

Dossier de candidature pour l'obtention de
l'Habilitation à Diriger les Recherches

CONSTRUCTION D'UN PROJET DE VIE APRES LESION CEREBRALE ACQUISE

Par Agata Krasny-Pacini

HDR SOUTENUE LE MARDI 7 JUIN 2022 DEVANT LE JURY :

PR. XAVIER DE BOISSEZON, MPR, PU-PH, RAPPORTEUR

DR. EMMANUEL CONTAMIN, PSYCHIATRE, EXAMINATEUR

DR. ANNE GIER SCH, PSYCHIATRE, DR, EXAMINATEUR

PR. MARIE-EVE ISNER-HOROBETI, MPR, PU-PH, GARANT

PR. JACQUES LUAUTE, MPR, PU-PH, RAPPORTEUR

PR. ISABELLE RICHARD, MPR, PU-PH, RAPPORTEUR

PR. LUISA WEINER, PSYCHOLOGUE, PR, EXAMINATEUR

A l' Institut Universitaire de Réadaptation Clemenceau, UGECAM Alsace

REMERCIEMENTS

La plupart des projets et surtout le projet LA-REPT n'aurait pointé dans mon esprit, si des personnes ne m'avaient pas partagé de leur expérience intime de vivre avec les conséquences d'une lésion cérébrale ou de vivre avec une personne ayant eu une lésion cérébrale ou leur expérience d'accompagner dans le service des personnes avec une lésion cérébrale. Un merci particulier à Rebecca, Martine, Maurizio, Nicolas, Geoffray, Patrick, Ouri et Dina, Rephael, Juliette et tant d'autres héros de la vie de tous les jours qui vivent avec le handicap invisible de la lésion cérébrale, merci pour votre persévérance. Merci de m'avoir appris que l'on peut toujours progresser, et reconstruire même si la reconstruction ne peut parfois débiter que 8 ou 10 ans après la lésion cérébrale.

À Marie-Eve Isner-Horobeti pour son soutien inconditionnel et toute la construction de la MPR universitaire à Strasbourg. Pour son invitation répétée à ce poste universitaire qui m'épanouit alors que je ne le pensais pas compatible avec ma vie de famille. Je suis heureuse dans ce poste grâce à votre confiance, à la liberté de choisir dans quel projet m'investir, et à votre soutien très concret. Je vous redis toute ma reconnaissance. Encore un grand merci d'avoir trouvé le financement nécessaire à la thèse de Marie Kuppelin qui est la raison de cette HDR.

À Anne Giersch, Fabrice Berna, et tout le laboratoire de l'Inserm 1114 qui m'a accueillie à bras ouverts malgré ma thématique de recherche loin des neurosciences et très loin de la physiopathologie de la schizophrénie. J'apprécie énormément la place que vous m'avez faite dans le laboratoire, les séminaires passionnants, les échanges constructifs. Surtout cette appartenance m'aide à encore plus travailler à la complémentarité entre la MPR à la psychiatrie.

À Emmanuel Contamin, pour les échanges qui m'ont aidée à voir une cohérence dans ce que l'on propose aux patients en psychothérapie.

À Xavier de Boissezon, pour ton soutien dans la GAS et le SCED, tes conseils précieux, ta bienveillance et ton investissement constant pour le COFEMER.

Au Pr Richard, pour le premier cours de MPR de mon DES (jeu de rôle sur comment communiquer avec la famille d'un patient cérébrolésé en éveil de coma), qui m'a mis sur les rails de la clinique et la recherche que j'ai poursuivi ensuite et guidé toujours depuis. Merci de l'honneur de vous avoir dans ce jury.

À Jacques Luauté, pour ce magnifique travail de recommandation sur les troubles du comportement, source d'inspiration pour développer les TCC et se mobiliser pour la prise en charge des patients traumatisés crâniens avec criminalité.

Ce travail ne serait pas possible si je n'avais pas une équipe EMOI TC fantastique, qui sait à la fois me soutenir, s'engager dans mes nouvelles propositions et qui sait en même temps me dire quand c'est trop. Merci de leur présence au quotidien et pour nos échanges constructifs. Mention spéciale à Régine Choisel, psychologue clinicienne à EMOI TC, pour m'avoir suivie dans le projet TCD qui n'a pas été facile au début.

Un grand merci à notre secrétaire Catherine Knurek pour sa disponibilité, sa présence et sa très grande efficacité. Beaucoup de ce que font les médecins et universitaires est visible, mais les petites

mais qui sont derrière ne sont pas souvent visibles, en particulier, 80% de ma qualité de vie au travail, de la qualité des soins et de l'accompagnement des patients, je le dois à son investissement.

La collecte de données aboutissant à cette HDR n'aurait jamais été possible sans les étudiants et internes qui permettent ces projets par leur travail et motivation, en particulier les internes de MPR, les étudiants, du master psycho TCC, du master neuropsychologie, et d'orthophonie du CFUOS et une mention spéciale à Marie Kuppelin, ma première vraie doctorante (merci pour la relecture de l'HDR !).

A Monsieur Vivet, Monsieur Nautré, Monsieur Tcheng, Madame Gentaio, Monsieur Rossini, Monsieur Dirringer et la direction de l'UGECAM Alsace, pour son support organisationnel et financier du projet transdisciplinaire LA-REPT. Merci pour votre soutien au développement du service EMOI TC.

Merci à notre équipe de thérapie comportementale dialectique, psychiatres et psychologues des Hôpitaux Universitaires de Strasbourg et en particulier Luisa Weiner et Sébastien Weibel, qui ont su me partager et m'apprendre cette thérapie. Au-delà de l'aspect universitaire et clinique, merci pour nos échanges personnels, pour le non-jugement. Le jour de mes 30 ans j'ai assisté à une communication de Jenny Ponsford au Congrès IBIA d'Édimbourg qui portait sur les interventions psychologiques (TCC en particulier) pour les personnes avec une lésion cérébrale. Sa communication m'avait totalement fascinée mais je n'avais jamais trouvé personnes connaissant les thérapies dont elle parlait. Ce jour-là, je me suis dit que mon rêve serait de développer ce genre de thérapie en France mais personne n'en avait entendu parler dans le milieu de la MPR française ; et 7 ans plus tard j'ai rencontré Luisa, Sébastien, Doha, Enzo, Amaury et tant d'autres qui m'ont appris la thérapie comportementale dialectique, et sensibilisée aux autres TCC de 3e génération, tel la thérapie d'acceptation et engagement (ACT) et la Compassion-focused therapy. Les consultations TCD m'humanisent toujours plus, et pour reprendre notre pratique de pleine conscience-participation, je suis reconnaissante de vous **Avoir rencontrés**, **Baigner** dans votre espérance que tout patient peut s'engager vers une vie qui vaut la peine d'être vécue, **Continuer** à m'enseigner, **Décloisonner** rééducation neurologique et psychiatrie, et surtout, surtout me donner des outils pour apprendre à **Engager** les patients résistants à aller vers la vie.

À mes confrères, passés, présents et futurs ; merci pour votre soutien, nos échanges et collaborations stimulantes et précieuses, avec une mention spéciale pour Dominique Gault, Charles Pradeau et ma chère co-EMOI TC Maud Elbel.

À Myriam Durand, notre chef de projet, pour son inlassable soutien, sa bonne humeur, son travail et ses conseils malgré les échecs de financement et les avis défavorables des CPP.

À Pierre-Olivier François, pour la relecture de l'HDR et nos collaborations passées et futures au CFUOS.

À tous les collègues de l'IURC, pour la construction progressive d'une culture recherche et pas seulement innovation.

À mes amis et collaborateurs SCED : Rumen Manolov - pour ta passion des stat SCED et parce que tu considères que chacun de mes problèmes de données SCED de vraie vie est inspiration pour un

nouveau papier, à Elena Chabran pour tous tes efforts pour nos étudiants en orthophonie et pour m'avoir motivée à ce papier sur la réglementation des SCED. À Hélène Lebrault, pour un PHRIP en SCED passionnant qui repousse mes limites d'analyses des données SCED.

À notre GAS dream team : Rache Bard, Charles Pradeau, Fabienne Turcant-Roumenoff, Claire Villepinte and Co. À nos réflexions, nos formations données (et papiers en révisions !)

À mes amis du temps d'études, Anne-Catherine Baudoin, Jacques Rauscher et Thibault Joubert : quand vous avez soutenu vos thèses respectivement de grec ancien, sociologie et droit, j'étais très loin de m'imaginer que vous finiriez universitaires tous dans des facultés de théologie. Trouver un sujet sur lequel travailler ensemble académiquement n'en a été que plus compliqué, mais stimulant. A ces papiers à soumettre bientôt et à ceux en gestation. Merci pour vos domaines si opposés au mien et qui pourtant peuvent nous enrichir tellement.

À Jon Evans et Mathilde Chevignard, mes directeurs de PhD pour m'avoir tout appris de la recherche.

À Bénédicte, Thibault et Gaëlle, pour votre force plus forte que les pires maladies qui existent car votre exemple me rappelle qu'un chemin est toujours possible quand tout semble impossible.

À Marsha Linehan, car la TCD et le récit de sa vie est source de constante inspiration pour ma pratique de médecin, de chercheur et de régulation émotionnelle dans ma propre vie.

À mon Davide, pour me limiter dans mon temps de travail et pour toujours me rappeler ce qui est le plus important.

TABLE DES MATIERES

REMERCIEMENTS	1
RESUME	9
ABRÉVIATIONS	11
INTRODUCTION	12
I) RECHERCHE PASSEE	13
II) METHODOLOGIES DES RECHERCHES PASSEES, FUTURES ET EN COURS	18
1. Goal Attainment Scaling (GAS)	18
2. Single-Case Experimental designs (SCED)	23
a) Bref survol de ce que sont les SCED	23
b) Résumé des travaux sur les SCED	28
c) Faire connaître les SCED, enseigner la manière de les utiliser	29
d) Montrer l'applicabilité des SCED aux différents champs de MPR	29
e) Faire reconnaître les SCED comme méthodologie valide et rigoureuse, notamment via des randomisations optimisées	33
f) Associer SCED et GAS comme méthodologie privilégiée en MPR	46
g) Conclusion et perspectives sur les SCED	47
3. Conclusion sur le chapitre Méthodologie	47
III) ACCOMPAGNEMENT DE LA CONSTRUCTION D'UN PROJET DE VIE EN MEDICO-SOCIAL	48
1. La structure médico-sociale EMOI-TC	48
2. Anosognosie, utilisation de sa mémoire autobiographique et reconstruction identitaire	50
a) Modèle de l'anosognosie de l'enfant	50
b) Comparaison des profils d'anosognosie et utilisation de la mémoire autobiographique A l'âge adulte selon la survenue de la lésion sur cerveau mature ou en développement.	52
c) Exploration de la mémoire autobiographique, de son utilisation et de son rapport avec le concept de soi dans la lésion cérébrale	54
d) Mémoire autobiographique et Reconstruction identitaire face aux problèmes cognitifs	55

3. Pensées, schémas cognitifs et émotions dans la rééducation cognitive et la reconstruction d'un projet de vie.....	58
4. Régulation émotionnelle	62
a) Proposition d'une lecture des troubles du comportement après lésion cérébrale comme expression d'une dysrégulation émotionnelle.....	62
b) Traiter la dysrégulation émotionnelle.....	66
c) La thérapie comportementale dialectique.....	67
d) Résultats pilotes TCD chez des patients avec lésions cérébrales acquises	70
e) Resultat pilotes GREMO sur les 2 premiers groupes.....	75
f) Profils de patients des 2 premiers groupes GREMO-LCA.....	77
5. Construction d'un projet de vie : libre arbitre.....	79
a) Bref point sur les concepts de libre arbitre	79
b) Questionnements cliniques autour du libre arbitre.....	80
c) Impliquer les patients sur la recherche philosophique sur le libre arbitre	84
d) Exemple de la Recherche participative sur le libre arbitre	85
e) Exemple de propos rapportés par les patients et leurs familles lors de la réunion participative	86
6. Résilience et croissance post traumatique dans les lésions cérébrales	88
7. Accompagner les proches et familles	91
8. Conclusion sur l'accompagnement de la construction d'un projet de vie en médico-social	97

IV) PROJET TRANSDISCIPLINNAIRE « LIBRE ARBITRE ET REGULATION EMOTIONNELLE POUR TOUS » (LA REPT) 99

1. Origine et construction participative du projet.....	100
2. Connaissances scientifiques actuelles	103
3. Régulation émotionnelle pour tous (REPT).....	104
a) La TCD : Un outil DIALECTIQUE indispensable à l'auto-détermination, à mettre au cœur du médico-social.....	104
b) La TCD, un outil FAISABLE de choix pour implémenter la régulation émotionnelle	106

4. Objectifs	106
5. Méthodologie	108
6. Méthode.....	110
a) Critères de jugement : à la recherche de critères de jugement inclusifs.....	110
b) Intervention.....	116
c) Principaux Critères d'inclusion	117
d) Nombre de sujets à inclure et faisabilité du recrutement	118
7. Justification de la composition des équipes et modalités concrètes de travail entre les équipes et leur coordination.....	118
8. Organisation du projet et Dimension participative	119
V) DISCUSSION GLOBALE DE L'HDR	120
1. Réflexion sur la méthodologie du projet LA-REPT.....	120
a) Originalité et pertinence du projet:	120
b) Argumentation contre une méthodologie d'essai randomisée contrôlée.....	121
c) Discussion des critères d'inclusion	122
d) Critères de jugement : sur quoi la TCD est-elle efficace finalement ?	125
2. De la qualité de vie ou plus de sens à sa vie ?.....	127
3. Conclusion	130
a) Mes rêves pour la MPR de demain et mes projets pour y tendre	130
b) Recherche et activité universitaire en médico-social ?.....	131
c) La thérapie comportementale dialectique.....	131
BIBLIOGRAPHIE	134
ANNEXES.....	145
1. GUIDE ENTRETIEN libre arbitre juin 2021	145
2. Guide d'entretien issu de la réunion participative de décembre 2021	146
3. Extraits du manuel GREMO : adaptation en français du module « PARDON » de Lynch et al.....	147

CURRICULUM VITAE	152
EXEMPLES DE PUBLICATIONS.....	163

RESUME

Médecin et MCUPH à l'Institut Universitaire de Réadaptation Clemenceau, mes travaux de recherche sont motivés et guidés par (1) les problématiques que je rencontre au quotidien avec les patients ayant des troubles cognitifs et (2) les problématiques méthodologiques de mes collègues MPR (médecine physique et de réadaptation), et rééducateurs paramédicaux, qui m'ont amenée à développer le versant méthodologique de mon activité d'enseignement et de recherche.

Travaillant dans un service universitaire médico-social (EMOI-TC) ayant pour vocation d'accompagner les patients ayant des troubles cognitifs après lésion cérébrale acquise à reconstruire un projet de vie, mes sujets de recherche actuels touchent autant à ma spécialité médicale (MPR), qu'à la psychothérapie (régulation émotionnelle notamment), la neuropsychologie (rééducation des fonctions exécutives notamment) et à la recherche sur le médico-social et ses aspects de sciences humaines et sociales (pour lesquelles je collabore avec des collègues de psychologie et psychiatrie, mais également philosophie et linguistique). Dans mes choix de projets, le premier critère est de répondre à des connaissances manquantes pour les patients de notre unité (que ce soit en terme organisationnel, interventionnel, méthodologique ou de recherche de sens), favoriser les recherches transdisciplinaires et participatives, et impliquer des étudiants de différents domaines pour croiser les regards (direction de mémoires de DES de MPR, mémoires de neuropsychologie, de psychologie TCC, d'orthophonie et prochainement collaboration pour des mémoires de philosophie).

Mes questions de recherche ont été en lien avec la réalité clinique de mon activité de médecin MPR. Initialement en MPR pédiatrique, je me suis intéressée aux conséquences du traumatisme crânien de l'enfant sur les fonctions exécutives et les liens avec la mémoire prospective et la métacognition, et la manière de les rééduquer. Ces travaux m'ont surtout permis de réfléchir aux difficultés et biais des méthodologies utilisées pour tester l'efficacité des rééducations cognitives. Ceci m'a permis de développer des méthodologies alternatives de recherche clinique, en particulier le Goal Attainment Scaling – GAS (groupe de méthodologies qui permet d'évaluer l'efficacité d'une intervention sur les objectifs personnels des patients) et les Single-Case Experimental designs -SCED (méthodologie qui vise à mesurer les effets d'une intervention à l'échelle d'un individu, en utilisant des mesures répétées, afin de comparer l'individu à lui-même au lieu de raisonner à l'échelle de groupe).

Seront présentées ici les applications des SCED et de la GAS à des études que nous avons réalisées dans des domaines très différents de rééducation : rééducation de la communication dans l'aphasie très sévère ; rééducation de la planification chez l'adulte avec Syndrome de Prader Willi; guidance interactive par vidéo feed-back de dyades parents-enfants avec Trouble du Spectre Autistique, (PHRCI-18-014), rééducation des fonctions exécutives chez les enfants traumatisés crâniens par Goal Management Training (étude pGMT) et par COOP (PHRIP-19-0074) ; appareillage pour les amputés trans-tibiaux - Essai clinique Unity : N of 1 trial multiples, prospectif, en double aveugle multicentrique ; rééducation des amputations des champs visuels...

De façon complémentaire à l'étude des fonctions exécutives « froides », cognitives, le fait d'avoir rejoint en 2018 le laboratoire INSERM 1114 de Strasbourg et l'équipe de recherche clinique de thérapie comportementale dialectique (TCD) du service de psychiatrie du CHU de Strasbourg, m'a permis de me tourner vers les aspects dits « chauds », soit émotionnels et comportementaux, des fonctions exécutives et des manifestations émotionnelles secondaires aux lésions cérébrales. La

majeure partie de mes collaborations est donc actuellement en rapport avec les domaines de la psychiatrie et de la psychothérapie. C'est ainsi qu'une étude pilote de régulation émotionnelle a vu le jour - le projet transdisciplinaire, LA-REPT (libre arbitre et régulation émotionnelle pour tous) qui fera l'objet d'une thèse de psychologie (début en septembre 2021), plusieurs mémoires de master de psychologie et d'orthophonie, et des mémoires de sciences humaines et sociales. Ce projet propose de (1) explorer l'expérience du libre arbitre (propriété qu'aurait la volonté humaine de se déterminer librement), en lien avec les émotions après lésion cérébrale acquise, et les modifications de cette expérience après intervention de régulation émotionnelle par méthodologie qualitative; (2) évaluer l'efficacité/ les bénéfices perçus d'une intervention de régulation émotionnelle en groupe basée sur les compétences de TCD pour les personnes accompagnées, pour leurs familles et pour leurs interactions (système familial).

Cette HDR aborde également les problèmes de reconstruction identitaire après lésion cérébrale, les problématiques des critères d'inclusion dans les études de groupe des patients en désinsertion, les critères de jugement basés sur la qualité de vie.

Surtout, cette HDR se propose de montrer comment à travers les méthodologies GAS et SCED et à travers la Thérapie Comportementale Dialectique, la recherche dans le domaine MPR et médico-social en particulier peut être au service de la (re)construction d'un projet de vie et au service de la croissance post traumatique après lésion cérébrale acquise.

MOTS CLEFS : médecine physique et de réadaptation ; Goal Attainment Scaling ; Single-Case Experimental designs ; thérapie comportementale dialectique ; lésion cérébrale acquise, médico-social ; régulation émotionnelle ; psychiatrie ; psychothérapie ; traumatisme crânien.

ABRÉVIATIONS

ACT : Acceptance and Commitment Therapy

AFTC : Association des Familles de traumatisés crâniens et cérébrolésés

AVC : Accidents Vasculaires Cérébraux

CIF : Classification Internationale du Fonctionnement de l'Organisation Mondiale de la Santé

CJ : Critère de jugement

CPT : Croissance Post-Traumatique

EMOI TC : Équipe multidisciplinaire d'Orientation et d'Insertion de personnes avec Troubles Cognitifs avec lésion cérébrale acquise

EMS : Établissement médico-social

FE : Fonctions Exécutives

GAS : Goal Attainment Scaling / Echelle d'Atteinte d'Objectif

GEM : Groupe d'Entraide Mutuelle

GREMO : Groupe de Régulation EMOTionnelle

IPA : Interpretative Phenomenological Analysis

IURC : Institut Universitaire de Réadaptation Clemenceau

LCA : lésion cérébrale acquise

LiLPA : Laboratoire de Linguistique, Langues, Parole de l'Université de Strasbourg

PEC : Prise en charge

QOLIBRI: Quality Of Life after BRain Injury

SAMSAH : Service d'accompagnement médico-social pour adultes handicapés

SCED : Single-Case Experimental Design

SOFMER : Société Française de Médecine Physique et de Réadaptation

TC : Traumatisme Crânien

TCC : Thérapies Cognitivo-Comportementales

TCCE : Thérapie Comportementale Cognitive et Émotionnelle

TCD : Thérapie Comportementale Dialectique

UEROS : Unité d'évaluation de réentraînement et d'orientation sociale et professionnelle

INTRODUCTION

Médecin MPR et MCUPH à l'Institut Universitaire de Réadaptation Clemenceau, mes travaux de recherche sont motivés et guidés par (1) les problématiques que je rencontre au quotidien avec les patients ayant des troubles cognitifs et (2) les problématiques méthodologiques de mes collègues MPR et rééducateurs paramédicaux, qui m'ont amenée à développer le versant méthodologique de mon activité d'enseignement et de recherche.

Travaillant dans un service universitaire médico-social (EMOI-TC) ayant pour vocation d'accompagner les patients ayant des troubles cognitifs après lésion cérébrale à reconstruire un projet de vie, mes sujets de recherche actuels touchent autant à ma spécialité médicale (MPR : médecine physique et de réadaptation), qu'à la psychologie (régulation émotionnelle notamment), la neuropsychologie (fonctions exécutives notamment) et à la recherche sur le médico-social et ses aspects de sciences humaines et sociales (pour lesquelles les collaborations actuelles comprennent des collègues de psychologie et psychiatrie mais également philosophie et linguistique).

