas M, Grunewald C, Valentin L. Ultrasound dating at 12-14 weeks of gestation. A prospective cross-validation of established dating formulae in in-vitro fertilized pregnancies. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2005;26(5):504-11.

148. Wennerholm UB, Bergh C, Hagberg H, Sultan B, Wennergren M. Gestational age in pregnancies after in vitro fertilization: comparison between ultrasound measurement and actual age. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 1998;12(3):170-4.
149. Lee W, Balasubramaniam M, Deter RL, Yeo L, Hassan SS, Gotsch F, et al. New fetal weight estimation models using fractional limb volume. *Ultrasound in Obstetrics and Gynecology.* 2009;34(5):556-65.
150. Tyson JE, Parikh NA, Langer J, Green C, Higgins RD, National Institute of Child H, et al. Intensive care for extreme prematurity--moving beyond gestational age. *The New England journal of medicine.* 2008;358(16):1672-81.
151. Andrews B, Lagatta J, Chu A, Plesha-Troyke S, Schreiber M, Lantos J, et al. The nonimpact of gestational age on neurodevelopmental outcome for ventilated survivors born at 23–28 weeks of gestation. *Acta Paediatrica.* 2012;101(6):574-8.
152. Schlapbach L, Adams M, Proietti E, Aebischer M, Grunt S, Borradori-Tolsa C, et al. Outcome at two years of age in a Swiss national cohort of extremely preterm infants born between 2000 and 2008. *BMC Pediatrics.* 2012;12(1):198.
153. Marlow N, Hennessy EM, Bracewell MA, Wolke D, Group ftES. Motor and Executive Function at 6 Years of Age After Extremely Preterm Birth. *Pediatrics.* 2007;120(4):793-804.
154. Hack M, Taylor HG, Drotar D, Schluchter M, Cartar L, Wilson-Costello D, et al. Poor Predictive Validity of the Bayley Scales of Infant Development for Cognitive Function of Extremely Low Birth Weight Children at School Age. *Pediatrics.* 2005;116(2):333-41.
155. Schmidt B, Anderson PJ, Doyle LW, Dewey D, Grunau RE, Asztalos EV, et al. Survival Without Disability to Age 5 Years After Neonatal Caffeine Therapy for Apnea of Prematurity. *JAMA: The Journal of the American Medical Association.* 2012;307(3):275-82.

156. Latal B. Prediction of Neurodevelopmental Outcome After Preterm Birth. *Pediatric Neurology*. 2009;40(6):413-9.
157. Schneiderman LJ. Defining Medical Futility and Improving Medical Care. *Journal of bioethical inquiry*. 2011;8(2):123-31.
158. Schneiderman LJ, Jecker NS, Jonsen AR. Medical futility: its meaning and ethical implications. *Annals of internal medicine*. 1990;112(12):949-54.
159. Group E. Incidence of and risk factors for neonatal morbidity after active perinatal care: extremely preterm infants study in Sweden (EXPRESS). *Acta Paediatr*. 2010;99(7):978-92.
160. Janvier A, Barrington KJ, Aziz K, Lantos J. Ethics ain't easy: do we need simple rules for complicated ethical decisions? *Acta paediatrica*. 2008;97(4):402-6.
161. Part 2: Ethical Aspects of CPR and ECC. *Resuscitation*. 2000;46(1-3):17-27.
162. Lucey JF, Rowan CA, Shiono P, Wilkinson AR, Kilpatrick S, Payne NR, et al. Fetal Infants: The Fate of 4172 Infants With Birth Weights of 401 to 500 Grams--The Vermont Oxford Network Experience (1996-2000). *Pediatrics*. 2004;113(6):1559-66.
163. Barrington KJ, Saigal S. Long-term caring for neonates. *Paediatr Child Health*. 2006;11(5):265-6.
164. Janvier A, Lantos JD. Variations of practice in the care of extremely preterm infants: Cambridge University Press; 2011. 94 p.
165. Pignotti MS, Donzelli G. Perinatal Care at the Threshold of Viability: An International Comparison of Practical Guidelines for the Treatment of Extremely Preterm Births. *Pediatrics*. 2008;121(1):e193-8.