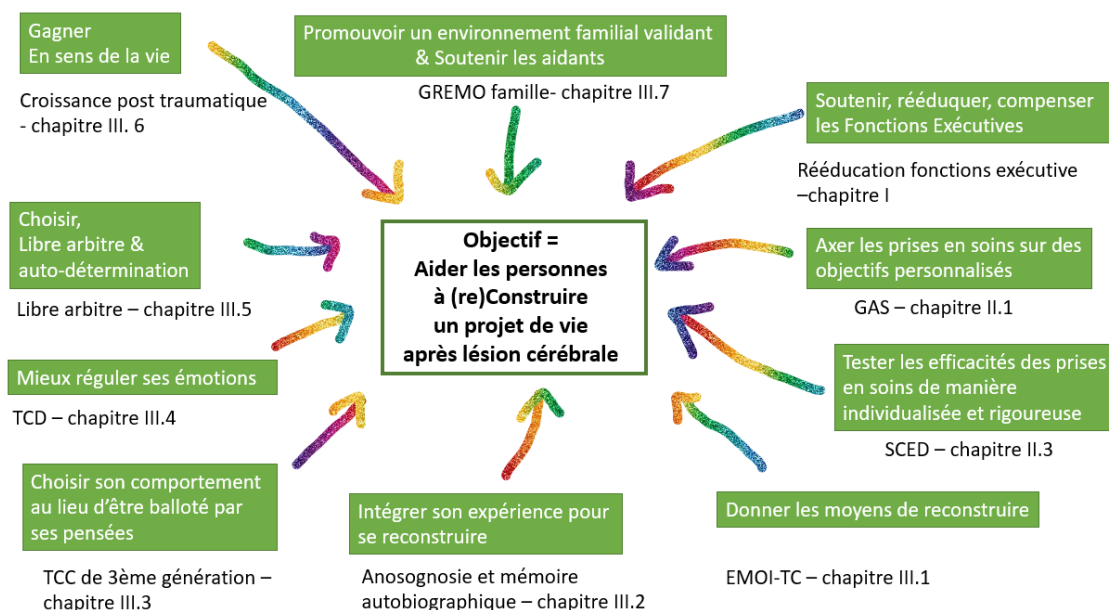
Dans mes choix de projets, les premiers critères sont de :

-répondre à des connaissances manquantes pour les patients de notre unité (que ce soit en termes organisationnel, interventionnel, méthodologique ou de recherche de sens)

-favoriser les recherches transdisciplinaires et participatives,

-impliquer des étudiants de différents domaines pour croiser les regards (direction régulière de mémoires de DES de MPR, mémoires de neuropsychologie, de psychologie TCC, d'orthophonie et prochainement collaboration pour mémoires de philosophie)

Cette HDR est donc organisée selon ces objectifs, ayant en commun la compréhension, la recherche et la validation de moyens pour construire un projet de vie après lésion cérébrale.



TCC : Thérapie Comportementale Cognitive ; TCD : Thérapie Comportementale Dialectique

I) RECHERCHE PASSEE

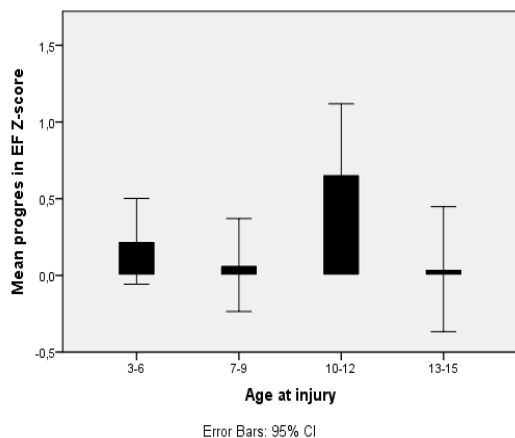
Ma thèse réalisée auprès de Mathilde Chevignard à Paris VI et de Jonathan Evans à Glasgow s'intitulait « Fonctions Exécutives (FE), Mémoire Prospective et Métacognition chez l'enfant traumatisé crânien : évaluation, caractérisation et rééducation. » Les FE se définissent comme un ensemble de fonctions cognitives élaborées intervenant dans le comportement intentionnel, organisé, volontaire, dirigé vers un but et la gestion des activités non routinières. Cette thèse m'a permis d'explorer deux aspects particuliers des FE : la métacognition (capacité à réfléchir à sa propre cognition, monitorer sa pensée, la contrôler et être conscient de ses limites lors de l'exécution d'une tâche) et la mémoire prospective, c'est à dire la capacité à se rappeler ce que l'on doit faire à un moment donné.

La première partie de ma thèse utilisait une cohorte d'enfants ayant eu un traumatisme crânien (TC) grave, la cohorte TGE (Trauma Grave de l'Enfant) et avait permis de confirmer les résultats de Crowe[1-3], et constater que les FE sont plus sévèrement atteintes lorsqu'elles sont lésées dans une période de développement rapide (cf. figure ci-dessous). D'autre part, les résultats confirmaient l'intuition clinique que l'utilisation de tests papier-crayon (pourtant largement utilisés pour évaluer, dépister et suivre le syndrome dysexécutif de l'enfant) sous-estiment largement les conséquences du TC sur la vie quotidienne (cf. figures ci-dessous).

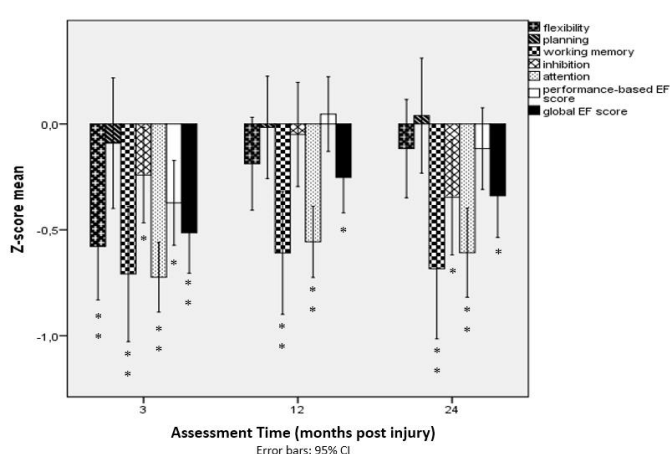
Executive functions following severe childhood traumatic brain injury – the TGE prospective longitudinal study: age at injury vulnerability periods. Agata Krasny-Pacini, Mathilde Chevignard, Sabine Lancien, Sylvie Escolano, Anne Laurent-Vannier, Maria De Agostini, Philippe Meyer. Ann Phys Rehabil Med. 2017 Apr;60(2):74-82.

Ecological Assessment of Everyday Executive Functioning at Home and at School Following Childhood Traumatic Brain Injury Using the BRIEF Questionnaire. Chevignard M, Kerrouche B, Krasny-Pacini A, Mariller A, Pineau-Chardon E, Notteghem P, Prodhomme J, Le Gall D, Roulin JL, Fournet N, Roy A. J Head Trauma Rehabil. 2017 Nov/Dec;32(6):E1-E12

Les enfants âgés de 7-9 ans et 13-15 ans (période de développement rapide des FE) au moment du TC ne montraient pas de progrès dans leur FE entre 3 mois et 24 mois post-TC :



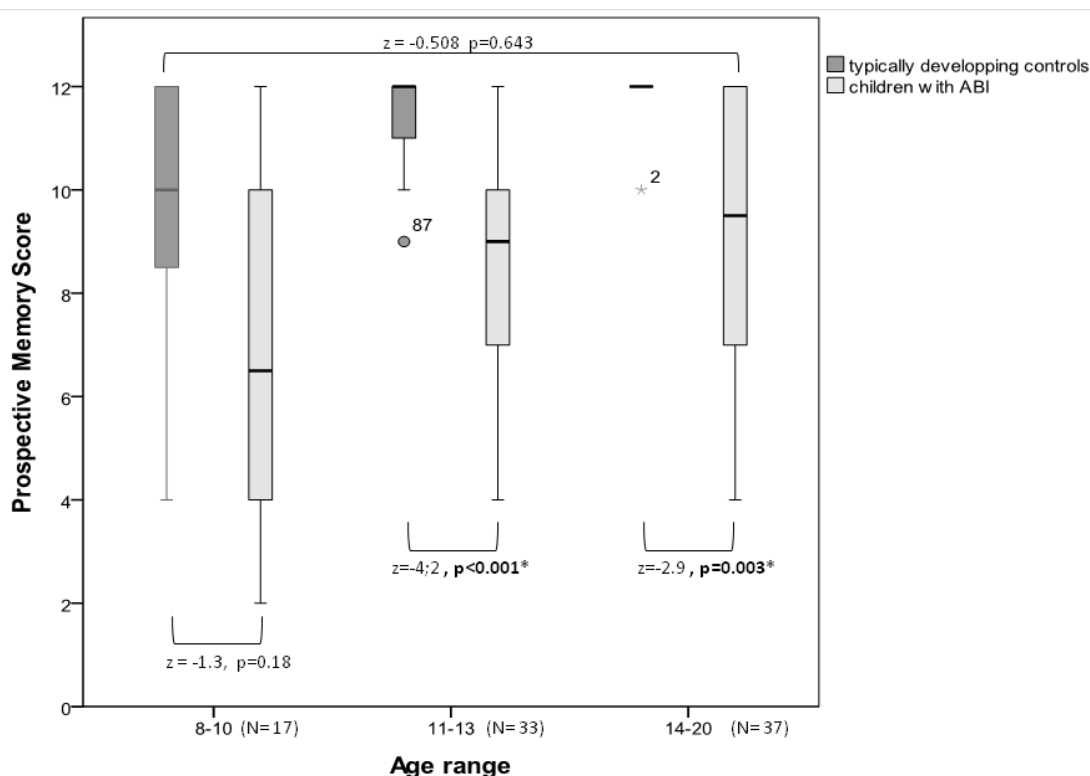
Le composite score de FE basé sur des tests papier-crayon (rectangle blanc) n'était pathologique que 3 mois post-TC, alors que le score incluant des mesures plus écologiques (rectangle noir) restait pathologique à 24 mois :



Deuxièmement, ma thèse avait montré les conséquences du TC et du syndrome dysexécutif sur la mémoire prospective, en montrant que les difficultés de mémoire prospective sont de sévérité telle que les adolescents cérébro-lésés ont des difficultés similaires à celles rencontrées par les jeunes enfants sains, âgés de 8-10 ans (cf. figure ci-dessous) et que ces difficultés persistent à 7 ans post TC.

Ecological prospective memory assessment in children with acquired brain injury using the Children's Cooking Task. Krasny-Pacini A, Servant V, Alzieu C, Chevignard M. Dev Neurorehabil. 2015 Jul 29:1-6.

Prospective Memory seven years after severe childhood traumatic brain injury - the TGE 2 prospective longitudinal study. Agata Krasny-Pacini, Francillette Leila, Toure Hanna, Brugel Dominique, Laurent-Vannier Anne, Meyer Philippe, Evans Jonathan, Chevignard Mathilde. Dev Neurorehabil. 2017; 20(7):456-461



La métacognition et la mémoire prospective sont deux aspects particulièrement importants pour les techniques de rééducation fondées sur le modèle de la négligence du but (« goal neglect »), que j'ai utilisé dans cette thèse. Ce modèle considère que syndrome dysexécutif et difficultés de mémoire prospective sont des présentations similaires du phénomène du « goal neglect ». Le « Goal Management Training » (GMT) se fonde sur ce modèle et tente de rééduquer le syndrome dysexécutif en améliorant le maintien en mémoire prospective de l'objectif principal d'une tâche donnée. Le GMT utilise la métacognition pour compenser les difficultés exécutives et lutter contre la négligence du but.

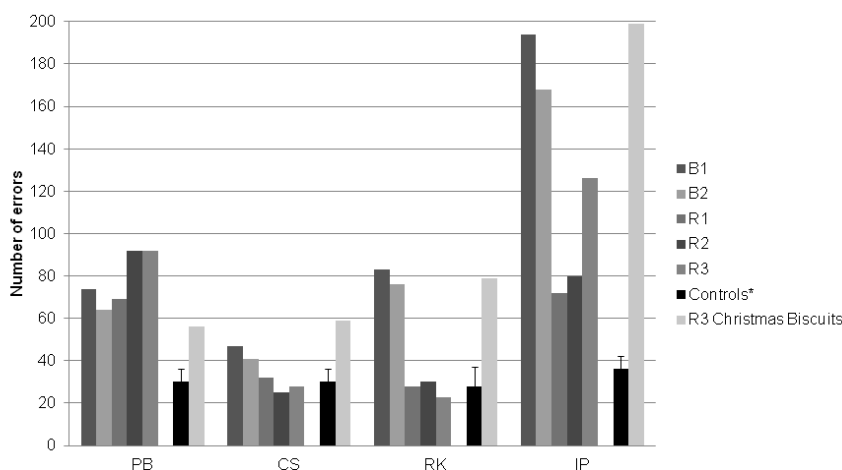
Une revue de littérature m'avait permis de constater que le GMT semble efficace chez les adultes dysexécutifs cérébro-lésés, lorsque cette méthode est associée à des tâches écologiques et le travail d'objectifs personnalisés. Chez l'enfant, dont la métacognition ne mature que très tard (à l'adolescence voire au début de l'âge adulte), ce type d'approche n'avait jamais été évalué.

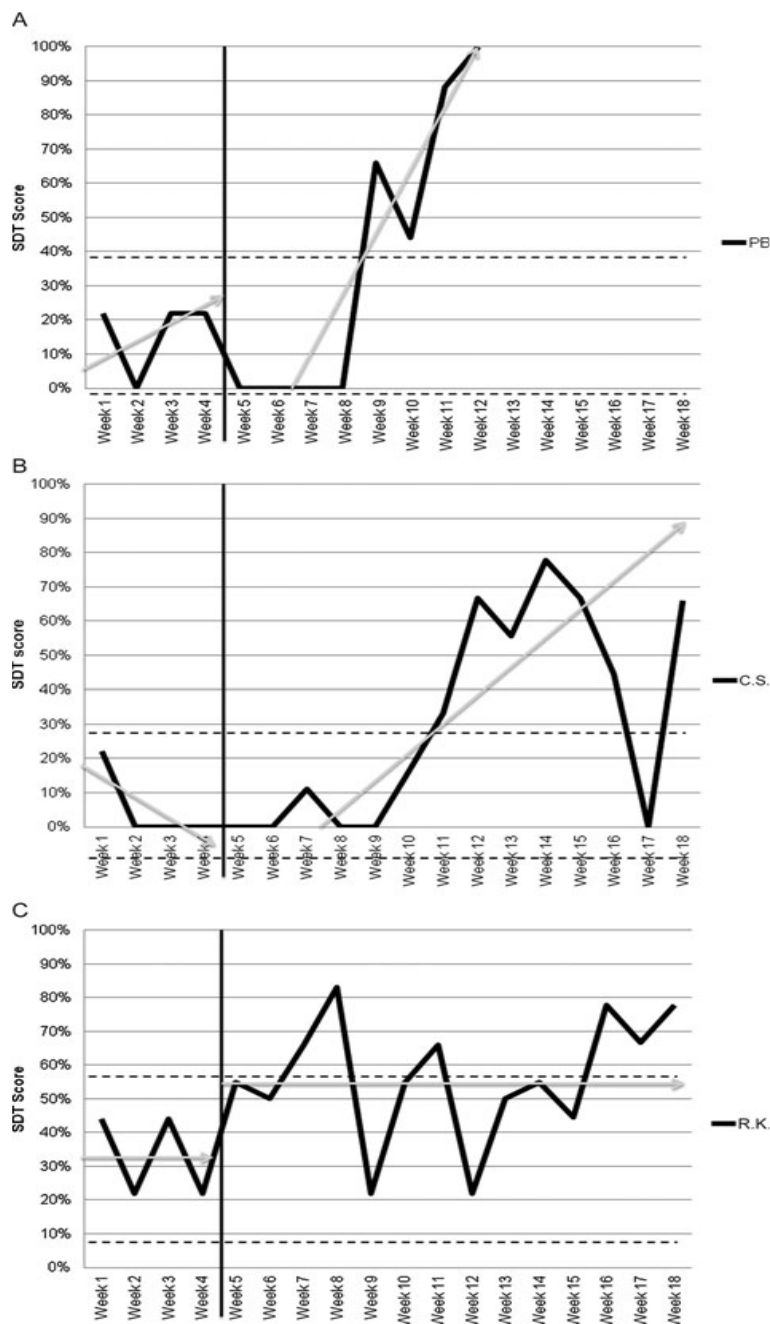
Goal Management Training for rehabilitation of executive functions: a systematic review of effectiveness in patients with acquired brain injury. Krasny-Pacini A, Chevignard M, Evans J. Disabil Rehabil. 2014;36(2):105-16. Epub 2013 Apr 18. Review.

La partie interventionnelle de ma thèse a consisté en l'adaptation du GMT à l'enfant et en explorant son efficacité sur la mémoire prospective et les FE, et en particulier les capacités d'adaptation à une tâche nouvelle. La méthodologie était un design en mesures répétées sur 5 enfants avec traumatisme crânien sévère ancien.

Context-sensitive goal management training for everyday executive dysfunction in children after severe traumatic brain injury. Krasny-Pacini A, Limond J, Evans J, Hiebel J, Bendjelida K, Chevignard M. J Head Trauma Rehabil. 2014 Sep-Oct;29(5):E49-64.

Cette étude confirmait la difficulté de rééduquer les FE, et alertait sur le risque de juger efficaces des interventions au cours desquelles les sujets s'améliorent par effet d'apprentissage des tests et effet d'enthousiasme, sans amélioration de leurs réelles capacités à utiliser efficacement leurs FE en situation de tâche nouvelle. En effet les enfants s'amélioraient sur la tâche écologique du gâteau au chocolat (cf. figure ci-dessous), mais qui était devenue familière probablement sur les 5 passation (les enfants étaient évalués à 2 reprises avant l'intervention – B1 et B2, immédiatement après -R1, à 3 m-R2 et à 6 mois-R3). En leur proposant une tâche appariée sur le nombre d'étapes, ingrédients, ustensiles et utilisant le même contexte (recette de cuisine de sablé alsaciens « Bredele » -R3 Christmas Biscuits), ils revenaient au même nombre d'erreurs qu'en pré-intervention, suggérant que l'intervention n'avait pas amélioré le cœur de ce que sont les fonctions exécutives : l'adaptation à la nouveauté, et que les effets bénéfiques étaient plutôt liés à un surapprentissage des tâches.





Dans cette étude j'avais utilisé une méthodologie de type Lignes de Base multiples (single case experimental design -SCED) , que j'ai utilisée de manière très imparfaite et incomplète : absence de randomisation introduction non-séquentielle du traitement (Trait vertical sur la figure ci-contre), utilisation d'aides visuelles quasi-statistiques ne prenant pas en compte les biais liés aux tendances à l'amélioration en baseline (traits pointillés horizontaux représentant la « Two-Standard deviation band »)... etc.

La mesure répétée était une tâche de mémoire prospective qui consistait à donner la fête du jour (SDT - Saint Day Task) par SMS à trois moments prédéterminés dans la semaine.

Cependant ma thèse m'a permis de découvrir l'énorme potentiel des SCED que j'ai développé comme un des axes principaux de recherche et enseignement (cf. section dédiée plus bas dans le chapitre Méthodologie) de manière plus rigoureuse.

Cette étude pilote, la veille de littérature sur les rééducations des fonctions exécutives m'ont permis de rédiger plusieurs articles et chapitres d'ouvrages, visant à synthétiser le niveau de preuve de différentes approches du syndrome dysexécutif en rééducation, et surtout à communiquer sur les biais méthodologiques à prendre en compte dans l'évaluation de programmes de rééducation, en particulier chez l'enfant et en particulier dans les fonctions exécutives.

Executive Function Interventions. Agata Krasny-Pacini, Jennifer Limond, Mathilde Chevignard. **Cognitive Rehabilitation in Pediatric Neurological Disorders.** 2018. Editors: G. Locascio and B. Slomine. Cambridge University Press.

Rehabilitation Of Executive Functions. Jacoba Spikman, Agata Krasny-Pacini, Jennifer Limond, Mathilde Chevignard. **International Handbook of Neuropsychological Rehabilitation,** Editors: Barbara A Wilson, Caroline van Heugten, Jill Winegardner, and Tamara Ownsworth. 2017. Routledge Taylor & Francis group.

Considérations pratiques sur les difficultés méthodologiques inhérentes aux protocoles de rééducation chez l'enfant. A. Krasny-Pacini, J. Limond, M. Chevignard. **A.N.A.E** n°146, juin 2017.

Rééducations métacognitives du syndrome dysexécutif. Agata Krasny-Pacini. **Les fonctions exécutives du traumatisé crânien adulte: du trouble cognitif aux troubles de comportement.** Saurapms medical. 2019 Ed. Claire Jourdan, Xavier De Boissezon, Philippe Azouvi, Vincent Brun.

Troubles des fonctions exécutives. Arnaud Roy, Jean-Luc Rolin, Nathalie Fournet, Agata Krasny-Pacini Mathilde Chevignard. **Traité de Neuropsychologie de l'Enfant, 2ème édition – version révisée et augmentée,** Editions De Boeck. Editeurs: Steve Majerus, Isabelle Jambaqué, Laurent Mottron, Martial Van der Linden, & Martine Poncelet. In press.

Méthodologie de la rééducation cognitive en neuropsychologie de l'enfant. Charlotte Seguin, Mathilde Chevignard, Line Pfaff & Agata Krasny-Pacini. **Traité de Neuropsychologie de l'Enfant, 2ème édition – version révisée et augmentée,** Editions De Boeck. 2020. Editeurs: Steve Majerus, Isabelle Jambaqué, Laurent Mottron, Martial Van der Linden, & Martine Poncelet.

Méthodologie de la rééducation. E. Peyroux et A. Krasny-Pacini. Rééducation cognitive chez l'enfant - Apport des neurosciences, méthodologie et pratique. 2018. Editions De Boeck. Editeur Charlotte Seguin.

Rééducation des fonctions exécutives chez l'enfant cérébro-lésé. A. Krasny-Pacini, J. Limond, M. Chevignard. **A.N.A.E.,** 2016; 141; 185-197

Interventions visant à améliorer le fonctionnement exécutif chez l'enfant cérébro-lésé, chapitre 18 (p.286-310), M. Chevignard, A. Krasny-Pacini, H. Lebrault. **in Les fonctions exécutives de l'enfant** sous la direction d'A. Roy, N. Fournet, D. Le Gall et J.L. Roulin. DeBoeck Ed., collection Neuropsychologie, septembre 2021

Dans les suites de ma thèse, j'ai pu poursuivre en post-doc à Bordeaux, en adaptant le GMT cette fois-ci à des adultes avec un trouble neurodéveloppemental et co-encadrant la thèse de psychologie cognitive de Séverine Estival, en utilisant les méthodologies GAS et SCED qui seront décrites dans le chapitre suivant.

Cognitive Training Targeting Planning Dysfunction in Adults With Prader-Willi Syndrome: Brief Report of a Study Protocol. Séverine Estival, Agata Krasny-Pacini, Virginie Laurier, Céline Maugard, Denise Thuilleaux, Virginie Postal. **Dev Neurorehabil** 2019 Nov;22(8):569-575.

Improvement of Planning Abilities in Adults with Prader-Willi Syndrome: A Randomized Controlled Trial. Séverine Estival, Virginie Laurier, Fabien Mourre, Virginie Postal. **Dev Neurorehabil.** 2021 Oct;24(7):478-493.

II) METHODOLOGIES DES RECHERCHES PASSEES, FUTURES ET EN COURS

1. GOAL ATTAINMENT SCALING (GAS)

Mes travaux se sont attachés à rendre le plus rigoureux possible des critères de jugement plus écologiques ou en tout cas plus représentatifs de vie quotidienne des patients que les classiques tests papier crayon souvent utilisés en cognition.

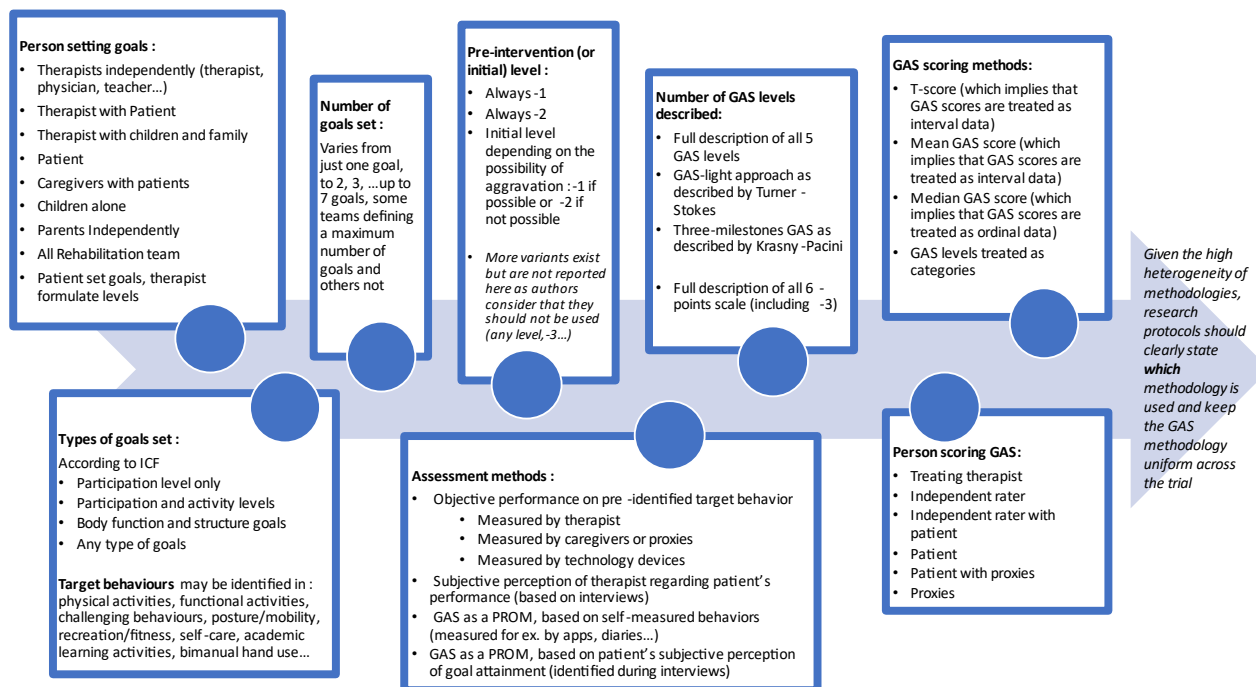
Le Goal Attainment Scaling est un groupe de méthodologies qui permet d'évaluer l'efficacité d'une intervention sur les objectifs personnels des patients. Des collaborations nombreuses (en particulier avec Rachel Bard-Pondarré, Fabienne ROUMENOF, Charles Pradeau, Jonathan Evans, Mathilde Chevignard, MacKay Solhlberg, Hélène Lebrault, Claire Villepinte, Marie-Eve Isner, Céline Bonnyaud...) sur cette thématique ont nourri ma réflexion et contribué aux articles et aux revues de littérature sur la GAS [4–6], à son application à différents champs de rééducation, non seulement cognitive [7,8] mais aussi motrice [9], à structurer et dispenser des enseignements (avec Rachel Bard-Pondarré, Fabienne ROUMENOF et Charles Pradeau) pour les équipes cliniques et de recherche qui souhaitent l'utiliser comme CJ. Plus largement, j'utilise ce critère de jugement pour les projets d'études futures (cf. chapitre IV). J'ai récemment coordonné et co-écrit un article de revue didactique avec 3 autres Universités (*Bard et al., soumis*) pour en clarifier l'usage en rééducation.

Objectif	Article/chapitre d'ouvrage
Faire connaître la GAS et son intérêt en MPR	<i>Goal attainment scaling in rehabilitation: a literature-based update. Krasny-Pacini A, Hiebel J, Pauly F, Godon S, Chevignard M. Ann Phys Rehabil Med. (nc) 2013 Apr;56(3):212-30. Epub 2013 Feb 28. Review.</i> <i>Utilisation du Goal Attainment Scaling en rééducation cognitive et applicabilité à la rééducation de l'aphasie. Krasny-Pacini, Agata; Daudey, Élise; François, Pierre-Olivier; Vidal, Clémence; Vautravers, Philippe Bagot, Erwan. Aphasie und verwandte Gebiete Aphasie et domaines associés N° 3/2015</i> <i>Méthodologie de la rééducation. E. Peyroux et A. Krasny-Pacini. Rééducation cognitive chez l'enfant - Apport des neurosciences, méthodologie et pratique. 2018. Editions De Boeck. Editeur Charlotte Seguin</i>
Explorer la faisabilité d'approches GAS moins chronophages	<i>Feasibility of a shorter Goal Attainment Scaling method for a pediatric spasticity clinic — the 3-milestones GAS. Krasny-Pacini A, Pauly F, Hiebel J, Godon S, M-E Isner-Horobeti, Chevignard M. Ann Phys Rehabil Med. 2017;60(4):249-257. (IF 3.43, A)</i>
Contribuer à faire reconnaître la GAS comme critère de jugement valable par l'établissement	<i>Proposed Criteria for Appraising Goal Attainment Scales Used as Outcome Measures in Rehabilitation Research. Krasny-Pacini A, Evans J, Solhlberg MM, Chevignard M.</i>

Objectif	Article/chapitre d'ouvrage
de critères de qualité GAS en recherche	<i>Arch Phys Med Rehabil.</i> 2016 Jan;97(1):157-70. Epub 2015 Sep 4. (IF 3.286, A)
Montrer la faisabilité de tester la fiabilité des GAS dans les protocoles de recherche	<i>Evaluating quality and comparability of Goal Attainment Scales used as outcome measures in rehabilitation research (à resoumettre).</i> Agata Krasny-Pacini, Severine Estival, Marie-Eve Isner-Horobeti, Virginie Laurier, Céline Mauga Charles Pardeau, Fabien Mourre, Virginie Postal-Le Dorse
Synthétiser les manières multiples d'utilisation de la GAS, dans le but d'insister sur une utilisation de GAS optimale selon l'objectif de la recherche ou de la pratique clinique	<i>Goal Attainment Scaling in rehabilitation: A second literature-based update.</i> Rachel Bard-Pondarré, Claire Villepinte, Fabienne ROUMENOF, Hélène Lebrault, Céline Bonnyaud, Charles Pradeau, Djamel Bensmail, Marie-Eve Isner-Horobeti, Agata Krasny-Pacini. Submitted
Promouvoir une pratique de MPR basée sur les objectifs personnalisés	<i>Goal Setting in Rehabilitation.</i> Jonathan J Evans & Agata Krasny-Pacini. <i>International Handbook of Neuropsychological Rehabilitation</i> , Editors: Barbara A Wilson, Caroline van Heugten, Jill Winegardner, and Tamara Ownsworth. 2017. Routledge Taylor & Francis group.
Utiliser la GAS comme critère de jugement dans les études cliniques, y compris les SCED	<i>Exploring the use of the Cognitive Orientation to daily Occupational Performance approach (CO-OP) with children with executive functions deficits after severe acquired brain injury: A single case experimental design study.</i> Hélène Lebrault, Céline Chavanne, Geneviève Abada, Bojan Latinovic, Sylvie Varillon, Anne-France Bertrand, Eva Oudjedi, Agata Krasny-Pacini, Mathilde Chevignard. <i>Ann Phys Rehabil Med</i> 2021 Sep;64(5):101535. doi: 10.1016/j.rehab.2021.101535. Epub 2021 Jul 17.

Les notions principales développées dans ces articles sont de montrer :

(1) **L'immense hétérogénéité d'utilisation de la GAS en recherche et en clinique** (cf. schéma ci-dessous)



(2) **De travailler à l'élaboration de checklist permettant une meilleure qualité des GAS, rendant leurs cotations plus aisées et plus fiables en clinique**

Checklist GAS clinique

- ☐ Mon objectif est **spécifique** et **formulé avec précision** (critère de spécificité).
- ☐ J'ai choisi un **objectif** et un **comportement mesurables** qui reflètent la réalisation de l'objectif (critère de mesurabilité).
- ☐ Tous les niveaux GAS sont **réalistes** (critère d'acceptabilité).
- ☐ L'objectif a un **sens** pour le patient et/ou sa famille ou représente une étape importante vers la récupération/l'autonomie/une meilleure qualité de vie (critère de pertinence).
- ☐ J'ai défini un **calendrier** pour atteindre l'objectif et le **niveau 0 est réalisable** dans le calendrier défini avec mon patient (critère temporel)
- ☐ La **difficulté pour passer d'un niveau au niveau suivant** est à peu près égale (critère d'équidistance).
- ☐ Mon échelle a **une seule dimension de changement** (critère d'unidimensionnalité).
- ☐ Je n'ai **pas défini les niveaux GAS pour être sûr de réussir** (niveaux trop faciles) mais chaque niveau GAS représente un changement cliniquement significatif.

- ☐ J'ai pris en compte et répertorié des **facteurs environnementaux** (fatigue, moment de la journée) et des variations contextuelles (incitations, conseils, etc.) qui peuvent modifier la performance du patient pendant l'évaluation et j'essaierai de les contrôler pour avoir des conditions similaires pour définir le niveau initial avant l'intervention et l'évaluation finale après l'intervention (critère de contexte de la mesure).
- ☐ Le **vocabulaire/la formulation** de l'objectif et de l'échelle sont suffisamment précis et explicites pour être facilement compris par un tiers indépendant qui ne connaît pas le patient.
- ☐ Les niveaux GAS **ne se chevauchent pas**.
- ☐ Il n'y a **pas d'écart** entre les niveaux (c'est-à-dire performance/comportement n'entrant dans aucun des niveaux).
- ☐ J'ai décrit avec précision au moins **X** niveaux GAS (**5 niveaux sont recommandés** en particulier pour la recherche et au minimum deux niveaux : niveau initial et niveau 0 avec la méthode GAS-light).
- ☐ J'ai vérifié que le **niveau initial** du patient **correspondait au niveau -1/-2** que j'ai décrit dans l'échelle (critère de niveau pré-intervention).

(3) De travailler à l'élaboration de checklist permettant l'évaluation, la comparabilité et la qualité des GAS utilisées comme critères de jugement dans les études cliniques (exemple de la grille utilisée dans l'étude ETAPP[7])

Critères SMARTED à comparer entre groupes : 1=douteux à 3=critère rempli (se réserver le droit de mettre 0 seulement pour les GAS où vraiment vous pensez qu'elles devraient être exclues de l'analyse, mais qu'on utilise et cote quand même)			
		Equipe	Evaluateur externe
S	Spécifique à l'intervention testée ?		
M	Mesurable ? c-à-d comportement observable et objectif, basée sur une performance observée (et non impressions/avis sans vérifier ce que le patient fait vraiment)		
A	Atteignable ? c-à-d <u>difficulté</u> de cet objectif pour ce patient NB ici coter la difficulté : 1=très facile à 3=très difficile		
R	"Relevant" c-à-d pertinent et important pour ce patient ? <u>et</u> les différents niveaux représentent un changement cliniquement significatif		
T	« Time-specific » ; délai de réalisation défini		
E	Equidistance des niveaux ? c-à-d la difficulté pour passer		

	d'un niveau au suivant est à peu près égale		
D	Unidimensionnelle? càd une seule dimension de changement/thème/fonction testée		
Autres critères			
	Niveau initial vérifié ? càd est ce que le comportement actuel du patient correspond bien au niveau -2 décrit NB 1 : douteux (on ne sait pas trop où en est le patient, on SUPPOSE qu'il en est là) à 3 on vient de constater que c'est exactement la description de là où il en est actuellement. <i>On pourra éventuellement le comparer entre groupes si pas que des scores 3</i>		
	Contexte de mesure maintenu fixe càd que la quantité d'aide/indices/sollicitations est clairement définie dans la GAS		
	Combien de niveaux GAS sont décrits		
	Quel domaine de CIF		

Au total, la GAS semble une méthodologie au cœur de la MPR mais une méthodologie massivement affectée par la manière dont elle est utilisée et l'expérience de ceux qui l'utilisent. Elle ne peut être considérée comme une « échelle » en tant que telle.

2. SINGLE-CASE EXPERIMENTAL DESIGNS (SCED)

Les difficultés des études de rééducation en groupes sont nombreuses. Face à ce constat, une grande partie de mon activité universitaire vise à faire connaître, développer, rendre plus rigoureux un type de méthodologie alternative pour la recherche interventionnelle que sont les cas uniques expérimentaux (ou SCED)[10].

A) BREF SURVOL DE CE QUE SONT LES SCED

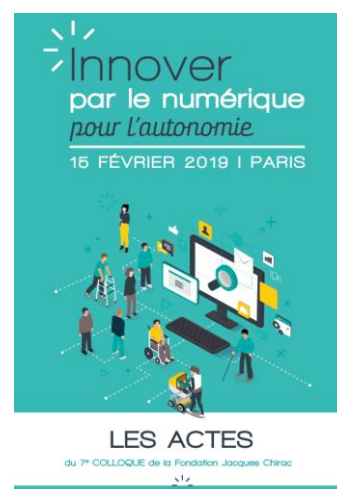
Le SCED (single-case experimental design) est une méthodologie qui vise à mesurer les effets d'une intervention à l'échelle d'un individu, en utilisant des mesures répétées[10,11], afin de comparer l'individu à lui-même au lieu de raisonner à l'échelle de groupe.

Extrait des actes du 7eme colloque Jacques Chirac, réunissant politiciens, médecins et chercheurs autour des questions du handicap

« De nos jours, lorsqu'il s'agit de montrer qu'une thérapeutique, une intervention, une prothèse est efficace, la méthodologie habituelle (les essais randomisés contrôlés) est de comparer un groupe A qui subit une nouvelle intervention *versus* un groupe contrôle B, qui ne bénéficie pas de soins ou bien de soins habituels. Nous allons recruter un grand nombre de patients et tirer au sort leur place dans tel ou tel groupe ; nous allons les mesurer une première fois avant de leur donner l'intervention, regarder après un certain temps d'intervention (de port de prothèse par exemple) ce qu'ils deviennent. Cette deuxième mesure permet de comparer si, en moyenne, le groupe A va mieux que le groupe B grâce à l'intervention innovante testée. C'est à partir de cette moyenne que vont être données des conclusions plus ou moins pertinentes, des préconisations concernant l'intervention la plus efficace.

Dans le champ du handicap, ce type de méthodologie se heurte à de nombreux problèmes. Le premier est méthodologique : il est très difficile d'obtenir des groupes de taille suffisante et suffisamment homogènes. Si l'on veut comparer le devenir du groupe A et du groupe B, il faut que ces deux groupes aient des facteurs d'évolution à peu près similaires or il est très difficile d'appareiller les groupes dans des pathologies comme l'autisme, la lésion cérébrale, la schizophrénie. Si des groupes homogènes sont formés, ils sont de taille modeste et détecter une différence cliniquement significative ou statistiquement significative n'est pas possible alors qu'elle existe.

Cette méthodologie est difficile à mettre en œuvre dans le domaine du handicap mais même si elle est applicable, je voudrais vous montrer qu'elle n'est pas forcément pertinente dans ce champ pour plusieurs raisons. La première, c'est que nos patients sont fluctuants en raison de facteurs tels que la douleur, la fatigue : le moment où vous effectuez vos mesures peut ne pas être représentatif de leur mode de fonctionnement tout au long de la journée. Il faudrait que nous ayons connaissance de ce qui a eu lieu durant toute la semaine, ainsi que l'a évoqué précédemment Joël Swendsen. Ensuite, dans une étude randomisée contrôlée, le second problème est que la moyenne



*Krasny-Pacini A ; et Paysant J.,
« Remettre la personne au
centre de l'évaluation », 7e
Colloque de la Fondation
Jacques CHIRAC, Paris, février
2019*

va totalement masquer les variabilités interindividuelles : au sein du groupe B par exemple, certains individus ont beaucoup progressé par rapport à d'autres mais la moyenne va masquer cet aspect. Enfin, même si cette étude a montré que quelque chose était efficace, vous vous rendez compte lorsque vous lisez les résultats de l'étude que, pour avoir des groupes homogènes, les critères d'inclusion étaient extrêmement stricts et la plupart de nos patients ne s'y retrouvent pas. Par exemple, en neurologie, il ne faut avoir aucun antécédent psychiatrique or Marie-Odile Krebs a bien mentionné ce matin qu'une personne sur 5 rencontrerait une maladie psychiatrique au cours de sa vie. Cela donne des groupes très différents de ce que l'on rencontre en clinique. La réalité clinique, c'est que nous étudions un patient avec toutes ses caractéristiques et que nous adaptons l'intervention à ce patient ; or, dans une étude randomisée contrôlée, il faut absolument que tous les patients aient exactement la même intervention pour être bien sûrs de ce que nous avons testé et de ce qui a généré cette moyenne : c'est absolument l'inverse de ce que nous faisons en clinique.

Méthodologie innovante : les SCED (*Single case experimental designs*)

L'idée des SCED est de prendre le patient comme unité d'évaluation plutôt que ces groupes. Pour évaluer un patient en pratique clinique, nous évaluons le patient avant et après une rééducation : s'il s'améliore, la rééducation a fonctionné. Le problème est que le patient peut s'améliorer pour bien d'autres raisons que la seule efficacité de la rééducation ou du traitement : un effet développemental, une récupération spontanée, un effet enthousiasme, de temps avec thérapeute etc. Il nous faut avoir une méthodologie permettant d'extraire l'effet spécifique de l'intervention mais qui reste individualisée à un seul patient. La méthodologie SCED n'est pas nouvelle, elle a plus de soixante ans mais bénéficie aujourd'hui d'une réactualisation : les SCED sont des essais cliniques individuels, plus communément appelés *Single case experimental design* (SCED). L'idée est de regarder pour tel ou tel patient l'effet spécifiquement lié à l'intervention testée ; le principe général est l'étude intensive avec des mesures répétées, l'introduction d'une intervention de façon randomisée pour ne pas que les mesures/résultats soient biaisés, c'est à dire essayer de supprimer ces biais par un tirage au sort du moment de l'introduction de l'intervention et avec une méthodologie définie dès le départ. »

Plusieurs types de SCED existent. Leur choix repose essentiellement sur le type d'effet (on/off versus apprentissage/ plasticité qui ne peut pas faire l'objet d'un « retrait » avec retour à la baseline), le nombre de patients recrutables (cf. schéma ci-dessous, issu de ma publication dans les Annals[10], repris ensuite dans le guide méthodologique de l'HAS sur les dispositifs médicaux[12]).

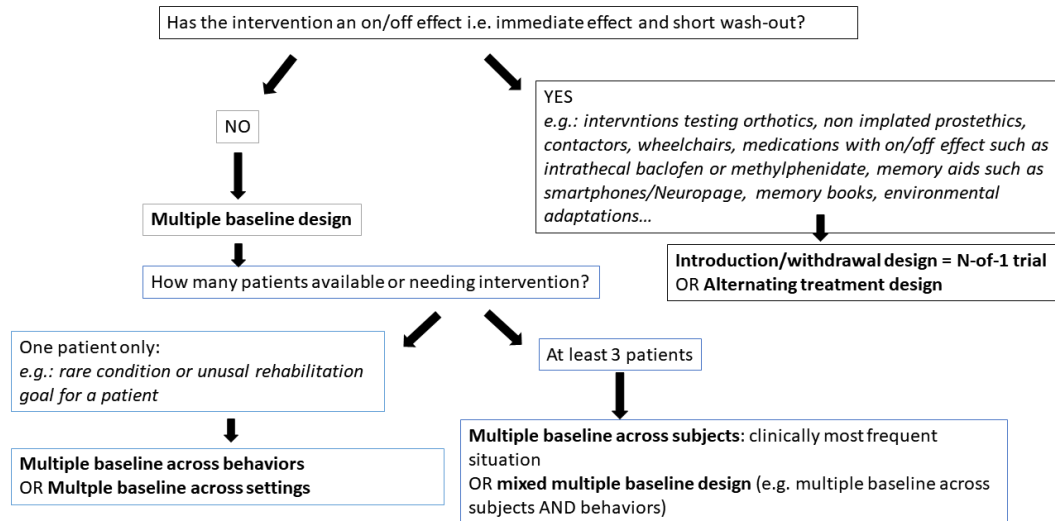


Figure 1: Which SCED design to choose

Single-case experimental designs (SCEDs) to assess intervention effectiveness in rehabilitation: A practical guide.
 Krasny-Pacini A, Evans J. *Ann Phys Rehabil Med.* (IF 3.657, A) 2017 Dec 15. pii: S1877-0657(17)30454-2. doi:
 10.1016/j.rehab.2017.12.002.

METHODOLOGIE SCED N OF 1 TRIAL

En médecine, le concept de N of 1 trial est apparu dans les années 80, en réponses aux limitations d'applicabilité des résultats des RCT[13]. Les N-of-1 trials sont des études en cross-over multiples, en double aveugle, chez un même patient évaluant l'effet d'une intervention sur plusieurs phases, avec des transitions de phases randomisées, qui permettent de comparer une intervention cible (par exemple, un médicament, une prothèse, une orthèse) à un placebo (ou une autre intervention standard), pour des conditions chroniques stables, et pour des interventions ayant des effets on/off.