166. Batton DG, Fetus Co, Newborn. Antenatal Counseling Regarding Resuscitation at an Extremely Low Gestational Age. *Pediatrics*. 2009;124(1):422-7.
167. Ethics DCo. Extreme Prematurity, Ethical Aspects. Copenhagen, Denmark: Danish Council of Ethics; 1995.
168. Kono Y, Mishina J, Takamura T, Hara H, Sakuma I, Kusuda S, et al. Impact of being small-for-gestational age on survival and long-term outcome of extremely premature infants born at 23-27 weeks' gestation. *Journal of perinatal medicine*. 2007;35(5):447-54.
169. Salle B, Sureau C. Le préma de moins de 28 SA, sa réanimation et son avenir. *Bull Acad Natle Méd*. 2006;190:1261-74.
170. Lorenz JM, Paneth N, Jetton JR, den Ouden L, Tyson JE. Comparison of management strategies for extreme prematurity in New Jersey and the Netherlands: Outcomes and resource expenditure. *Pediatrics*. 2001;108(6):1269-74.
171. Lantos JD, Meadow W. Variation in the Treatment of Infants Born at the Borderline of Viability. *Pediatrics*. 2009;123(6):1588-90.
172. Tyson JE, Parikh NA, Langer J, Green C, Higgins RD, the National Institute of Child Health and Human Development Neonatal Research Network. Intensive Care for Extreme Prematurity -- Moving beyond Gestational Age. *The New England journal of medicine*. 2008;358(16):1672-81.
173. Saigal S, Stoskopf BL, Feeny D, Furlong W, Burrows E, Rosenbaum PL, et al. Differences in preferences for neonatal outcomes among health care professionals, parents, and adolescents. *JAMA : the journal of the American Medical Association*. 1999;281(21):1991-7.

174. Lam HS, Wong SPS, Liu FYB, 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(6):1501-8.
175. 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(3):569-74.
176. Harrison H. Making lemonade: a parent's view of "quality of life" studies. *The Journal of clinical ethics*. 2001;12(3):239-50.
177. Pless JE. The story of Baby Doe. *The New England journal of medicine*. 1983;309(11):664.
178. Sheets KB, Best RG, Brasington CK, Will MC. Balanced information about Down syndrome: What is essential? *American Journal of Medical Genetics Part A*. 2011;155(6):1246-57.
179. Skotko BG. Prenatally diagnosed Down syndrome: Mothers who continued their pregnancies evaluate their health care providers. *American Journal of Obstetrics and Gynecology*. 2005;192(3):670-7.
180. Turner S, Alborz A. Academic attainments of children with Down's syndrome: a longitudinal study. *Br J Educ Psychol*. 2003;73(Pt 4):563-83.
181. Marlow N, Wolke D, Bracewell MA, Samara M, the EPICure Study Group. Neurologic and Developmental Disability at Six Years of Age after Extremely Preterm Birth. *The New England journal of medicine*. 2005;352(1):9-19.

182. Saigal S, Stoskopf B, Streiner D, Boyle M, Pinelli J, Paneth N, et al. Transition of Extremely Low-Birth-Weight Infants From Adolescence to Young Adulthood: Comparison With Normal Birth-Weight Controls. *JAMA*. 2006;295(6):667-75.
183. Janvier A, Farlow B, Wilfond BS. The Experience of Families With Children With Trisomy 13 and 18 in Social Networks. *Pediatrics*. 2012.
184. Saigal S. Quality of life of former premature infants during adolescence and beyond. *Early Human Development*. 2013(0).
185. Van Dyke D. Clinical Management Considerations in Long-Term Survivors With Trisomy 18. *Pediatrics*. 1990;85:753-9.
186. Singer L, Davillier M, Bruening P, Hawkins S, Yamashita T. Social support, psychological distress, and parenting strains in mothers of very low birthweight infants. *Fam Rel*. 1996;45:343-50.
187. Skotko BG, Levine SP, Goldstein R. Having a brother or sister with Down syndrome: Perspectives from siblings. *American Journal of Medical Genetics Part A*. 2011;155(10):2348-59.
188. Skotko BG, Levine SP, Goldstein R. Having a son or daughter with Down syndrome: Perspectives from mothers and fathers. *American Journal of Medical Genetics Part A*. 2011;155(10):2335-47.
189. Sheets K, Crissman B, Feist C, Sell S, Johnson L, Donahue K, et al. Practice Guidelines for Communicating a Prenatal or Postnatal Diagnosis of Down Syndrome: Recommendations of the National Society of Genetic Counselors. *J Genet Counsel*. 2011;20(5):432-41.