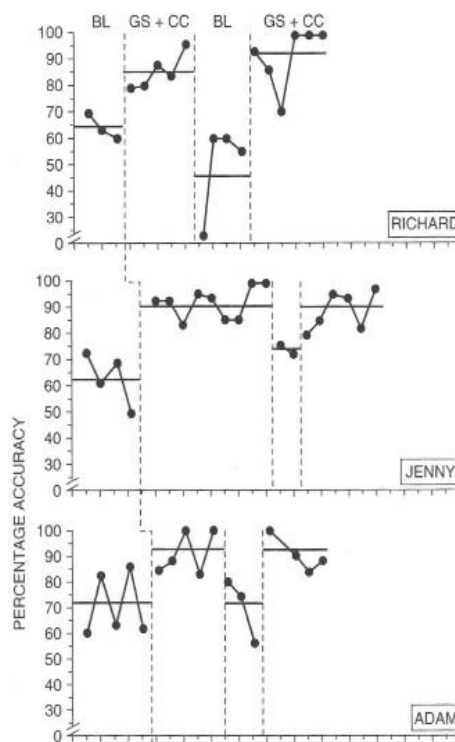
Chaque N of 1 trial concerne un seul patient (et par conséquent est parfois aussi appelé « Individual RCT »), ce patient agissant comme son propre contrôle : les phases avec et sans intervention sont comparées entre elles au sein d'un même patient. Les N-of-1 peuvent ainsi identifier si un patient est répondeur ou non répondeur. Ils fournissent des informations factuelles sur la réponse individuelle au traitement et peuvent être utilisés pour optimiser les prescriptions pour un l'individu (par exemple identifier les patients qui pourraient tirer un bénéfice supplémentaire de dispositifs médicaux plus coûteux). Chaque patient réalisant à lui seul des alternances multiples, un résultat statistique est généré par patient permettant de respecter la variabilité inter-individuelle dans l'interprétation des résultats. La répétition des mesures et des phases permet en outre d'intégrer la variabilité intra-individuelle dans la moyenne des scores de chaque patient.

Exemple de design en Multiple N of 1 trial :

Ici 3 patients réalisent chacun un N of 1 trial à 4 phases (design ABAB) avec des longueurs de phases de longueur randomisée.

La méthodologie consiste à réaliser des mesures répétées en alternant des phases sans et avec intervention. Chaque patient est son propre contrôle.

Pour diminuer les chances que cet effet soit lié à une coïncidence, la littérature recommande de démontrer trois fois l'effet de l'intervention (3 transitions).



Plusieurs études N sur 1 testant la même intervention (ou dispositif) dans une population de patients similaires peuvent être agrégées (d'où le nom « Multiple » ou « Aggregated » N of 1 trial) avec des niveaux de puissance élevés (par exemple via la méthode bayésienne), afin de fournir une estimation de l'effet sur la population, mais en nécessitant une fraction seulement de la taille de l'échantillon qui aurait été nécessaire dans le cadre d'une étude randomisée contrôlée à bras parallèles

équivalent. Cela présente des avantages évidents pour l'accumulation de preuves dans des populations où les participants sont difficiles à recruter (maladie rare), à conserver (par exemple en soins palliatifs), ou hétérogènes, ou pour des interventions difficiles à mettre à la disposition d'un grand échantillon de patients (par exemple, dispositifs innovants coûteux).

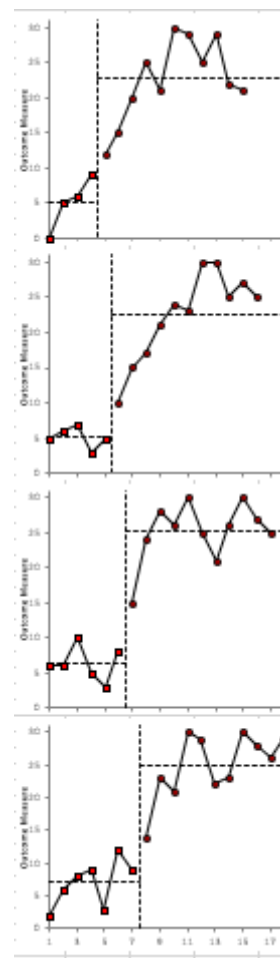
Les principales différences par rapport aux RCT sont que chaque participant reçoit à la fois l'intervention et le traitement de comparaison dans un ordre aléatoire, et ceci de façon répétée, permettant donc des réplifications de l'effet de l'intervention au sein même d'un patient tout en agrégeant les résultats sur un groupe si nécessaire. Ce type de méthodologie est maintenant reconnu comme un niveau de preuve 1 par le Oxford Centre for evidence-based medicine (www.cebm.net).

METHODOLOGIE SCED EN LIGNES DE BASE MULTIPLES

La méthodologie SCED en lignes de base multiples consiste à réaliser des mesures répétées sans, puis avec intervention. Chaque patient est son propre contrôle. Les mesures en baseline (sans intervention) permettent de déterminer la stabilité du patient ou calculer sa tendance à l'amélioration (qu'il s'agisse d'une amélioration réelle, d'un effet retest, d'un effet Hawthorne, d'un effet de temps avec thérapeute...). Cette tendance en baseline peut ensuite être prise en compte dans l'analyse des progrès du patient en phase d'intervention, afin d'extraire l'effet lié spécifiquement au contenu de l'intervention.

Pour diminuer les chances que cet effet soit lié à une coïncidence, la littérature recommande de démontrer trois fois l'effet de l'intervention : dans les SCED de type lignes de base multiples, ces trois transitions peuvent se faire à l'aide de trois sujets (design en lignes de base multiples à travers les sujets). L'introduction de l'intervention se faisant de façon randomisée et séquentielle aux différents patients, les patients avec les baseline les plus longues agissent ainsi comme des contrôles par rapport à ceux qui démarrent l'intervention plus tôt. Il ne s'agit pas d'un groupe contrôle mais uniquement d'une manière supplémentaire de dépister des progrès non liés au contenu de l'intervention mais à des facteurs aspécifiques comme la durée de prise en charge, ou l'effet thérapeute.

L'introduction séquentielle peut également se faire sur les comportements/objectifs ou des contextes, (appelés alors respectivement design en lignes de base multiples à travers les comportements et à travers les contextes).



B) RESUME DES TRAVAUX SUR LES SCED

Objectif	Publication
Faire connaître les SCED, enseigner la manière de les utiliser	<i>Single-case experimental designs (SCED) to assess intervention effectiveness in rehabilitation: A practical guide.</i> Krasny-Pacini A, Evans J. <i>Ann Phys Rehabil Med.</i> 2017 15. 2017.12.002. (IF 3.43, A) <i>Méthodologie de la rééducation cognitive en neuropsychologie de l'enfant.</i> Charlotte Seguin, Mathilde Chevignard, Line Pfaff & Agata Krasny-Pacini. <i>Traité de Neuropsychologie de l'Enfant</i>, 2ème édition – version révisée et augmentée, Editions De Boeck. Editeurs: Steve Majerus, Isabelle Jambaqué, Laurent Mottron, Martial Van der Linden, & Martine Poncelet <i>Méthodologie de la reeducation.</i> E. Peyroux et A. Krasny-Pacini. <i>Rééducation cognitive chez l'enfant - Apport des neurosciences, méthodologie et pratique.</i> 2018. Editions De Boeck. Editeur Charlotte Seguin. <i>Actes du 7e Colloque de la Fondation Jacques CHIRAC, Paris, février 2019 : "Remettre la personne au centre de l'évaluation"</i>
Montrer l'applicabilité des SCED aux différents champs de MPR	<i>Charlie Chaplin and gesture training in severe aphasia: a randomized double-blind single-case experimental design.</i> Vibrac C, Avias A, François PO, Isner-Horobeti ME, Krasny-Pacini A. <i>Ann Phys Rehabil Med.</i> 2020 Feb 4. pii: S1877-0657(20)30031-2. doi: 10.1016/j.rehab.2019.12.010. [Epub ahead of print] <i>Exploring the use of the Cognitive Orientation to daily Occupational Performance approach (CO-OP) with children with executive functions deficits after severe acquired brain injury: A single case experimental design study.</i> Hélène Lebrault, Céline Chavanne, Geneviève Abada, Bojan Latinovic, Sylvie Varillon, Anne-France Bertrand, Eva Oudjedi, Agata Krasny-Pacini, Mathilde Chevignard. <i>Ann Phys Rehabil Med</i> 2021 Sep;64(5):101535. doi: 10.1016/j.rehab.2021.101535. Epub 2021 Jul 17. <i>Context-sensitive goal management training for everyday executive dysfunction in children after severe traumatic brain injury.</i> Krasny-Pacini A, Limond J, Evans J, Hiebel J, Bendjelida K, Chevignard M. <i>J Head Trauma Rehabil.</i> 2014 Sep-Oct;29(5):E49-64.
Faire reconnaître les SCED comme méthodologie valide et rigoureuse, notamment via des randomisations optimisées dans les PHRC et PHRIIP	<i>PHRCI-18-014: Guidance interactive par vidéo feed-back de dyades parents-enfants avec Trouble du Spectre Autistique,, coordonnée par Lisa Ouss, Paris V. Promoteur : APHP</i> <i>Essai clinique Unity : N of 1 trial multiples, prospectif, en double aveugle (multiple N of 1 trial) multicentrique, évaluant le confort de l'emboîture chez l'amputé tibial équipé d'un système à dépressurisation active, et Remi Koltz (Bordeaux). Promoteur : Ossur.</i> <i>PHRIIP-19-0074 « Rééducation Expérimentale Des Répercussions Des Troubles Des Fonctions Exécutives Chez L'enfant Cérébro-Lésé</i>

	<i>Avec L'approche Co-Op (Cognitive Orientation To Daily Occupational Performance), thèse de science de Helene Lebrault, dirigé par Mathilde Chevignard. Promoteur : Hôpitaux Nationaux de St Maurice</i>
Caractériser les SCED du point de vue éthique et réglementaire	<i>Single-case experimental design studies: Regulatory and ethical framework in research and clinical practice. Agata Krasny-Pacini, Elena Chabran, François Clauss, Marie-Aline Sarda, Charles Pradeau, Marie-Eve Isner, Eric Sauleau. Revision Submitted to Annals PRM.</i>

Les sections suivantes développent ces objectifs à partir d'études publiées ou en cours.

C) FAIRE CONNAITRE LES SCED, ENSEIGNER LA MANIERE DE LES UTILISER

J'ai ainsi écrit plusieurs guides [10], et chapitres[14,15], tout en développant une formation à ses règles méthodologiques et possibilités d'analyses statistiques. C'est ainsi qu'une partie de mon activité est devenue du soutien et conseil méthodologiques sur les SCED que j'ai d'abord pratiqués dans mon activité de micro-entreprise puis comme MCU-PH pour le compte de l'Université de Strasbourg, sous forme de conseils méthodologiques.

Exemple de formations données dans la cadre de la micro-entreprise :

-Centre de Recherche en Neurosciences de Lyon (U1028), décembre 2018

-Institution nationale des Invalides, Centre d'Etudes et de Recherche sur l'Appareillage des Handicapés, Paris, mai et décembre 2018

-APHP, Hôpital de Garches, avril 2019

-Equipe de recherche INSERM UVSQ EA4047 HANDIRESP, décembre 2019

-CHU de Toulouse, mai 2020

-Institut Catholique de Lille, mai 2022

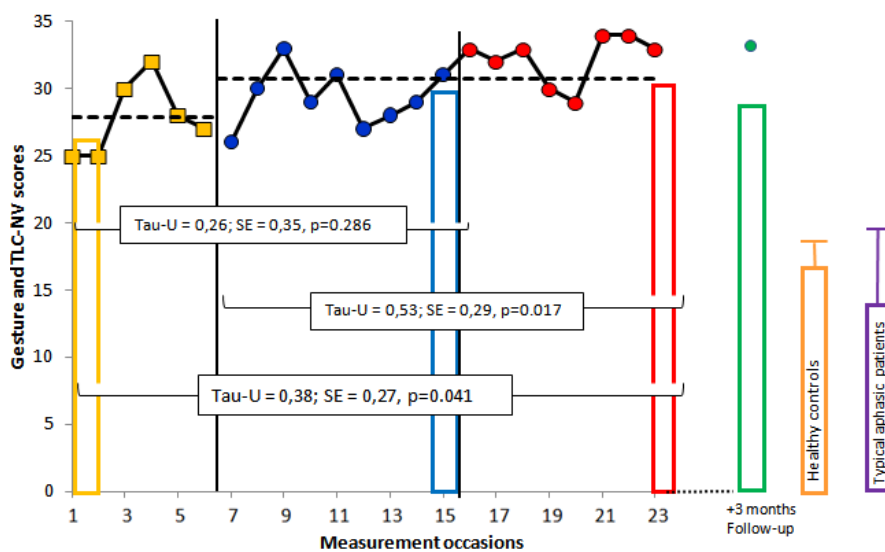
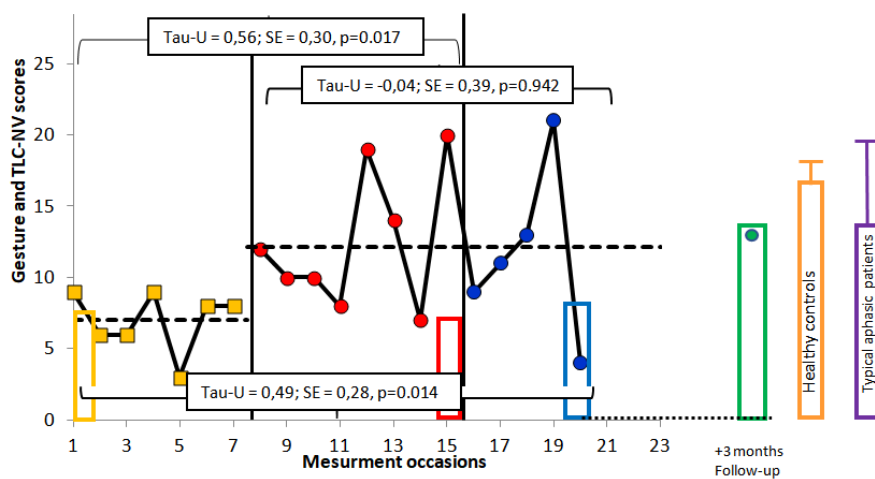
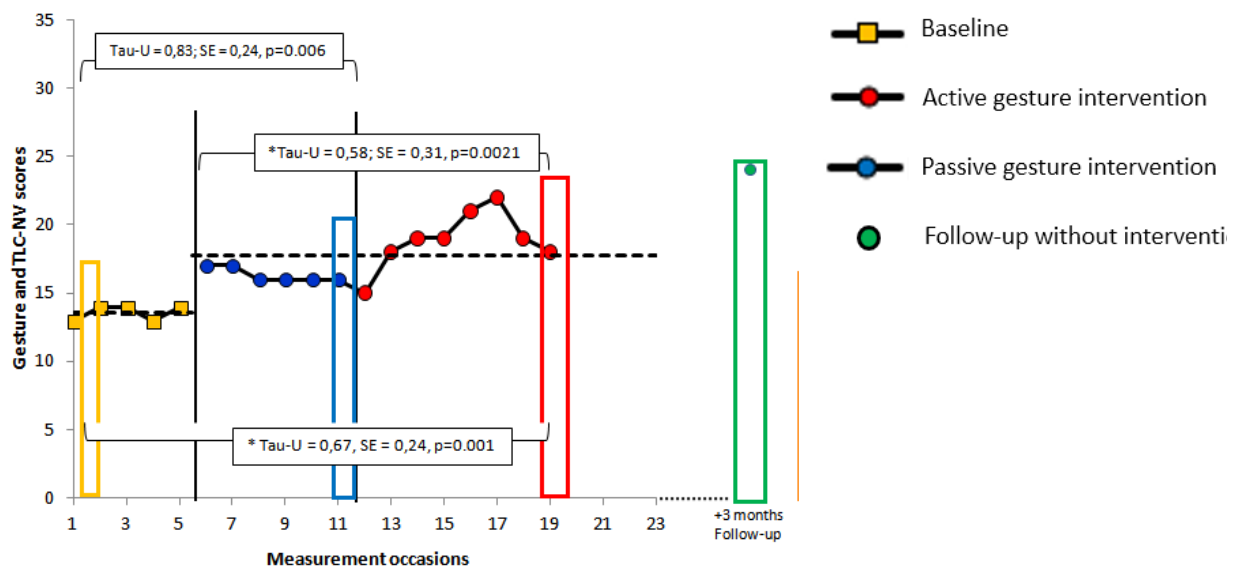
-Ch de Henday, septembre 2021

D) MONTRER L'APPLICABILITE DES SCED AUX DIFFERENTS CHAMPS DE MPR

REEDUCATION DE LA COMMUNICATION DANS L'APHASIE TRES SEVERE [16]

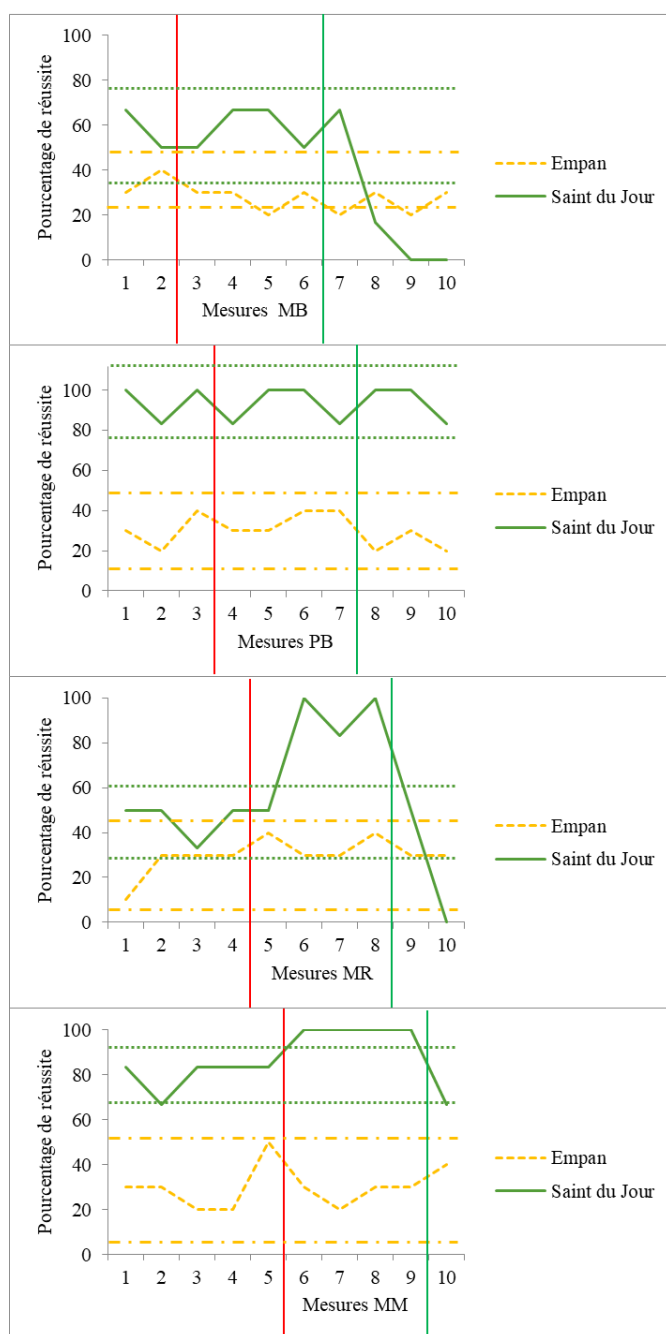
Cette étude, réalisée par Clémence Vibrac C et Amélie Avais, et co-dirigée par Pierre-Olivier François, s'attachait à améliorer la communication non verbale chez des patients sévèrement aphasiques n'ayant aucune communication fonctionnelle et présentant des difficultés cognitives associées telles que des persévérations et déficits des fonctions exécutives rendant le langage non verbal peu compréhensible. Après une phase de baseline (représentée par les carrés jaunes, cf. page suivante), les patients bénéficiaient de deux interventions dont l'ordre était tiré au sort. L'intervention dite passive (ronds bleus) consistait à visualiser de façon intensive des films riches en langage non verbal de type film muet. L'intervention active (ronds rouges), consistait en un apprentissage intensif de gestes basés sur la VAT (Visual Action Therapy). Le critère de jugement était le nombre et la compréhensibilité de mots gestués, dont l'évaluation été réalisée en aveugle, à partir d'enregistrements vidéo, visualisés *a posteriori* dans un ordre aléatoire. Une mesure de généralisation par le Test Lillois de Communication (représentée par les rectangles) semblait suggérer un bénéfice de l'intervention sur la communication non verbale au-delà de la liste de mots ayant servi de mesures répétées.

Charlie Chaplin and gesture training in severe aphasia: a randomized double-blind single-case experimental design. Vibrac C, Avias A, François PO, Isner-Horobeti ME, Krasny-Pacini A. Ann Phys Rehabil Med. 2020 Feb 4. pii: S1877-0657(20).



REEDUCATION DE LA PLANIFICATION CHEZ L'ADULTE AVEC SD DE PRADER WILLI [7] (ET CO-ENCADREMENT DE THESE DE SCIENCE DE SEVERINE ESTIVAL, *MANUSCRIT IN PREP*)

Dans cette étude, des adultes avec un syndrome de Prader-Willi réalisaient de façon répétée une mesure aspécifique, à savoir un empan, représentée en jaune, et une tâche censée refléter le fonctionnement exécutif, reprise de la tâche de mémoire prospective de la fête du jour (Sait Day Task que j'avais utilisée dans ma thèse – cf chapitre I). L'intervention correspond au temps entre la ligne verticale rouge et la ligne verticale verte. La phase après la ligne verte correspond à la phase de maintien. Les résultats semblent suggérer une amélioration du fonctionnement exécutif pour les deux derniers patients mais qui ne se maintient pas à la fin de l'intervention.



Dans cette étude dirigée par Mathilde Chevignard pour le master de Hélène Lebrault, l'approche COOP était appliquée à deux parmi trois objectifs personnalisés. Les critères de jugement étaient la GAS et le questionnaire écologique du fonctionnement exécutif BRIEF

FU = Follow-up

Exploring the use of the Cognitive Orientation to daily Occupational Performance approach (CO-OP) with children with executive functions deficits after severe acquired brain injury: A single case experimental design study. H  l  ne Lebrault, C  line Chavanne, Genevi  ve Abada, Bojan Latinovic, Sylvie Varillon, Anne-France Bertrand, Eva Oudjedi, Agata Krasny-Pacini, Mathilde Chevignard. Ann Phys Rehabil Med2021 Sep;64(5):101535. doi: 10.1016/j.rehab.2021.101535. Epub 2021 Jul 17.

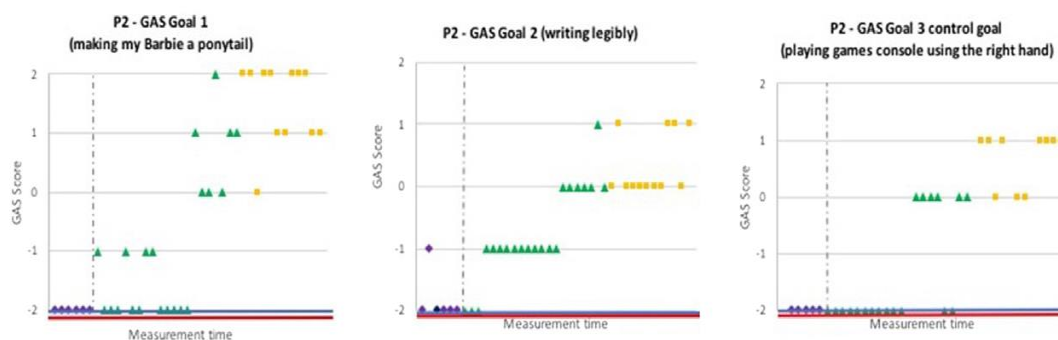


Fig. 1. Evolution of Goal Attainment Scale (GAS) scores across the different phases. ♦: baseline; ▲: intervention; ■: follow-up (1-month post-intervention). Meaning of scores: -2, initial level; -1, progress but goal not achieved; 0, goal achieved as expected; +1, goal achieved better than expected; +2, most favourable outcome. Repeated judgment criteria: GAS scores, analysis by Dual Criteria Method. The blue line represents the trend line of baseline, the red line represents the level line (=average) of the baseline. These 2 lines, projected in the intervention phase, allow for visualising the dual criterion: here, the more points above these 2 lines in the intervention phase, the more pronounced the effect of the intervention.

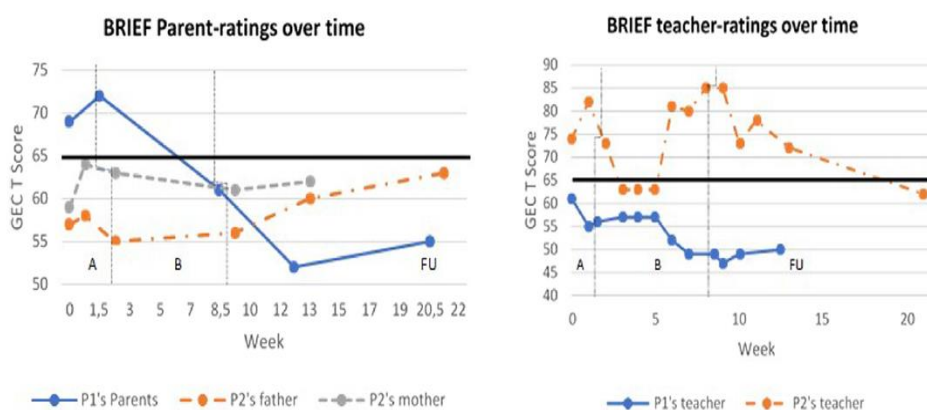


Fig. 4. Behavior Rating Inventory of Executive Function (BRIEF): evolution of parent and teacher ratings of the Global Executive Composite (GEC) T-score score: A: baseline; B: intervention; FU: follow-up (1 and 3 months post-intervention); the horizontal line represents the clinical cutoff score of 65.

E) FAIRE RECONNAITRE LES SCED COMME METHODOLOGIE VALIDE ET RIGOUREUSE, NOTAMMENT VIA DES RANDOMISATIONS OPTIMISEES

PHRCI-18-014: GUIDANCE INTERACTIVE PAR VIDEO FEED-BACK DE DYADES PARENTS-ENFANTS AVEC TROUBLE DU SPECTRE AUTISTIQUE

Il s'agit d'un PHRC inter-régional coordonné par Lisa Ouss (Promoteur : APHP), où je suis méthodologiste, utilisant un SCED, en lignes de base multiples à travers les sujets, multicentrique, randomisé, en double aveugle, à répétitions multiples.

Randomisation : 2 options de randomisation avaient été proposées, dont la première a été retenue. Les 2 sont cependant présentées ici, comme illustration de calcul de puissance par nombre de permutations.

OPTION 1	OPTION 2
La randomisation se fera à l'aide du Package ExPRT [17], avec une randomisation en cluster de N= 4 participants avec procédure de randomisation de type restricted Marscuilo-Busk (randomisation de longueur de ligne de base). Les paramètres de randomisation seront :	La randomisation se fera à l'aide du Package ExPRT, avec une randomisation en cluster de N= 6 participants avec procédure de randomisation de type Wampold-Worsham (randomisation de cas à différents points de départs prédéfinis) pour lignes de bases multiples. Les paramètres de randomisation seront :
Nombre minimum de mesures en baseline : 3	Nombre minimum de mesures en baseline : 3
Nombre maximum de mesures en baseline : 8	Nombre maximum de mesures en baseline : 8
Nombre de points de départ d'intervention possibles k = 6	Nombre de points de départ d'interventions possibles k = 6 (1 par patient)
Avec nombre de permutations possibles = $k!/(k-N)! = 360$	Avec nombre de permutations possibles = $N! = 720$
<i>AVANTAGE : Inclusion plus facile, car chaque train ne comporte que 4 patients, réduisant l'attente d'entrée dans le protocole, (important du point de vue éthique pour ne pas retarder la PEC)</i>	<i>AVANTAGE : Meilleure puissance : $1/3720 =$ seuil p maximum de</i>
<i>Désavantage : Moindre puissance : $1/360 =$ seuil p maximum de</i>	<i>Désavantage : Nécessite d'attendre l'inclusion de 6 patients pour démarrer</i>

Procédure : Dès que 4 (ou 6 si option 2) patients sont inclus, une randomisation via le Package ExPRT détermine au bout de combien de mesures chaque patient débutera l'intervention. Tous les patients du cluster commenceront les mesures de baseline en même temps (inclusion concurrente) et seront vus et mesurés à la même fréquence. L'intervention sera introduite de façon séquentielle (jamais 2 patients en même temps) dans l'ordre planifié par la randomisation. Chaque patient aura 3 à 6 mesures en baseline (selon randomisation), 6 mesures pendant la phase d'intervention, et 5 mesures en phase de consolidation. Par conséquent, tous les sujets du cluster de 4/6 patients débiteront les mesures en même temps, mais la fin des mesures sera variable, les patients ayant été randomisés vers les baseline les plus longues, termineront les mesures le plus tard.

La procédure sera répétée

Option 1 : 6 fois ($6 \times 4 = 24$ patients)

Option 2 : 4 fois ($4 \times 6 = 24$ patients)

Permettant 3/6 répétitions d'effet.

Le design ici va suivre la règle 5-3-20[18] : les patients seront inclus par blocs 4 patients concurrents, dans 4 centres différents, avec un nombre total de cas de 24 patients.

EVALUATION DES EFFETS D'UNE REEDUCATION ET READAPTATION DES DEFICITS DES CHAMPS VISUELS APRES CERE BRO-LESION ACQUISE PAR METHODOLOGIE DE CAS UNIQUES RANDOMISES (SCED). (MEMOIRE DE HELENE QUINIOU, CO SUPERVISEE PAR AGNES WEILL-CHOUNLAMOUTRY, MANUSCRIT IN PREP)

L'objectif principal était ici d'évaluer l'efficacité de trois approches rééducatives des amputations de champ visuel :

- Stimulation du champ aveugle
- Rééducation par prise de conscience de blindsight
- Compensation du champ aveugle par mouvements saccadiques larges

Il s'agissait d'une étude expérimentale en cas uniques multiples (SCED), en lignes de base multiples à travers les sujets, randomisée, chez des sujets présentant un déficit du champ visuel faisant suite à une cérébro-lésion rétro-chiasmatique.

NB : paramètres de randomisation. :

La randomisation s'est faite à l'aide du Package ExPRT, avec une randomisation en cluster de N= 4 participants avec procédure de randomisation de type restricted Marscuilo-Busk (randomisation de longueur de ligne de base). La randomisation a été faite dès que les 4 patients ont été inclus.

La randomisation via le Package ExPRT a déterminé au bout de combien de mesures chaque patient débutait l'intervention. Tous les patients du cluster ont commencé les mesures de baseline en même temps (inclusion concurrente), ont été vus et mesurés à la même fréquence. Cependant, la fin des mesures était variable, les patients ayant été randomisés vers les baselines ou phases de rééducation les plus longues, ont terminé les mesures le plus tard.

L'intervention a été introduite de façon séquentielle (jamais 2 patients en même temps) dans l'ordre planifié par la randomisation.

Les paramètres de randomisation de ligne de base (phase A de baseline) ont été :

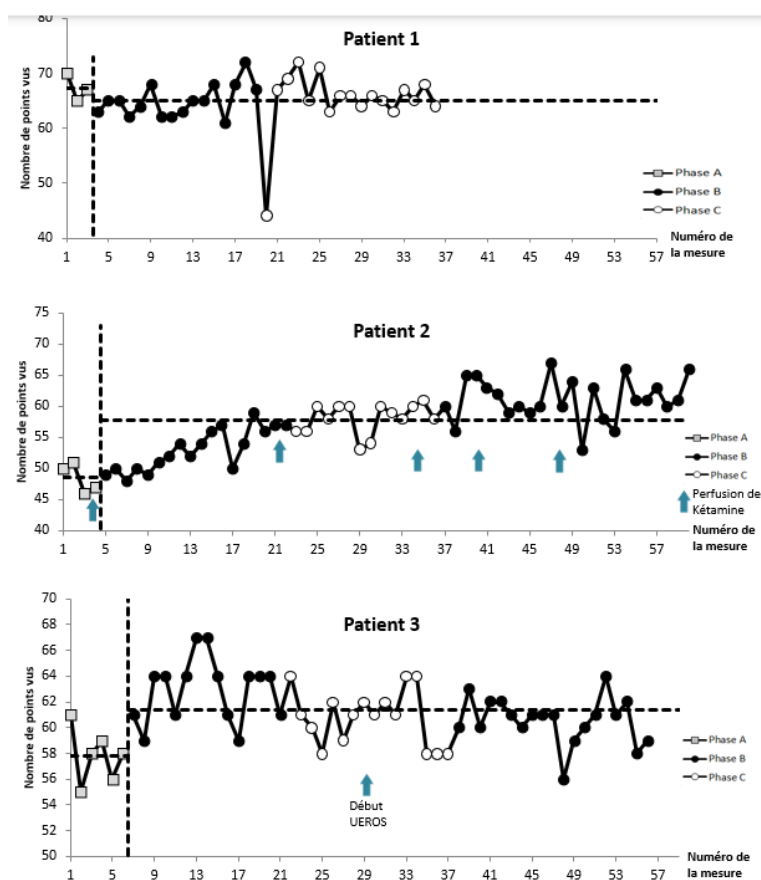
- Nombre minimum de mesures en baseline : 3
- Nombre maximum de mesures en baseline : 8
- Nombre de points de départ d'intervention possibles $k = 6$
- Avec nombre de permutations possibles $= k ! / (k - N) ! = 360$
- Avec 2 mesures par semaine, la ligne de base a donc duré de 1.5 à 4 semaines.

La première phase d'intervention (phase B de stimulation), devait durer un minimum de 6 semaines (durée en dessous de laquelle une efficacité est peu probable). Les paramètres de randomisation de la phase H'Spire ont donc été :

- Nombre minimum de mesures en phase H'Spire : 12
- Nombre maximum de mesures en phase H'Spire : 17
- Nombre de points de départ d'interventions suivantes possibles $k = 6$
- Avec nombre de permutations possibles $= k ! / (k - N) ! = 360$

Avec 2 mesures par semaine, la première phase d'intervention par H'Spire a duré donc 6 à 8.5 semaines.

La phase de compensation dite phase C (prise de conscience du blindsight et saccades visuelles) a duré 3 à 6 semaines (durée qui a été adaptée à la progression du patient, sa fatigabilité et la vitesse de prise de conscience du blindsight). Cette phase a duré minimum 3 semaines soit 6 mesures par patient. Sa longueur n'était pas randomisée.



- Pendant la phase A dite de baseline, il n'y avait aucune rééducation visuelle. Les patients continuaient leur rééducation habituelle (orthophonie, kinésithérapie, etc...) et leur suivi à EMOI-TC. Cependant, chaque patient effectuait deux fois par semaine, à domicile, sur son ordinateur, une évaluation statique du champ visuel via le logiciel H'Spire. Cette phase durait entre 1.5 et 4 semaines.

- La phase B dite de stimulation ou de rééducation consistait à stimuler le champ visuel aveugle par une spirale en noir et blanc en mouvement, sur ordinateur. La spirale en mouvement était placée en lisière de la perception visuelle consciente du sujet. Le temps d'entraînement était programmé pour 30 minutes durant lesquelles le sujet devait fixer le point de l'écran lors de la stimulation par spirale du champ aveugle. Il réalisait les séances de stimulation 6 jours par semaine.

- La phase C dite de compensation comportait deux approches :

- Les saccades visuelles : le patient fixait un point de couleur verte et quand apparaissait le point rouge, il devait dévier son regard pour fixer ce point rouge puis revenir à la ligne de base des points verts. Les supports d'exercices étaient des supports PowerPoint avec animations (apparitions et disparitions de points).

- Le phénomène de Blindsight : ce type de compensation se basait sur le principe de persistance de perceptions visuelles non conscientes. Deux types d'exercices étaient proposés. Lors du premier exercice, le patient fixait le point central de l'écran et deux spirales lui étaient présentées, l'une dans son champ visuel sain et l'autre dans celui aveugle. Il devait dire si les deux spirales étaient de la même couleur ou non le plus rapidement possible. Le deuxième exercice consistait à présenter une spirale au patient dans son champ visuel aveugle et le patient devait « deviner » la couleur de la spirale (choix forcés), toujours le plus rapidement possible. Il était ensuite invité à vérifier la couleur de la spirale en quittant le point de fixation central. Le support était un PowerPoint avec animations (spirales de couleurs différentes en mouvement).

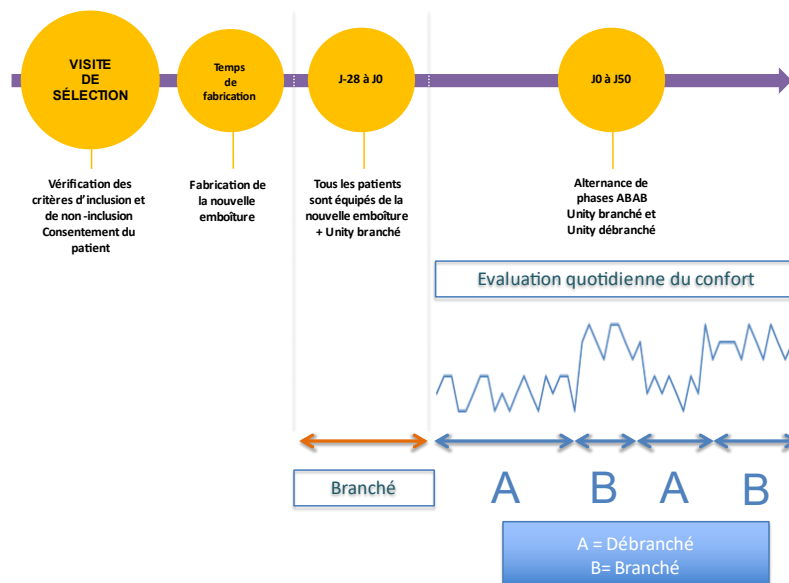
Concernant cette phase de compensation, le temps d'entraînement était de 20 à 30 minutes par jour, réparties entre la réalisation des saccades visuelles et les exercices relatifs au blindsight (environ 10 à 15 minutes pour chaque approche). Les patients réalisaient les exercices tous les jours sauf le dimanche.

- Une phase B2 était proposée dans le cas où le patient avait progressé en phase de stimulation (phase B1) et s'il était demandeur de poursuivre la stimulation. Dans ce cas, une nouvelle phase de stimulation B2 était réalisée après la phase C de compensation, selon les mêmes modalités qu'en B1. Les phases de stimulation ont été alors nommées B1 pour la première phase de stimulation et B2 pour la nouvelle phase de stimulation faisant suite à la phase de compensation.

ESSAI UNITY

Il s'agit d'un essai de validation d'un dispositif médical (système de dépressurisation pour amputés trans-tibiaux), où je suis méthodologiste, réalisé par un industriel (Ossur), sous la direction de Remy Klotz, Renaud Urbinelli et Guilhem Emile, dont la méthodologie a été validée lors d'une visite préliminaire à l'HAS, utilisant un SCED, de type N-of 1 trial, multicentrique, randomisé, en double

aveugle, à réplifications multiples (« Multiple » ou « Aggregated » N of 1 trial) aussi appelé « Individual RCT » multiple. Le système de dépressurisation est branché/débranché par phases, tout en évaluant le confort de la prothèse par Socket Comfort Score.



Après une phase d'habitation à l'emboiture, à la prothèse, et au pied contenant le système UNITY (appareillage qui sera maintenu fixe tout au long de l'étude), les patients débuteront tous par la phase A (système UNITY présent mais débranché) avec une auto-évaluation journalière du confort. La randomisation réalisée déterminera au bout de combien de jours, le patient sera reconvoqué pour brancher, ou vérifier mais laisser débranché (réglage placebo) le système Unity. De même, les autres changements de phase et réglages placebo seront déterminés par randomisation. Chaque patient aura un minimum de 7 mesures par phase (selon randomisation), correspondant à une durée de phase minimale d'une semaine (7 jours).

La procédure sera répétée sur 5 patients par centre, avec 3 centres participants.

Cette étude a permis de réfléchir à deux types possibles de randomisation. En effet, plusieurs modes de randomisation existent dans les N of 1 trial.

a) Randomisation de l'ordre de 2 traitements au cours d'un cycle de durée constante

Randomisation par block aussi appelée par cycles AB ou BA : elle permet d'avoir au maximum deux fois la même condition. Un tirage au sort détermine à chaque cycle si le patient aura les traitements dans l'ordre AB ou BA, un nouveau tirage au sort est réalisé après chaque cycle, les cycles étant de durée constante.

C'est la méthode la plus fréquemment utilisée dans les essais médicamenteux, où une durée égale de phase est souhaitable, afin de distribuer de façon

	Period 1	Period 2
Cycle 1	Treatment	Placebo
Cycle 2	Placebo	Treatment
Cycle 3	Treatment	Placebo

homogène d'éventuels effets rémanents.

Cependant elle ne permet pas d'obtenir une réponse statistique de l'effet par patient par tests de randomisation (gold standard pour contourner l'autocorrélation des données) par manque de puissance.

b) Randomisation de la durée des phases

Venant du milieu comportementaliste, une alternative est de randomiser la durée de chaque phase, chaque patient suivant un design ABAB, ayant ainsi 3 transitions mais des moments de changement de transition aléatoires et différents d'un patient à l'autre.

L'avantage est de pouvoir utiliser des tests de permutation pour extraire une probabilité p d'effet chez chaque patient, basée sur le rang de la moyenne correspondant aux transitions réelles parmi d'autres transitions possibles hypothétiques.

Ce type de design permet de déterminer *a priori* le nombre de permutations théoriques possibles, donc la puissance de l'étude pour un patient donné. Par exemple, si le nombre de permutations possibles est de 15, et même si le traitement montre un effet spectaculaire chez le patient, le p sera au mieux de $1/15 = 0.066$, ce qui ne permet pas d'atteindre le seuil de significativité de 0.05. Par contre avec 360 permutations possibles, le p peut atteindre 0.003.

Le calcul de puissance de l'étude UNITY est basé sur ce principe, en utilisant les paramètres suivants : Durée minimum de chaque phase = 7 jours. Ce chiffre a été choisi en raison de la variabilité potentielle de l'utilisation de la prothèse entre les jours de semaine et le WE (activité de loisir, trajet pour le travail...), afin de toujours inclure au moins un WE par phase. Durée maximale de l'étude : 50 jours.

Le nombre de permutations générées par ce design est donc 2300, permettant, dans le meilleur des cas, d'obtenir une significativité de $p = 0.0004$ pour chaque patient.

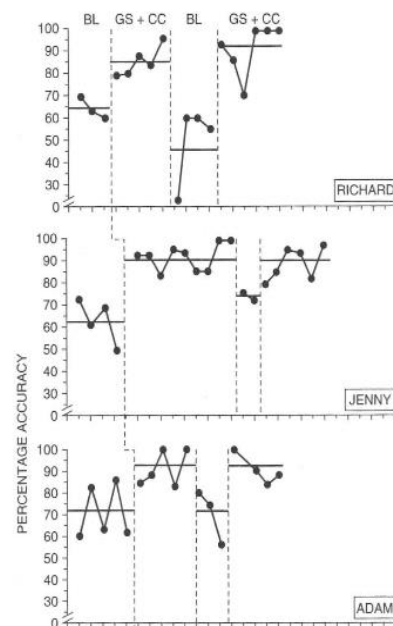
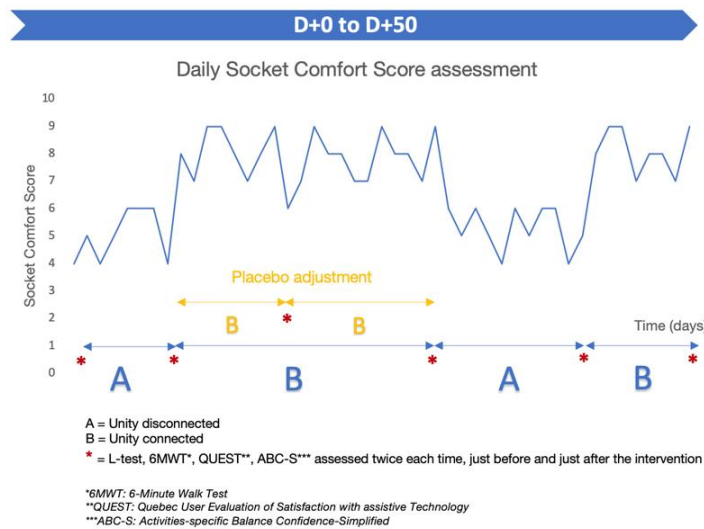


Figure 1. Study Design: hypothetical data explaining the N-of-1 design based on phase length randomization and additional placebo phases change



Dans le cas du système UNITY, le changement de phase est réalisé par un orthoprothésiste qui branche ou débranche le système. Ainsi, si le patient voit le prothésiste à chaque changement de phase uniquement, il saura qu'il change de phase, ce qui risque de biaiser l'aveugle du patient. Par conséquent, pour toute phase > 14, les patients sont convoqués pour un réglage de prothèse placebo. Ceci permet de renforcer l'aveugle mais n'intervient pas sur l'analyse de données qui se fait par randomisation de longueur de phase (c'est-à-dire deux demi-phases A séparées d'un réglage placebo groupées ensemble). Cette approche permettra également de veiller au bon réglage du reste de la prothèse avec un maximum de 13 jours sans vérification.