190. Janvier A, Lorenz JM, Lantos J. Antenatal Counseling for Parents Facing an Extremely Preterm Birth: Limitations of the Medical Evidence. *Acta Paediatrica*. 2012;no-no.
191. Caeymaex L, Joussetme C, Vasilescu C, Danan C, Falissard B, Bourrat M-M, et al. Perceived role in end-of-life decision making in the NICU affects long-term parental grief response. *Archives of Disease in Childhood - Fetal and Neonatal Edition*. 2013;98(1):F26-F31.
192. Janvier A, Lantos J, Deschenes M, Couture E, Nadeau S, Barrington KJ. Caregivers attitudes for very premature infants: what if they knew? *Acta paediatrica*. 2008;97(3):276-9.
193. Janvier A, Bauer KL, Lantos JD. Are Newborns Morally Different from Older Children? *Theoretical Medicine and Bioethics*. 2007;28(5):413-25.
194. Hansen TW, Janvier A, Aasland O, Forde R. Ethics, choices, and decisions in acute medicine: a national survey of norwegian physicians' attitudes. *Pediatric critical care medicine : a journal of the Society of Critical Care Medicine and the World Federation of Pediatric Intensive and Critical Care Societies*. 2013;14(2):e63.
195. Fontana MS, Farrell C, Gauvin F, Lacroix J, Janvier A. Modes of Death in Pediatrics: Differences in the Ethical Approach in Neonatal and Pediatric Patients. *The Journal of pediatrics*. 2013(0).
196. Armstrong K, Ryan CA, Hawkes CP, Janvier A, Dempsey EM. Life and death decisions for incompetent patients: determining best interests – the Irish perspective. *Acta Paediatrica*. 2011;100(4):519-23.
197. Laventhal N, Spelke MB, Andrews B, Larkin LK, Meadow W, Janvier A. Ethics of Resuscitation at Different Stages of Life: A Survey of Perinatal Physicians. *Pediatrics*. 2011;127(5):e1221-9.

198. Carbajal R, Rousset A, Danan C, Coquery S, Nolent P, Ducrocq S, et al. Epidemiology and Treatment of Painful Procedures in Neonates in Intensive Care Units. *JAMA*. 2008;300(1):60-70.
199. Losacco V, Cuttini M, Greisen G, Haumont D, Pallás-Alonso CR, Pierrat V, et al. Heel blood sampling in European neonatal intensive care units: compliance with pain management guidelines. *Archives of Disease in Childhood - Fetal and Neonatal Edition*. 2011;96(1):F65-F8.
200. Johnston C, Barrington KJ, Taddio A, Carbajal R, Filion F. Pain in Canadian NICUs: Have We Improved Over the Past 12 Years? *Clin J Pain*. 2011;27(3):225-32.

Annexe 1 – Questionnaire écrit

Vous êtes un médecin dans un département d'urgence universitaire. Pour ces patients incompétents, indiquez votre propension à intuber, réanimer et consulter les soins intensifs. Cet hôpital a une unité de soins intensifs néonatale, pédiatrique et adulte.

Une femme à 24 semaines de gestation risque d'accoucher de façon imminente. Ce bébé aurait 50% de chances de survie. Le pronostic pour les survivants est: 50% normal, 15-25% handicap sévère (surdit , c c t , paralysie c r brale, ou d veloppement anormal), et 40% handicap mineur (hyperactivit , probl mes d'apprentissage...). Le b b  na t et p se 700 grammes (compatible avec 24 semaines) mais ne respire pas de mani re efficace. Vous n'avez pas le temps de parler aux parents.

Feriez-vous une intubation et r animation et consulteriez-vous les soins intensifs pour une admission?

toujours g n ralement exceptionnellement jamais

Si les parents vous demandaient de ne pas r animer, respecteriez-vous leur choix?

toujours g n ralement exceptionnellement jamais

Pensez-vous qu'intuber, r animer et consulter les soins intensifs est dans le meilleur int r t de l'enfant?

toujours g n ralement exceptionnellement jamais

Si c' tait votre enfant et vous aviez quelques minutes pour prendre votre d cision, voudriez-vous que le m decin intube, r anime et consulte les soins intensifs pour une admission?

toujours généralement exceptionnellement jamais

Un bébé à terme naît à l'urgence de manière précipitée. Il a une anomalie vasculaire cérébrale diagnostiquée *in utero*. Les consultations prénatales estiment un pronostic de 50% de survie. Le pronostic pour les survivants est: 50% normal, 15-25% handicap sévère, et 40% handicap mineur. Le bébé naît et ne respire pas de manière efficace. Vous n'avez pas le temps de parler aux parents.

Feriez-vous une intubation et réanimation et consulteriez-vous les soins intensifs pour une admission?

toujours généralement exceptionnellement jamais

Si les parents vous demandaient de ne pas réanimer, respecteriez-vous leur choix?

toujours généralement exceptionnellement jamais

Pensez-vous qu'intuber, réanimer et consulter les soins intensifs est dans le meilleur intérêt de l'enfant?

toujours généralement exceptionnellement jamais

Si c'était votre enfant et vous aviez quelques minutes pour prendre votre décision, voudriez-vous que le médecin intube, réanime et consulte les soins intensifs pour une admission?

toujours généralement exceptionnellement jamais

Un bébé de 2 mois sans antécédents est amené à l'urgence avec fièvre, irritabilité et pauses respiratoires. Les investigations confirment une méningite bactérienne, avec un pronostic de survie de 50%, et chez les survivants: 50% normal, 15-25% handicap sévère, et 40% handicap mineur. Le bébé arrête de respirer. Vous n'avez pas le temps de parler aux parents.

Feriez-vous une intubation et réanimation et consulteriez-vous les soins intensifs pour une admission?

toujours généralement exceptionnellement jamais

Si les parents vous demandaient de ne pas réanimer, respecteriez-vous leur choix?

toujours généralement exceptionnellement jamais

Pensez-vous qu'intuber, réanimer et consulter les soins intensifs est dans le meilleur intérêt de l'enfant?

toujours généralement exceptionnellement jamais

Si c'était votre enfant et vous aviez quelques minutes pour prendre votre décision, voudriez-vous que le médecin intube, réanime et consulte les soins intensifs pour une admission?

toujours généralement exceptionnellement jamais

Un garçon de 7 ans souffre de paralysie cérébrale: il boite mais n'a pas besoin de chaise roulante et peut pratiquer quelques sports. Il redoublera sa 1ère année à cause d'un problème d'apprentissage et d'hyperactivité. Il a une surdité corrigée. Il a été frappé par une

voiture. Il respire de manière très superficielle et a de nombreuses ecchymoses. Il a une convulsion brève. Son imagerie démontre un œdème modéré à sévère. D'après les consultants, ses chances de survie sont de 50% avec 50% de chances de récupérer son état de santé avant l'accident. Il arrête de respirer en convulsant.

Feriez-vous une intubation et réanimation et consulteriez-vous les soins intensifs pour une admission?

toujours généralement exceptionnellement jamais

Si les parents vous demandaient de ne pas réanimer, respecteriez-vous leur choix?

toujours généralement exceptionnellement jamais

Pensez-vous qu'intuber, réanimer et consulter les soins intensifs est dans le meilleur intérêt de l'enfant?

toujours généralement exceptionnellement jamais

Si c'était votre enfant et vous aviez quelques minutes pour prendre votre décision, voudriez-vous que le médecin intube, réanime et consulte les soins intensifs pour une admission?

toujours généralement exceptionnellement jamais

Un homme de 35 ans consulte pour des maux de tête et une difficulté à trouver ses mots selon sa femme et ses enfants. Son examen neurologique est anormal et son CT scan montre une tumeur cérébrale compatible avec un *glioblastome multiforme*. Ce cancer a un taux de survie de 3% (sur 5 ans) avec chirurgie, chimiothérapie et radiothérapie. La chirurgie le laissera avec des séquelles (paralysie, difficultés de langage et de cognition probables) et il sera incapable de retravailler. Vous revenez voir votre patient, mais il convulse et arrête de respirer. Vous n'avez pas le temps de rencontrer la famille.