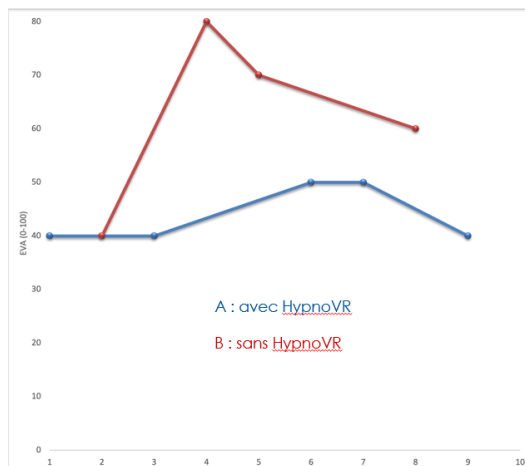
ENCOURAGER L'UTILISATION DES SCED EN CLINIQUE POUR OPTIMISER LES PEC DES PATIENTS

C'est le cas par exemple du « **Protocole de cas unique pour déterminer la meilleure analgésie lors des mobilisations de genou après arthroplastie totale de genou : évaluation de l'hypnothérapie par réalité virtuelle** », réalisé sous la direction de Sophie Bur, où je suis méthodologiste. Il s'agit d'un protocole de soins courants en rééducation, avec une randomisation qui est réalisée dans une démarche d'évaluation objective des effets du traitement pour un patient donné. Le but recherché est de déterminer l'efficacité de l'intervention à l'échelle individuelle, en vue de l'optimisation de la prise en charge du patient.

Protocole de cas unique pour déterminer la meilleure analgésie lors des mobilisations de genou après arthroplastie totale de genou : évaluation de l'hypnothérapie par réalité virtuelle.

Justification de la recherche	Les douleurs post-opératoires peuvent entraver le bon déroulement de la rééducation avec perte fonctionnelle. L'hypnose, et en particulier HypnoVR a déjà prouvé son efficacité sur la douleur. Cependant, aucune étude évaluant l'hypnothérapie à l'aide de la réalité virtuelle n'a été réalisée dans la prise en charge post-opératoire d'une arthroplastie totale de genou à ce jour.
Objectif principal	Déterminer l'antalgie optimale pour un patient donné lors des mobilisations du genou après arthroplastie totale de genou.

Objectifs secondaires	Déterminer le moyen antalgique optimal pour un patient donné lors des mobilisations du genou après arthroplastie totale de genou en fonction : -des amplitudes articulaires du genou (flexion et extension) ; -de la difficulté ressentie par le kinésithérapeute ; -de l'anxiété du patient ; -de la satisfaction du patient après la fin de chaque séance.
Plan expérimental	SCED de type traitements alternants
Critère d'évaluation principal	Douleur (EVA), mesure répétée 10 fois, après les mobilisations.
Critères d'évaluation secondaires	Mesure répétée, avant et après les mobilisations (soit 20 fois au total sur 10 séances): flexion de genou (°), extension de genou (°), anxiété (EVA) : ces mesures sont de toute façon recueillies après chaque mobilisation. Mesure répétée 10 fois, après l'intervention testée : difficulté ressentie par le kinésithérapeute (EVA), satisfaction du patient (EVA)
Critères d'éligibilité	Âge supérieur ou égal à 18 ans Arthroplastie totale de genou datant de moins de 2 semaines EVA initiale supérieure ou égale à 50/100 à la mobilisation
Design	Étude expérimentale en cas uniques avec mesures répétées de type traitements alternants Intervention A : séance de kinésithérapie standard Intervention B : séance de kinésithérapie avec HypnoVR La durée totale de ce protocole de soin courant est de 10 séances, à raison de 1-2 séances quotidiennes. Un critère d'arrêt de protocole pour un patient donné a été défini pour éviter une alternance de traitement en présence d'une supériorité claire de l'un des traitements. Ce critère est une dégradation de l'EVA > 4 dans une des conditions: s'il existe une différence supérieure ou égale à 4 points sur l'EVA durant au moins 3 transitions consécutives, seul le traitement améliorant la douleur est continué. L'analyse se fait sur les points collectés jusqu'à cet arrêt.
Méthode statistique	Analyses statistiques de cas uniques : NAP, TAU-U, tests de randomisation



L'objectif de ce type de protocole de soins, est de trouver la meilleure thérapeutique pour un patient donné, en se basant sur des données objectives, moins biaisées par les biais de mémoire ou préférence d'une thérapeutique.

Cependant ce type d'approche clinique est un exemple type de la limite qu'il peut y avoir entre les SCED réalisés à visée recherche et les SCED réalisés à visée d'optimisation des soins pour un patient donné.

CARACTERISER LES SCED DU POINT DE VUE ETHIQUE ET REGLEMENTAIRE

Devant les difficultés à reconnaître ce qui constitue :

- un SCED de recherche visant à obtenir un savoir généralisable

VERSUS

- un SCED de pratique clinique visant à établir la meilleure option thérapeutique pour un patient donné,

nous avons soumis, après une discussion de 2 ans avec les juristes, président de CPP et présidents de comité éthique locaux, directeur de centre de formation universitaire en orthophonie, une proposition de « **position point,** » **concernant les points méthodologiques des SCED semblant les plus controversés dans leur utilisation en clinique :**

Single-case experimental design studies: Regulatory and ethical framework in research and clinical practice. Agata Krasny-Pacini, Elena Chabran, François Clauss, Marie-Aline Sarda, Charles Pradeau, Marie-Eve Isner, Eric Sauleau. Revision submitted

1. L'aveugle dans les SCED

Que ce soit en recherche ou en pratique clinique rigoureuse, favoriser l'aveugle du patient et/ou de l'évaluateur, permet d'avoir des conclusions plus fiables car moins influencées par les désirabilités sociales, les effets d'attente du traitement. Cet aveugle permet d'extraire l'effet directement lié à une intervention au sein de la multiplicité des effets « placebo » (ex : effet de temps avec thérapeutes, effet nouveauté...). En ce sens, l'aveugle en clinique est à promouvoir, notamment pour décider de l'acquisition d'aide technique coûteuse (e.g. système de dépressurisation dans les manchons pour amputés), la mise en place au long cours de traitement avec des effets secondaires connus (e.g. antalgie par AINS) .

Position Point : La notion de l'aveugle n'est donc pas un critère qui catégorise une étude comme de la recherche sur la personne humaine

2. Les mesures répétées

Dans la définition même des SCED, le patient est évalué de nombreuses fois sur un critère de jugement qui est en général une mesure de comportement (ex : nombre de mots dénommés, intensité des crises de colère, vitesse de marche...) ou un PROM (patient reported outcome mesure de type EVA ou auto-questionnaire), de passation courte, ayant peu d'effet retest, et reflétant le processus ciblé par l'intervention.

Cette répétition des mesures, jugée souvent comme non typique d'une prise en charge clinique habituelle, fait parfois trop vite catégoriser les SCED en protocole en recherche sur la personne humaine. Cependant, mesurer de façon répétée un patient, permet une bien meilleure compréhension clinique de son état, la compréhension de ses fluctuations, et des facteurs qui influencent sa performance en dehors de toute introduction d'intervention... Dans certains domaines, comme par exemple les thérapies cognitivo-comportementales, il est impensable d'évaluer le patient une seule fois avant et après une intervention : le monitoring ou auto-observation des comportements problématiques de façon répétée (souvent journalier) par le patient ou son entourage est une partie inhérente de l'intervention clinique. Dans la plupart des interventions, introduire des mesures répétées permet au patient de suivre ses progrès, de soutenir la motivation, de réajuster les traitements en cas de réponse non satisfaisante.

Position Point : La notion de mesures répétées n'est donc pas un critère qui catégorise une étude comme de la recherche sur la personne humaine. Pour qu'un SCED clinique ne rentre pas dans la catégorie de recherche sur la personne humaine, les mesures répétées doivent avoir un intérêt clinique certain pour le patient.

3. La randomisation dans les SCED

La randomisation consiste à décider de façon aléatoire du début d'une intervention, du switch entre deux interventions différentes, classiquement par tirage au sort. La raison sous-jacente est de s'assurer que l'on testera bien les effets de l'introduction de l'intervention et non des facteurs de confusion, qui seraient surreprésentés si l'intervention débutait à un moment jugé propice par le thérapeute (e.g. : patient plus motivé, moins fatigué, météo favorable...) il semble que le principe de randomisation de la longueur des phases amène souvent les instances éthiques à classer d'emblée les protocoles SCED en tant que recherches impliquant la personne humaine (RIPH) de catégorie 2, selon la catégorisation de la loi Jardé, quels que soient leurs objectifs (clinique ou recherche) et le sous-type de méthodologie employé. Pourtant la randomisation est au service du patient en dehors de la recherche et devrait être utilisée dans toute démarche clinique d'optimisation de traitement afin de s'assurer que c'est bien le traitement qui est efficace, et non la prédisposition du patient au moment de l'introduction.

Position Point : La notion de randomisation du moment d'introduction ou changement de traitement n'est pas un critère qui catégorise une étude comme de la recherche sur la personne humaine.

4. Le principe des lignes de base

Les phases dites de « baseline » sont des périodes « contrôles » où un patient n'a pas l'intervention cible dont le SCED veut évaluer l'efficacité. Durant cette baseline, le patient bénéficie toujours de mesures répétées de nature et fréquence identiques aux mesures répétées qui auront lieu en phase d'intervention. Par contre le reste du contenu de cette baseline est variable (de même que les interventions contrôles à l'échelle de groupe sont variables dans la littérature). Il peut s'agir : (1) d'une période sans aucune intervention (équivalent à un waiting list) ; (2) d'une période avec une intervention dite standard (précédant une phase d'intervention où il y aura un ajout qui sera testé : e.g. une application plus écologique de la rééducation, un temps de pleine conscience avant le début de la séance de rééducation ; l'adjonction d'un composant innovant de prothèse...) ; (3) d'une période d'intervention utile au patient mais ayant un objectif différent de l'intervention qui sera ensuite testée dans la phase suivante (e.g. : Rééducation de la mémoire de travail visuo-spatiale indiquée au vu des difficultés du patient après son AVC, mais sans rapport avec l'intervention, testant ensuite la rééducation de son aphasie).

La durée de la baseline est si possible déterminée par randomisation, avec des restrictions en pratique clinique pour rester sur des longueurs de baseline utiles pour le patient (en règle générale les baseline sont d'un mois environ et très rarement > 2 mois). L'avantage pour le patient de ces baselines longues est une meilleure compréhension de son état de base, de ses fluctuations, et des facteurs influençant sa performance, avant l'introduction de l'intervention qu'on veut tester. L'avantage pour le patient de baselines courtes est l'introduction plus rapide d'un traitement potentiellement plus efficace si celui-ci s'avère supérieur à ce qui est fait en baseline.

Les SCED cliniques où les baseline sont particulièrement logiques pour le clinicien et utiles au patient sont les SCED en lignes de base multiples à travers les critères de jugement. En effet il n'est ni possible ni pertinent d'introduire plusieurs interventions en même temps pour les différents objectifs qu'a le patient. Dans ce design on va donc tirer au sort dans quel ordre on répond à ces différents objectifs, l'atteinte des objectifs ne pouvant encore être traités, est mesurée de façon répétée en attendant leur introduction. Cette méthode permet de différencier l'efficacité réelle d'une prise en charge spécifique versus les progrès liés au simple fait de se fixer un objectif et d'identifier un domaine nécessitant une intervention.

Position Point : C'est le contenu de la baseline qui catégorise une étude comme de la recherche sur la personne humaine. Une étude en SCED peut être considérée comme n'étant pas de la recherche sur la personne humaine seulement si la durée et contenu de la baseline sont en accord avec le bilan et les objectifs spécifiques prioritaires du patient donné, c'est à dire du moment qu'il n'y a pas de retard à l'introduction d'une intervention efficace qui serait prioritaire par rapport à ce qui est réalisé en baseline.

Les baseline de type « waiting list », où il n'y a aucune intervention sont plus sujettes à controverses : si le caractère d'attente est lié à une impossibilité pour le thérapeute de démarrer d'emblée une intervention (e.g. : Cas assez fréquents pour les orthophonistes libérales qui ont des délais d'attente importants entre le bilan et le début des prises en charge hebdomadaires), le

caractère non actif de la baseline est compatible avec une démarche clinique ne relevant pas de la recherche sur la personne humaine.

Par contre si le caractère d'attente est lié uniquement au protocole SCED (e.g. SCED en lignes de base multiples à travers les sujets qui nécessite des longueurs de lignes de base différentes entre les différents patients), le SCED entre dans la catégorie de la recherche sur la personne humaine.

A travers ces « position point », nous espérons promouvoir la rigueur clinique, et encourager des mémoires d'étudiants qui permettent d'apprendre une rééducation fondée sur les preuves, tout en respectant le cadre réglementaire de la loi Jardé.

Suggestion de critères pour la catégorisation des SCED en tant que pratique clinique optimale ou recherche

– adapté à partir des recommandations de l'Agence américaine pour la recherche et la qualité en santé (Agency for Healthcare Research and Quality / AHRQ)[19]

Dans Krasny-Pacini et al. Manuscript in revision in Ann Phys Med Rehabil

Caractéristiques	SCED en pratique clinique optimale	SCED recherche
Motivations	Prise en soins optimale pour un patient à l'échelle individuelle (bénéfice direct pour le patient)	- Obtention de données généralisables (évaluation de l'effet du traitement à l'échelle d'une population) - Pouvant être bénéfique ou non pour les participants à l'étude
Critères d'inclusion	Aucun	Critères d'inclusion, de non inclusion, ou d'exclusion dépendant du protocole de l'étude.
Pour quels besoins ?	Le design du protocole est élaboré en fonction des besoins spécifiques du patient.	Les participants sont recrutés en fonction des besoins de l'étude.
Consentement	Consentement aux soins.	Consentement à la participation à l'étude.
Type de consentement éclairé	Le patient est informé des spécificités de l'approche SCED et de l'objectif du protocole d'optimisation des soins, et il y consent.	Le participant donne son consentement pour participer au protocole, en accord avec la réglementation en vigueur.
Type de SCED	Tout SCED conduit à l'échelle individuelle, sans agrégation de données issues de plusieurs participants.	Tout SCED visant à agréger des données individuelles obtenues chez plusieurs participants, en particulier : - Agrégation de plusieurs N-of-1 trials - SCEDs en ligne de base multiple à travers les participants
Protocole (dosage, durée, fréquence, modalité)	Individualisée	Standardisée
Randomisation	Possible, si le but est de garantir que les	Fortement recommandée, à la fois pour

	effets mesurés sont dus à l'introduction de l'intervention, et non à des facteurs confondants.	répondre aux exigences de qualité méthodologique des SCEDs, et pour garantir une puissance suffisante des test de randomisation dans les designs en ligne de base multiple.
Recours à l'aveugle	Possible, si le but est de distinguer les effets dus à l'intervention de ceux liés aux différents effets "placebo" potentiels.	Fortement recommandé lorsque possible.
Mesures répétées	Possible, si ces mesures visent à une meilleure compréhension des tableau clinique du patient, de ses fluctuations au cours du temps, et des potentiels facteurs confondants externes susceptibles d'influencer ses performances avant l'introduction de l'intervention.	Le choix et la fréquence d'administration des mesures répétées vise à remplir les conditions des tests de randomisation et à permettre une meilleure puissance d'étude.
Ligne de base	La durée et le contenu de la ligne de base sont cohérents avec les besoins d'évaluation individuelle du patient, ses objectifs prioritaires et la faisabilité de l'intervention.	La durée et le contenu de la ligne de base sont définis principalement selon des considérations méthodologiques* (notamment la randomisation).
Critères de jugement	Mesures personnalisées (inclues dans le consentement éclairé) choisies uniquement sur des critères cliniques, en fonction de l'objectif personnalisé de l'intervention pour le patient.	Mêmes mesures pour tous les participants, choisies principalement en fonction du but de l'étude (collecte de données permettant une agrégation de résultats)**
Publication des résultats	- Le SCED ne vise pas en premier lieu à obtenir des résultats publiables. - Les résultats peuvent toutefois être publiés (tout comme peuvent l'être des études de cas), mais sous le titre de "SCED clinique" pour éviter toute confusion possible avec une étude de cas rétrospective et non contrôlée. - Le patient doit consentir à la publication.	Le SCED vise à l'obtention de résultats publiables au sujet de l'intervention testée, et suit donc les mêmes règles que toutes les autres publications de recherche.
Procédure de validation éthique	- L'intervention répond aux normes de soins définies par l'ordre professionnel ou la licence du clinicien, et tient compte de la littérature récente disponible dans le domaine. En cas de publication: - Le consentement du patient est indispensable pour l'utilisation des données cliniques ou de données issues d'examen complémentaires, que ce soit dans un but clinique ou de publication. - Procédure de validation simplifiée (via le comité d'éthique local). - La validation du comité éthique local est nécessaire pour toute agrégation <i>a posteriori</i> de données SCED issues de plusieurs participants (réutilisation de données collectées antérieurement).	Instances de validation pour la recherche (CPP).

* Ces considérations méthodologiques peuvent inclure les réponses du participant, la stabilité de la ligne de base (par exemple lors de procédures de randomisation dite « *response-based* »), et pas seulement des aspects méthodologiques définis en amont de l'inclusion du participant, tels que la durée de la ligne de base (définie à partir de calculs de puissance en lien avec la randomisation).

** Notons toutefois que les méthodologies telles que le Goal Attainment Scaling (GAS) permettent d'utiliser une seule et même mesure de résultat pour tous les participants, dans un but d'agrégation, tout en testant l'efficacité de l'intervention par rapport à des objectifs personnalisés.

A travers ces « position point » et cette proposition de catégorisation, nous espérons promouvoir la rigueur clinique, et encourager des mémoires d'étudiants qui permettent d'apprendre une rééducation fondée sur les preuves, tout en respectant le cadre réglementaire de la loi Jardé.

F) ASSOCIER SCED ET GAS COMME METHODOLOGIE PRIVILEGIEE EN MPR

C'est dans cette optique que le PHRIP REFECO-OP (et thèse de sciences dirigée par Mathilde Chevignard) de Hélène Lebrault, où je suis méthodologiste, a été pensé. Il s'agit d'une rééducation des fonctions exécutives par approche COOP chez des enfants cérébro-lésés ayant pour critère de jugement le Goal Attainment Scaling.

PHRIP « Rééducation Des Répercussions Des Troubles Des Fonctions Exécutives Chez L'enfant, L'adolescent Et Le Jeune Adulte Cérébro-Lésés Avec L'approche Co-Op (Cognitive Orientation To Daily Occupational Performance) »

N°Id Rcb 2020-A00054-35

Manuscript in prep

Finalement, si la MPR se veut d'aider les patients à atteindre leurs objectifs personnalisés et proposer d'y arriver de façon individualisée, une des méthodologies à privilégier est peut-être d'associer SCED et GAS.

L'objectif est d'évaluer l'amélioration de la performance occupationnelle consécutive à une rééducation par l'approche CO-OP chez des enfants/adolescents/jeunes adultes présentant des troubles des fonctions exécutives en lien avec une lésion cérébrale acquise. La méthodologie est un SCED en lignes de base multiples à travers les sujets et à travers les comportements/objectifs (mesurés par GAS et COOP, 2 fois par semaine). Pour chaque enfant, 4 objectifs sont déterminés; dont trois sont travaillés par approche COOP. L'objectif le plus important pour l'enfant est toujours travaillé ; parmi les 3 autres objectifs, un des objectifs est tiré au sort pour rester un objectif contrôle non travaillé.

Cette étude est construite sur les différents points méthodologiques abordés dans les sections précédentes et comprend notamment :

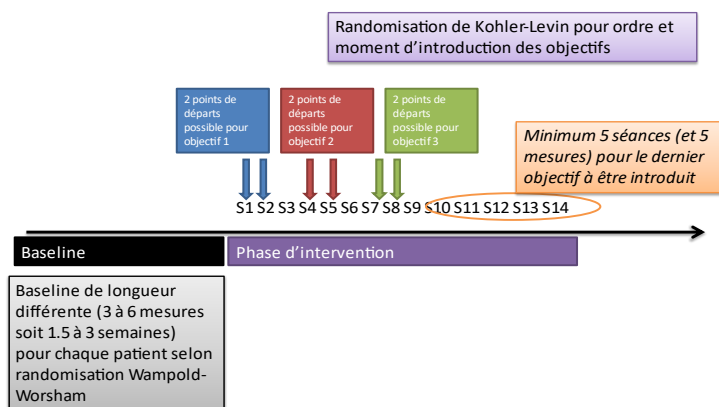
- une double randomisation de Wampold -Worsham pour l'ordre de début d'intervention des différents patients et une randomisation de Kohler-Levin pour l'ordre et le début de travail de chacun des objectifs.

- l'utilisation de GAS mesurables et objectives, cotées en aveugle à partir d'enregistrements vidéo, visionnées dans un ordre aléatoire.

- l'application des critères de qualité GAS en recherche avec une vérification puis cotation de la grille qualité GAS par des juges indépendants de l'équipe de recherche.

- une réplication de SCED (original à 4 patients suivi de deux autres trains de 4 patients).

- une analyse statistique par tests de randomisation qui contourne le problème de l'autocorrélation des données, tout en générant un p par patient (avec donc une significativité statistique testée à l'échelle d'un patient), et une analyse générale à l'échelle de groupe en « Multilevel Linear Regression ».



La collaboration sur cette étude avec Rumen Manolov permet la comparaison de différents types d'analyses statistiques et notamment, la comparaison des analyses

- en multilevel (basé sur des régressions linéaires multiples)
- en tests de randomisation
- en Combinaisons de NAP et p
- en représentations par différents paramètres de Brinley Plots

G) CONCLUSION ET PERSPECTIVES SUR LES SCED

Au total, les SCED apparaissent comme une méthodologie d'avenir pour la MPR. Un nombre croissant de chercheurs, de cliniciens, de journaux s'y intéressent. Le challenge des prochaines années sera de fournir des outils méthodologiques et d'analyse correspondant aux données et au contexte de la recherche en « vraie vie », où les mesures répétées sont souvent très variables et les baseline instables. C'est l'un des objets de mes travaux en cours :

Manolov & Krasny-Pacini : How to deal with trends in baseline? *Manuscript in prep*

Loiret & Krasny-Pacini : SCED in Prosthetics, *invited review in Disab Rehab*

Lebrault, Manolov & Krasny-Pacini: Comparisons of data analysis for multiple baseline designs across subjects and across goals for rehabilitation research

Krasny-Pacini & Manolov: Randomization and methodological advances in SCED, *invited review in DMCN*

3. CONCLUSION SUR LE CHAPITRE METHODOLOGIE

La partie méthodologie est la partie principale de mes recherches ces dernières années. Bien que l'application du SCED et de la GAS à de nombreux domaines soit passionnante et cette transversalité utile, mes travaux manquaient d'unité clinique, raison pour laquelle dans mes futurs travaux (et dans le choix de quelles études accepter de m'investir/être méthodologiste), j'essaie de me concentrer sur ce qui est le plus pertinent et utile aux patients que je suis, à savoir aux patients cérébrolésés suivis par EMOI TC (dispositif médico-social visant à aider à la construction d'un projet de vie suite à une lésion cérébrale.)