Feriez vous une intubation et réanimation et consulteriez-vous les soins intensifs pour une admission?

toujours généralement exceptionnellement jamais

Si la famille vous demandait de ne pas réanimer, respecteriez-vous leur choix?

toujours généralement exceptionnellement jamais

Pensez-vous qu'intuber, réanimer et consulter les soins intensifs est dans le meilleur intérêt du patient?

toujours généralement exceptionnellement jamais

Si c'était votre conjoint et vous aviez quelques minutes pour prendre votre décision, voudriez-vous que le médecin intube, réanime et consulte les soins intensifs pour une admission?

toujours généralement exceptionnellement jamais

Si c'était vous et que vous pouviez décider, voudriez vous que le médecin intube, réanime et consulte les soins intensifs?

toujours généralement exceptionnellement jamais

Un homme de 50 ans est victime d'un accident de la route. Il a eu un trauma crânien et des fractures multiples, dont une non déplacée de la 5^{ème} vertèbre cervicale. Il est brûlé 60% et est semi-conscient. Selon les consultants, ses chances de survie sont de 50% avec 50% de risques de handicap s'il survit (probabilité de paralysie des bras et des quadriparésie significative). Le patient doit être intubé.

Feriez vous une intubation et réanimation et consulteriez-vous les soins intensifs pour une admission?

toujours généralement exceptionnellement jamais

Si la famille vous demandait de ne pas réanimer, respecteriez-vous leur choix?

toujours généralement exceptionnellement jamais

Pensez-vous qu'intuber, réanimer et consulter les soins intensifs est dans le meilleur intérêt du patient?

toujours généralement exceptionnellement jamais

Si c'était votre conjoint et vous aviez quelques minutes pour prendre votre décision, voudriez-vous que le médecin intube, réanime et consulte les soins intensifs pour une admission?

toujours généralement exceptionnellement jamais

Si c'était vous et vous aviez quelques minutes pour réfléchir (pas une situation d'urgence comme telle) voudriez vous que le médecin intube, réanime et consulte les soins intensifs?

toujours généralement exceptionnellement jamais

SI TOUS CES PATIENTS DEVAIENT ÊTRE RÉANIMÉS EN MÊME TEMPS, DANS QUEL ORDRE LES TRAITERIEZ-VOUS (INDIQUEZ DE 1 À 6 AVEC 1 = LE PREMIER Pt À ÊTRE RÉANIMÉ) ?

Prématuré de 24 semaines

Nouveau-né avec malformation AV

2 mois avec méningite _____

7 ans paralysie cérébrale, accident _____

35 ans cancer du cerveau _____

50 ans accident de voiture _____

—
Vous êtes: homme femme

Résident Junior Sénior

Fellow Infirmière Patron

Néonatalogie Pédiatrie Obstétrique Urgence

< 30 ans 30-40 ans 40-50 ans Plus de 50 ans

Avez-vous des enfants? Oui Non

Annexe 2 – Questionnaire ouvert

Questions ouvertes de l'interviewer :

-Comment faites-vous pour évaluer le meilleur intérêt de ces patients?

-Pourquoi seriez-vous prêt(e) à donner des soins de confort pour les nouveau-nés, et pas pour l'enfant de 2 mois ou l'adulte; tous les quatre ont des pronostics similaires?

-Pourquoi estimez-vous qu'il est dans le meilleur intérêt d'intuber un enfant avec des handicaps multiples qui a 50% de chances de survie (en refusant de lui donner des soins de confort)?

-Alors il faudrait aussi estimer qu'il est dans le meilleur intérêt du prématuré de se faire intuber (et refuser des soins de confort demandés par la famille) quand lui il a 50% de chances de s'en tirer sans séquelles?

-Est-ce que votre attitude changerait si on vous disait que seulement 5% des prématurés de 24 semaines sont handicapés aussi sévèrement que l'enfant de 7 ans impliqué dans un accident de voiture? Pourquoi alors le valoriser plus que le prématuré?

-Pourquoi placez-vous les patients dans cet ordre?

-Pourquoi, avec un devenir similaire, placerait-on les nouveau-nés après l'enfant de 2 mois qui a une méningite?

-Pourquoi placerait-on les nouveau-nés après l'enfant de 7 ans, qui a plus de risques de séquelles à long terme (déjà 100% avant l'accident?)