III) ACCOMPAGNEMENT DE LA CONSTRUCTION D'UN PROJET DE VIE EN MEDICO-SOCIAL

1. LA STRUCTURE MEDICO-SOCIALE EMOI-TC

EMOI TC est un dispositif médico-social, dit « expérimental » (né en 1996 mais consolidé par l'ARS en 2015), inclusif et à la carte, permettant d'accompagner les personnes et leurs familles dans la construction d'un projet de vie après lésion cérébrale. L'accompagnement est ambulatoire et associe réadaptation cognitive, soutien psychologique, accompagnement social, coordination médicale, rééducative, psychiatrique et réinsertion professionnelle. En partenariat avec les UEROS, les SAMSAH, habitats partagés, GEM et accueil de jour de l'AFTC, l'unité Comète de réinsertion professionnelle, les services de psychiatrie du CHU et de MPR de l'IURC, EMOI TC accompagne une file active d'environ 230 personnes (dont 140 avec un accompagnement régulier et 90 avec un accompagnement plus ponctuel). De par son accès direct sans notification MDPH, EMOI TC peut bilancer, orienter ou accompagner de façon réactive et sur plusieurs années les personnes ayant un handicap cognitif, psychique, émotionnel ou comportemental. Bien que tout patient de 18 à 65 ans puisse intégrer le dispositif si ses troubles cognitifs et comportementaux nécessitent un accompagnement à la construction d'un projet de vie, le service place une priorité particulière : (1) aux personnes isolées et en rupture sociale (ou en danger de désinsertion sociale), (2) les familles (en particulier conjoints) vivant en milieu ordinaire avec une personne avec des troubles du comportement importants ; (3) aux adultes ayant eu une lésion cérébrale dans l'enfance qui se retrouvent souvent perdus et en rupture d'accompagnement à la sortie des dispositifs handicap enfant lors de la transition enfant-adulte ; (4) aux personnes dont les troubles du comportement les amènent régulièrement en prison.

De par son identité universitaire (dispositif faisant partie de l'Institut Universitaire de Réadaptation Clemenceau (IURC) et du pôle MPR du CHU de Strasbourg), l'établissement médico-social (EMS) EMOI TC est une structure ambulatoire alliant accompagnement médico-social, recherche et formation dans le champ du handicap cognitif et psychique ; pionnier dans le décroisement entre besoins liés aux aspects lésionnels neurologiques et aux aspects psychiatriques (conséquence psychique et psychiatrique de la lésion cérébrale ou facteurs pré existants à la lésion), et pionnier dans la recherche participative (avec liens forts avec l'association AFTC, avec qui il fonctionne parfois en dispositif, pour toujours mieux adapter l'offre et les sujets de recherche aux besoins des familles).

Je suis arrivée dans ce service en 2015 et j'y ai trouvé une richesse déjà présente et un potentiel immense :

- le suivi de long terme, permettant réellement d'accompagner les patients, à leur rythme, en non de façon « ponctuelle » comme en sanitaire sur quelques mois à un an.

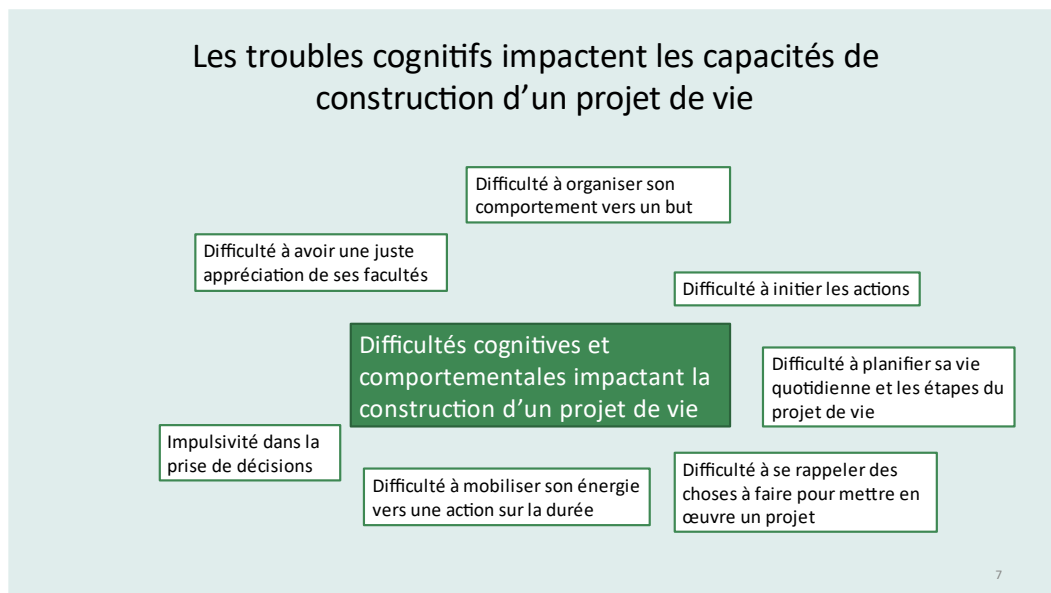
- la possibilité de prendre en charge des patients bien à distance de la lésion, notamment ceux qui sortent d'anosognosie des années après la lésion, ou ceux qui décompensent à distance pour fatigabilité ingérable notamment

- une équipe petite à l'époque (5 personnes), permettant des échanges riches, réguliers, sans la lourdeur administrative d'un service d'hospitalisation

-une expérience importante dans les problématiques de la lésion cérébrale notamment par la psychologue du service, Régine Choisel, présente depuis l'ouverture du service

-la vocation mise en œuvre très concrètement du service de suivre non seulement les patients mais également les familles du point de vue psychologique

Ce sont les questionnements émergeant de suivis cliniques au sein de l'unité EMOI TC, et des discussions stimulantes dans notre équipe, qui guident actuellement ma question de recherche principale, à savoir comment accompagner les personnes à reconstruire un projet de vie après lésion cérébrale.



Les sections suivantes vont donc présenter plusieurs aspects indispensables à prendre en compte pour l'accompagnement du projet de vie, à savoir :

- L'anosognosie et son lien avec la mémoire autobiographique, avec des ébauches de recherche sur ce thème
- Les troubles du comportement en lien avec la régulation émotionnelle, et l'adaptation aux personnes ayant une lésion cérébrale d'une intervention de régulation émotionnelle : la thérapie comportementale dialectique
- Le libre arbitre
- La croissance post-traumatique
- Le soutien aux aidants

Les données préliminaires de ces thèmes ont été le fondement d'un projet multidisciplinaire (projet Libre Arbitre et Régulation émotionnelle pour tous -LA REPT -cf. chapitre IV), dont une partie (intervention pour les patients et collaboration avec laboratoire de linguistique) a obtenu la bourse GIRCI Est jeunes chercheurs (50 000 euros) et dont la mise en œuvre est rendue possible grâce au soutien financier de l'UGECAM Alsace pour la thèse de psychologie de Marie Kuppelin.

2. ANOSOGNOSIE, UTILISATION DE SA MEMOIRE AUTOBIOGRAPHIQUE ET RECONSTRUCTION IDENTITAIRE

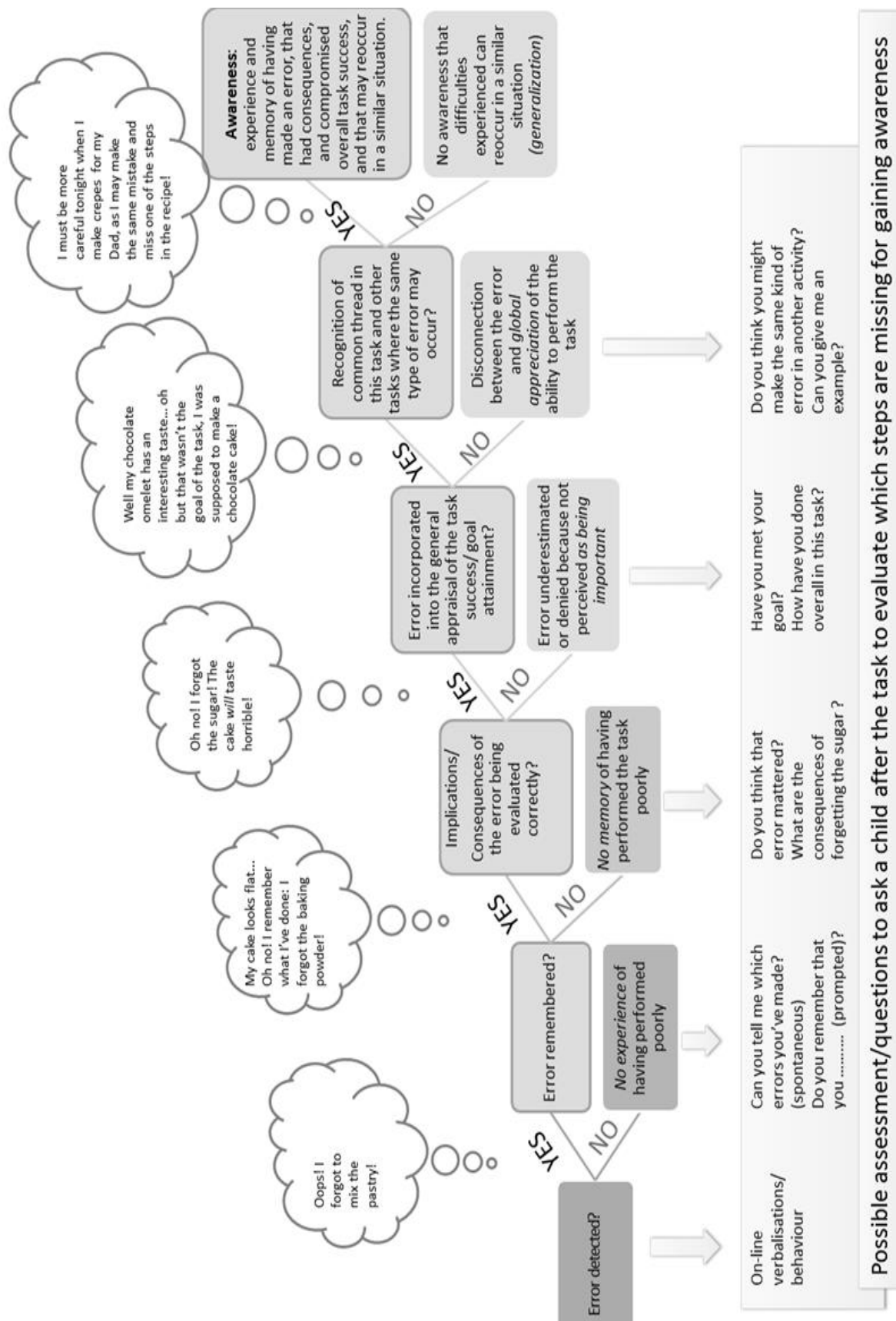
A) MODELE DE L'ANOSOGNOSIE DE L'ENFANT

Lors de ma thèse, l'étude pilote pGMT avait utilisé une évaluation multimodale de la conscience de ses difficultés (questionnaires, évaluation « on-line », discussion d'histoires), et des observations répétées de 5 enfants traumatisés crâniens sévèrement dysexécutifs lors d'une tâche de cuisine, qui montrait des dissociations de l'atteinte des différents composants d'anosognosie.

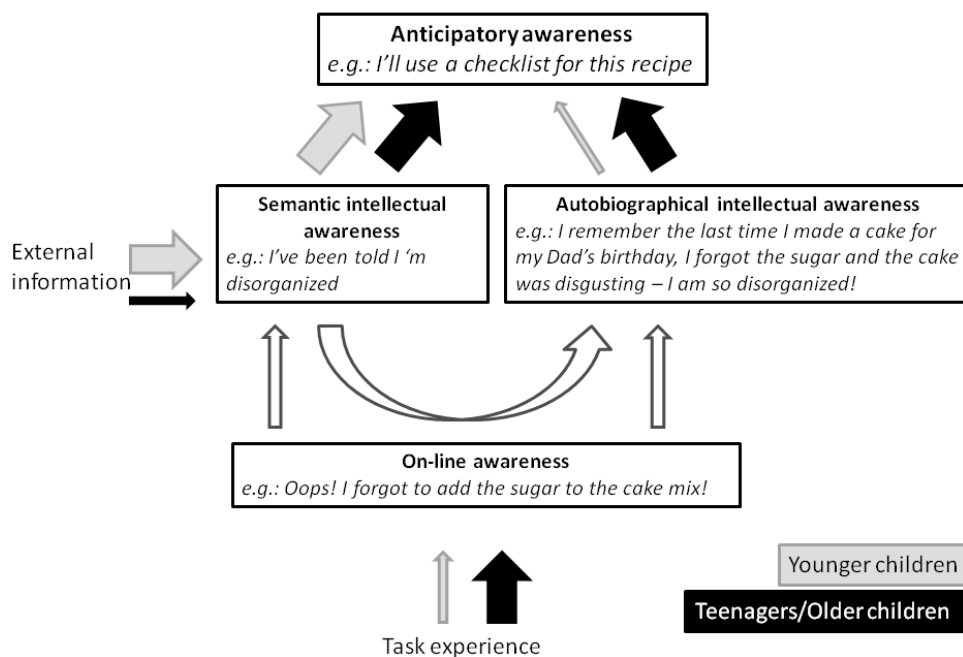
Self-awareness assessment during cognitive rehabilitation in children with acquired brain injury: a feasibility study and proposed model of child anosognosia. Krasny-Pacini A, Limond J, Evans J, Hiebel J, Bendjelida K, Chevignard M. Disabil Rehabil. 2015;37(22):2092-106. Epub 2015 Feb 12

Ces données pilotes m'ont alors permis de proposer un modèle théorique d'anosognosie, que je n'ai pas pu pour le moment confirmer, mais qui reste un modèle pratique en clinique, que j'espère explorer davantage dans le futur dans le cadre de direction de mémoires de neuropsychologie, et à la lumière des travaux de l'équipe mémoire autobiographique dirigé par Fabrice Berna, du laboratoire INSERM 1114 dirigé par Anne Giersch que j'ai eu la chance de rejoindre en 2018.

Dans ce modèle, arriver à la perception « on-line » de ses difficultés exécutives passe par plusieurs étapes qui sont détaillées dans le schéma présenté à la page suivante.



Nous avons également proposé que c'est l'intégration de ces prises de conscience « on-line » en mémoire autobiographique qui permet de développer une conscience anticipatoire de futures difficultés (et donc d'arriver à utiliser des compensations ou aménagements pour éviter de se mettre en difficulté). Ce modèle vise à expliquer pourquoi les jeunes enfants peuvent avoir une certaine conscience anticipatoire de futures difficultés, en se basant uniquement sur un savoir sémantique (flèches grises), issu d'informations données par l'extérieur (ex : parents), alors que les adolescents privilégient leur propre expérience (flèches noires).



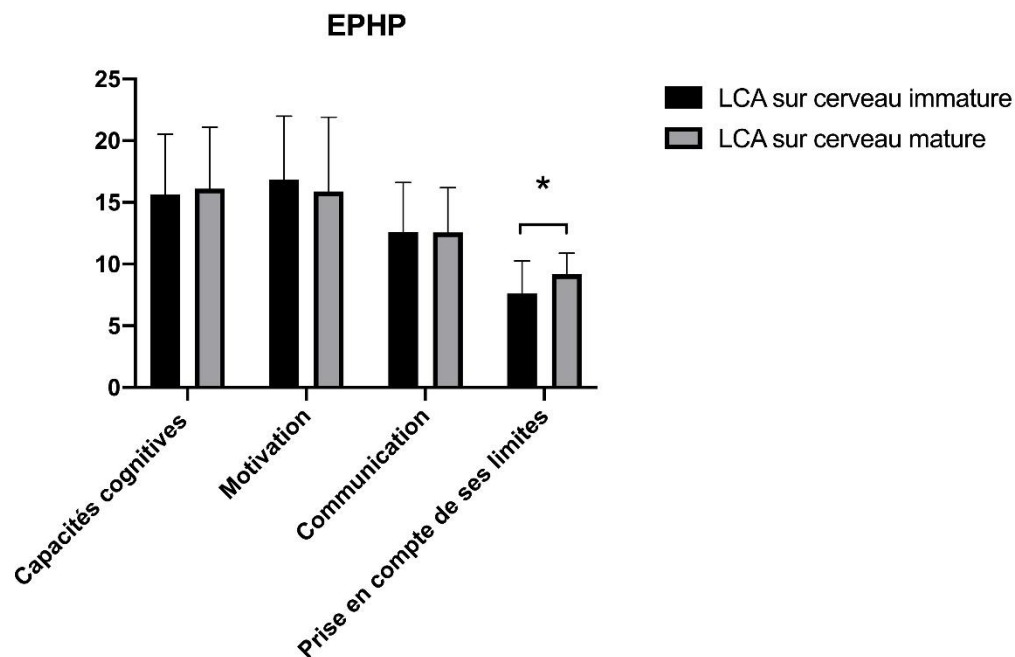
B) COMPARAISON DES PROFILS D'ANOSOGNOSIE ET UTILISATION DE LA MEMOIRE AUTOBIOGRAPHIQUE A L'AGE ADULTE SELON LA SURVENUE DE LA LESION SUR CERVEAU MATURE OU EN DEVELOPPEMENT.

La direction de thèse de médecine et mémoire de DES de Charlotte Nachbar ainsi que le travail du stage recherche d'orthophonie de 2020-2021 de Chloé Bacher, Hélène Le Déaut et Isabelle Barge-Prigent, nous ont également permis d'explorer à l'âge adulte les caractéristiques et l'utilisation de la mémoire autobiographique chez les patients avec lésion cérébrale survenue dans l'enfance, en comparaison à ceux dont la lésion cérébrale est survenue sur cerveau mature (après 21 ans).

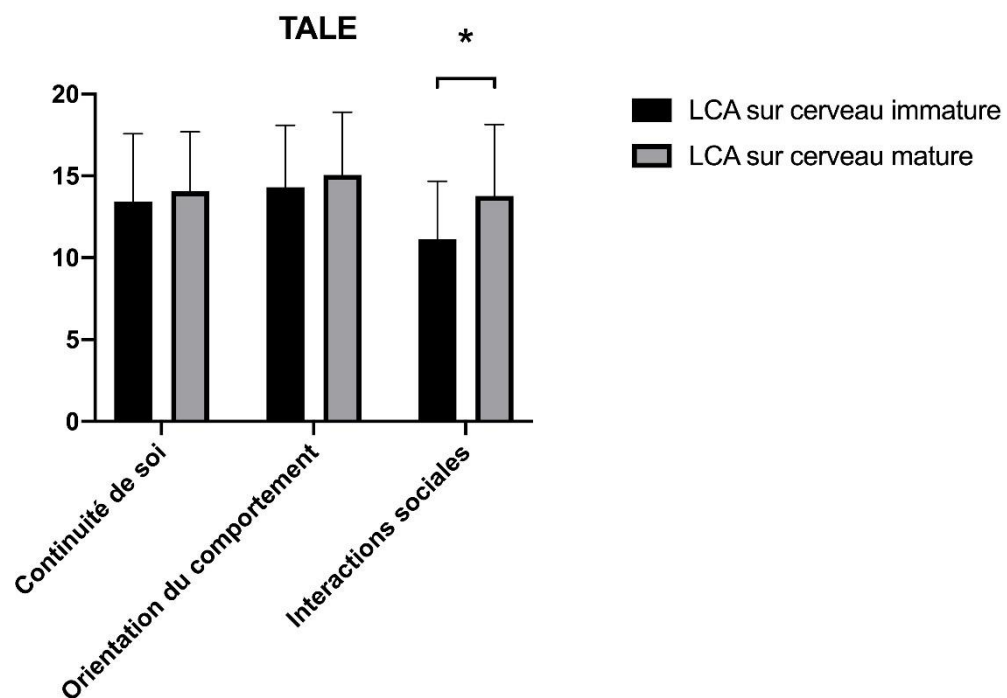
Ces données allaient dans le sens du modèle décrit ci-dessus avec les difficultés de prise en compte de ses limites plus grandes pour les adultes qui ont acquis la lésion dans l'enfance (évalué par un proche sur le questionnaire d'Evaluation des Processus du Handicap psychique) -Cf. page suivante :

Particularités du handicap psychique chez les patients victimes d'une lésion cérébrale acquise au cours de l'enfance par rapport aux patients cérébrolésés à l'âge adulte dans les domaines de la mémoire autobiographique, du concept de soi et de l'estime de soi. Thèse présentée pour le diplôme de Docteur en médecine, Mention DES de Médecine Physique et Réadaptation par Charlotte Marguerite LECLERC-NACHBAR ANNEE 2021

Congrès SOFMER Lille 2021, « En quoi sont-ils différents ? Handicap psychique, coping, estime de soi et utilisation de la mémoire autobiographique chez les patients avec lésion cérébrale acquise dans l'enfance. » Charlotte Nachbar, Charles Pradeau, Hélène Le Déaut, Isabelle Barge-Prigent, Chloé Bacher, Maude Elbel, Marie-Eve Isner-Horobeti, Agata Krasny-Pacini



Les personnes lésées dans l'enfance semblaient aussi moins utiliser leur mémoire autobiographique pour construire des liens sociaux, sur l'échelle TALE (Echelle de réflexion sur ses expériences de vie, qui évalue les fonctions de la mémoire autobiographique) :



C) EXPLORATION DE LA MEMOIRE AUTOBIOGRAPHIQUE, DE SON UTILISATION ET DE SON RAPPORT AVEC LE CONCEPT DE SOI DANS LA LESION CEREBRALE

Cette étude a permis également de commencer à explorer les difficultés de mémoire autobiographique après lésion cérébrale (quel que soit l'âge de survenue) en suggérant que **c'est sur l'utilisation de sa mémoire autobiographique (échelle TALE) et moins sur les caractéristiques de sa mémoire autobiographique (échelle ART)** rapportées (auto-questionnaire avec tous les biais que ceci entraîne chez des patients avec troubles métacognitifs) **que les personnes avec lésion cérébrale se différencient de contrôles de population générale.**

Questionnaire	Effectifs patients avec lésion cérébrale	Moyenne de l'ensemble des patients avec lésion cérébrale	Normes établies sur les échantillons des publications de validation	<i>p</i>
TALE continuité de soi	48	13.70	14	0.607
TALE interactions sociales	48	12.45	16.15	<0.001*
TALE orientation du comportement	48	14.68	16.95	<0.001*
SCCS score brut	47	35.5	40.3	<0.001*
SCCS T-score	45	40.5	50	0.074
ART vivacité	49	4.21	4.64	0.139
ART cohérence narrative	49	4.16	4.48	0.246
ART revécu	49	4.16	4.54	0.169
ART répétition	49	4.20	4.83	0.021*
ART scène	49	4.34	4.95	0.007*
ART imagerie visuelle	49	4.23	5.04	0.005*
ART histoire de vie	49	4.54	5.01	0.111

*Différence statistiquement significative.

TALE : Echelle de réflexion sur ses expériences de vie i.e. fonctions de la mémoire autobiographique.

SCCS : Echelles de clarté des concepts de soi.

ART : test de remémoration autobiographique i.e. caractéristiques des souvenirs

Les analyses mettaient en évidence une corrélation positive de l'utilisation de sa mémoire autobiographique pour la continuité de soi (échelle TALE) de 0,358 avec l'estime de soi ($p = 0,013$) et de 0,497 avec la clarté du concept de soi (échelle SCCS, $p < 0,001$).

Il semble raisonnable de postuler que les interventions favorisant l'utilisation de la mémoire autobiographique permettraient une meilleure clarté du concept de soi, et de l'estime de soi et favoriseraient une reconstruction identitaire.

D) MEMOIRE AUTOBIOGRAPHIQUE ET RECONSTRUCTION IDENTITAIRE FACE AUX PROBLEMES COGNITIFS

L'accompagnement de la reconstruction identitaire doit se faire en prenant en compte (1) les difficultés cognitives, (2) l'histoire de la personne et les facteurs pré-lésionnels et (3) les valeurs des patients.

Le plus important reste de ne pas imposer aux patients une reconstruction identitaire de ce que l'on projette comme bon pour lui/elle, mais garder en tête qu'après une lésion cérébrale on ne perd pas (en tout cas en général pas totalement) le concept de soi d'avant la lésion. En parlant des jeunes traumatisés crâniens (notamment ceux aux vies chaotiques avant lésion cérébrale, qui ont d'ailleurs souvent contribué au traumatisme crânien), Ylvisaker disant que souvent, les professionnels essaient de leur faire construire une vie respectable, organisée, sécuritaire... et que ça revient « à transformer des bulldogs en caniches », et leur construire un projet de vie auquel ils ne s'identifient pas. Il s'agit donc de rentrer dans les valeurs de la personnes[20].

Les difficultés cognitives rendent difficile la prise en compte voire la prise de conscience ou même l'établissement de ses valeurs. Un courant majeur des dernières années en médico-social a été de promouvoir l'auto-détermination (laisser les personnes poser des choix personnels : choisir ses loisirs, choisir de s'exprimer...) mais sans toujours donner d'outils pour relier cette « auto-détermination » à ce que le patient est, ou souhaite être. L'auto-détermination est déjà complexe pour tout un chacun, alors en présence de lésion cérébrale, où la mémoire de son passé, la mémoire prospective de ses intentions, la flexibilité mentale et la mémoire de travail pour implémenter ses intentions efficacement font défaut, cette auto-détermination est souvent aléatoire (cf. III, 5 : propos des patients dans la partie libre arbitre, avec notamment la notion de devoir choisir car « je DOIS » choisir, par parce que je sais/je connais les raisons de ce que je veux choisir)

Concernant, la prise en compte des troubles cognitifs, une technique utile mais sous-exploitée est le Metaphoric Identity Mapping[21], qui consiste à rendre accessibles des composantes multiples d'un modèle cognitif complexe à la mémoire avec une unité de pensée : la métaphore = le compactage métaphorique.

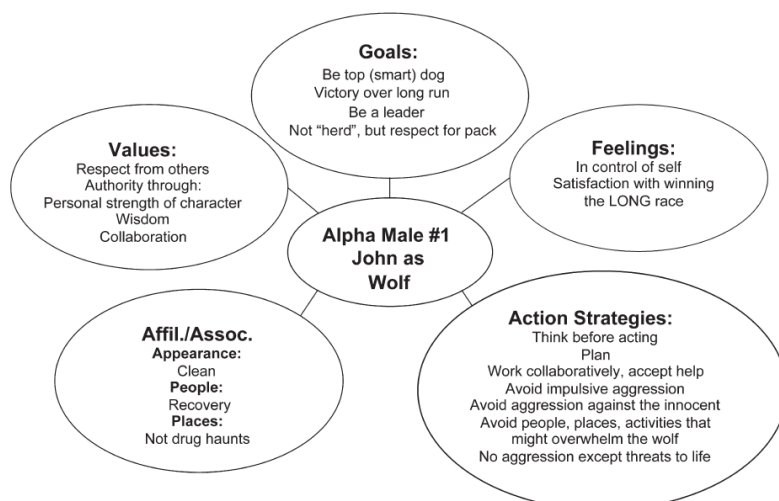
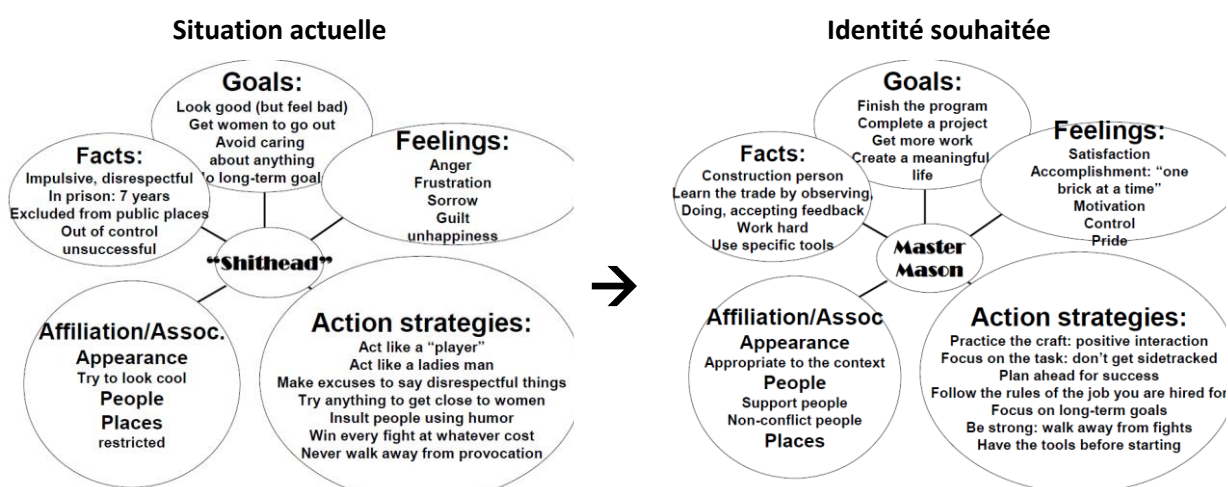


Figure 2. John's positive identity map, metaphorically representing himself as a "wolf" kind of person.

Résumer ses objectifs/valeurs/plans/stratégies de construction de vie en une métaphore permet au patient de contourner la surcharge cognitive liée aux problèmes de mémoire de travail, vitesse de traitement lente, problèmes épisodiques de mémoire, etc... et peut aider le patient aux capacités réduites de mémoire de travail à comparer la situation actuelle avec la situation et l'identité souhaitée (cf. schéma ci-dessous).



La thérapie comportementale dialectique, qui fait l'objet d'un projet de recherche transdisciplinaire (cf. partie IV de cet HDR) dans le service, propose des « menus » de valeurs (cf. tableau ci-dessous), facilitant l'auto-questionnement des patients sur ce qui est important pour eux. Cette approche couplée à la Metaphoric Identity Mapping[21], et à l'établissement d'objectifs par Goal Attainment Scaling pourrait être un pas vers l'établissement d'une construction identitaire et sa mise en œuvre.

LISTE DES VALEURS ET DES PRIORITÉS [22,23]

☐ A. S'occuper des relations ☐ Réparer les anciennes relations. ☐ Accéder à de nouvelles relations. ☐ Travailler sur les relations actuelles. ☐ Mettre un terme aux relations destructives. ☐ B. Faire partie d'un groupe ☐ Avoir des relations étroites et satisfaisantes avec les autres. ☐ Avoir un sentiment d'appartenance. ☐ Recevoir de l'affection et de l'amour. ☐ Être impliqué et avoir des rapports étroits avec les autres ; avoir et garder des amis proches. ☐ Avoir une famille ; être proche et passer du temps avec les membres de la famille. ☐ Avoir des personnes avec qui partager des choses. ☐ C. Avoir du pouvoir et de l'influence sur les autres ☐ Avoir l'autorité pour approuver ou non ce que les autres font, pouvoir contrôler la façon dont les ressources sont utilisées. ☐ Être un meneur. ☐ Gagner beaucoup d'argent. ☐ Être respecté des autres. ☐ Être perçu comme quelqu'un ayant réussi ; être connu ; obtenir la reconnaissance, un statut. ☐ Faire concurrence aux autres avec succès. ☐ Être populaire et reconnu. ☐ D. Réaliser des choses dans la vie ☐ Réaliser des objectifs significatifs ; être impliqué dans des engagements que j'estime importants. ☐ Être productif. ☐ Œuvrer pour atteindre des objectifs ; travailler dur. ☐ Être ambitieux. ☐ E. Vivre une vie de plaisir et de satisfaction ☐ Prendre du bon temps. ☐ Rechercher l'amusement et les choses qui font plaisir. ☐ Avoir du temps libre. ☐ Apprécier le travail que je fais. ☐ F. Faire en sorte que la vie soit pleine d'événements, de relations et de choses passionnantes ☐ Essayer des choses nouvelles et différentes. ☐ Être audacieux et rechercher l'aventure. ☐ Avoir une vie passionnante. ☐ G. Se comporter respectueusement ☐ Être humble et modeste ; ne pas attirer l'attention sur moi. ☐ Suivre les traditions et les coutumes ; me comporter convenablement. ☐ Faire ce que l'on me dit et suivre les règles. ☐ Bien traiter les autres.	☐ H. Faire preuve d'autodétermination ☐ Suivre mon propre chemin de vie. ☐ Être novateur, penser à des idées originales et être créatif. ☐ Prendre mes propres décisions et être libre. ☐ Être indépendant ; prendre soin de moi et des personnes dont je suis responsable. ☐ Avoir la liberté de penser et d'agir, pouvoir agir en fonction de mes priorités. ☐ I. Avoir une spiritualité ☐ Faire de la place dans la vie pour la spiritualité ; vivre une vie en suivant des principes spirituels. ☐ Pratiquer une foi ou une religion. ☐ Progresser dans la compréhension de moi-même, de ma vocation, et du véritable but de la vie. ☐ Percevoir et réaliser la volonté de Dieu (ou de tout autre pouvoir supérieur) et trouver un sens durable à la vie. ☐ J. Être en sécurité ☐ Vivre dans un environnement sûr et sécurisé. ☐ Être sain et en forme physiquement. ☐ Avoir un revenu stable qui réponde à mes besoins de base et ceux de ma famille. ☐ K. Honorer le bien universel de toute chose ☐ Être équitable, traiter les gens de manière égale permettre l'égalité des chances. ☐ Comprendre les personnes différentes ; être ouvert d'esprit. ☐ Prendre soin de la nature et de l'environnement. ☐ L. Contribuer à la communauté élargie ☐ Aider les gens et ceux dans le besoin ; se soucier du bien-être des autres ; améliorer la société. ☐ Être loyal envers ses amis et dévoué envers ses proches ; être engagé dans un groupe partageant mes convictions, mes valeurs et mes principes éthiques. ☐ M'engager pour une cause ou un groupe dont l'objectif va au-delà de mon propre intérêt. ☐ Faires des sacrifices pour les autres. ☐ M. Travailler sur mon épanouissement personnel ☐ Développer une philosophie de vie personnelle. ☐ Apprendre et faire des choses stimulantes, me permettant d'évoluer et de grandir en tant qu'être humain. ☐ N. Avoir de l'intégrité ☐ Être honnête, connaître et défendre mes convictions personnelles. ☐ Être une personne responsable ; respecter ma parole envers les autres. ☐ Vivre et faire face à la vie avec courage. ☐ Être une personne qui paye ses dettes envers les autres et répare les dommages causés. ☐ M'accepter, accepter les autres et la vie telle qu'elle est ; vivre sans rancœur.
---	---

3. PENSEES, SCHEMAS COGNITIFS ET EMOTIONS DANS LA REEDUCATION COGNITIVE ET LA RECONSTRUCTION D'UN PROJET DE VIE

Même si les patients n'en parlent pas toujours spontanément, voire n'en ont pas conscience, la construction d'un projet de vie semble souvent freinée ou rendue difficile par des schémas cognitifs, des biais cognitifs et des pensées qui les « tirent vers le bas ». Ces pensées, peuvent être : (1) clairement suicidaires (et résistent parfois aux psychotropes)¹, (2) ou plus souvent empêchant le patient de s'auto-déterminer vers la vie (ex : « ils n'auraient pas dû me réanimer », « j'aurais dû mourir lors de l'accident », « j'étais mieux dans mon coma et j'aimerais tant y retourner ») ; (3) ou simplement alourdissant et dévalorisant les patients (« je ne vaud plus rien », « je ne suis qu'un fardeau pour mon épouse », « je rate tout ») ; (4) ou encore tournées vers un tiers de façon obsédante (notamment en cas de sinistrose, de rancune envers la personne ayant provoqué l'accident) ; (5) ou enfin décourageant le patient devant les tâches à accomplir (ex : « avant mon accident, ça aurait été simple, maintenant c'est trop dur », « je n'y arriverai pas »)

L'analyse de l'origine de ces pensées est rendue complexe par un vocabulaire disparate entre les professions. Une partie de ces pensées rentre dans le cadre de syndrome bien décrits, comme par exemple des pensées obsessionnelles (dans le cadre de TOC, préexistants ou plus souvent secondaires à la lésion cérébrale) ou s'apparentent à des ruminations anxieuses. Les ruminations sont définies comme des pensées répétitives, prolongées, négatives, récurrentes à propos de soi, de ses sentiments, de ses préoccupations personnelles et des expériences négatives[25]. Particulièrement décrites dans la dépression, les ruminations sont conceptualisées comme le fait de penser aux symptômes, causes, circonstances, significations, implications et conséquences de son humeur dépressive et de sa détresse. Moins décrites dans les lésions cérébrales, elles peuvent être présentes avec une dépression co-existante, ou être parfois isolées. Une revue de littérature[25] récente, en dehors des lésions cérébrales, montre les multiples conséquences négatives des ruminations avec une exacerbation de la psychopathologie en général, en augmentant et prolongeant les humeurs négatives, en interférant avec la résolution de problème, en rendant les patients à risque d'anxiété, dépression, psychose, insomnie et comportement impulsif, en interférant avec les thérapies et leur efficacité, en exacerbant et en maintenant enfin une réponse physiologique accrue au stress.

Mais parfois leur origine et nature laisse l'ensemble de notre équipe perplexe, car ne rentrant pas dans les sémiologies habituelles et ne s'améliorant pas avec une pharmacologie et un soutien psychologique bien conduits et investis. Leur point commun semble être l'inflexibilité et l'impuissance des patients à ne pas les prendre pour une vérité sur eux. Le déficit de flexibilité cognitive et psychique secondaire à la lésion cérébrale, affectant la majorité des patients

¹ La suicidalité post TC est 3 à 4 fois plus élevée que dans la population générale [24]

cérébrolésés, semble rendre ces pensées particulièrement difficiles à gérer, laissant les patients (et les équipes qui les accompagnent) en grande difficulté.

Elles ont en commun de : (1) gêner le patient dans la construction d'un projet de vie ; (2) occuper beaucoup d'espace en mémoire de travail, réduisant les capacités cognitives pour les tâches en cours de la vie quotidienne; (3) aggraver les troubles attentionnels avec un cercle vicieux qui fait que les troubles attentionnels aboutissent à des échecs cognitifs, aggravant eux-mêmes ces pensées; (4) interférer avec le bénéfice de la rééducation cognitive[26,27], [26] ; (5) participer à une thymie basse ; (6) contribuer à la fatigabilité des patients, parfois épuisés par le simple fait de pensées incessantes en dehors de toute « activité » réelle/choisie ; (7) augmenter la domination de l'expérience mentale sur l'expérience directement accessible par les cinq sens, avec moins d'ancrage dans le moment présent ; (8) interférer avec les prises de décisions ; (9) générer et maintenir des émotions négatives.

La littérature de rééducation cognitive suggère un lien clair entre émotions et capacités cognitives : Spikman et al.[26] par exemple ont montré que les difficultés d'identification d'émotions impactaient l'efficacité de la rééducation des FE. Les difficultés de reconnaissance d'émotions empêchaient les patients d'apprendre les stratégies métacognitives plus que le degré de difficultés exécutives pré-rééducation. Certaines équipes comme Rath et al.[27,28], dans leur programme de rééducation cognitive ciblant la résolution de problèmes, consacrent un nombre important de séances (12) à ce que le patient puisse identifier et prendre en compte ses propres réactions émotionnelles face à une tâche (qu'ils appellent l'orientation devant un problème), et notamment à ce qu'il repère ses pensées appelées « self-talk négatif ».

Orientation au problème, d'après Rath et al. 2011		
Composant d'orientation au problème	Orientation positive	Orientation négative/inadéquate
Attribution du problème	Les problèmes sont des événements normaux, ordinaires et inévitables dans la vie	« Les problèmes et les difficultés de vie quotidienne sont exclusivement attribués à ma lésion cérébrale »
Evaluation du problème	Les problèmes sont des opportunités pour progresser.	« Les problèmes menacent mon bien-être ; il faut donc les attaquer immédiatement sans plan préalable ou les éviter à tout prix »
Perception d'une possibilité de contrôle	Les problèmes peuvent être résolus	Les problèmes sont vus comme fixés, immuables, ou sans possibilité d'action dessus
Investissement temps/effort	Vouloir passer le temps et énergie nécessaire pour une activité ou une stratégie de compensation	« Les personnes compétentes devant un problème sont seulement celles qui arrivent à les résoudre vite et sans effort. »

Pour Rath et al. [27], avant d'apprendre des stratégies au patient, il faut aider le patient à mieux s'adapter à la tâche en lui apprenant :

1. à identifier les réactions émotionnelles et physiques négatives survenant devant un problème pour essayer de les interrompre,

2. à identifier une orientation négative aux problèmes et à la replacer par une orientation positive (notamment via des scripts de « self-talk » positifs et justes : « Mes problèmes de mémoires font que cette tâche sera difficile mais si je note les choses au fur et à mesure et barre chaque étape que j'ai finie, je peux arriver à planifier les prochaines vacances »)
3. à se sentir capable de gérer les problèmes en utilisant de l'auto-renforcement positif (« Je peux arriver à cuisiner ce plat si je décompose la recette en étapes et que j'y consacre du temps », « Je me sens fier de moi d'avoir réussi à compenser ce problème par... »)

Une deuxième approche qui se développe dans le traitement des patients avec lésions cérébrales acquises est la thérapie TCC de 3ème génération ACT (Acceptance and Commitment Therapy), utilisée de façon croissante dans la lésion cérébrale[29–31] du fait de son focus sur la flexibilité mentale. Outre l'accent mis sur l'identification des valeurs pour guider son comportement, l'ACT utilise les techniques de défusion. « Le terme “défusion cognitive” trouve son origine dans la langue anglaise sous le vocable “to defuse”. Ce mot fait référence conjointement à la notion de désamorcer un piège et de dé-fusionner avec le langage. La défusion cognitive est donc le procédé permettant à l'individu de prendre de la distance avec le contenu littéral de ses pensées, pour les envisager comme des phénomènes psychologiques différents des expériences réelles. [32]La défusion est surtout utilisée afin de permettre une prise de recul face aux phénomènes internes (tels que les justifications, les jugements, les conceptions de soi) qui peuvent limiter l'individu au niveau des actions qu'il pourrait mener vers ce qui a du sens pour lui. Elle va donc permettre de modifier la relation que l'individu entretient avec ses pensées. » [32]

Des exemples de techniques utilisées pour apprendre la défusion sont:

- entrevoir son cerveau comme une agence commerciale qui envoie régulièrement des représentants “les pensées” qui cherchent à vendre à la personne (lui faire adhérer/croire à) un lot de pensées diverses et variées. L'idée est de se placer dans le choix : j'achète/ je n'achète pas cette pensée, et de faire reposer ce choix sur la question « est-ce que cette pensée va m'aider à avancer vers mes valeurs/ vers ce qui est important pour moi ? »
- en mettant en scène les pensées par paires avec une personne qui joue les pensées (et parle, commente, émet des jugements, sans arrêt) et la deuxième personne qui va se promener (suivie partout de la personne qui joue les pensées). Ceci permet de faire prendre conscience à la personne que celui qui décide de où aller, ce ne sont pas les pensées mais bien moi-même, le moi « transcendant »
- reprendre la pensée en la répétant avec différentes voix, en la chantant, avec un accent étranger ou sous forme de question ou répéter le contenu d'une pensée à toute vitesse afin de focaliser l'attention de l'individu sur les caractéristiques sonores des mots et d'amoindrir les associations à une signification particulière.

Une troisième approche, la thérapie comportementale dialectique (TCD), TCC de troisième génération également, **actuellement utilisée et évaluée dans le service**, consiste à se focaliser sur la régulation émotionnelle avant, ou en même temps que la rééducation cognitive. En effet la TCD apprend au patient une série de compétences qui peuvent aider à gérer ses pensées parasites :

(1) les compétences de pleine conscience apprennent à observer et décrire ses pensées comme quelque chose d'extérieur, « comme des nuages qui passent dans le ciel » ; cf. figure ci-contre issue du manuel donné aux patients

(2) les compétences de tolérance à la détresse avec notamment l'acceptation radicale apprennent aux personnes que « mes pensées sont là, qu'elles me font souffrir, mais qu'en luttant contre, je rajoute de la souffrance, alors que ce ne sont que des pensées, et non la réalité »

(3) les compétences de régulation émotionnelle avec l'identification des émotions, des urgences à agir, et la vérification des faits, qui apprend aux personnes à identifier l'émotion qui génère, ou accompagne, ou qui provoque les phrases parasites, et à vérifier si l'émotion et cette pensée correspondent bien aux faits

(4) les compétences « radicalement ouvertes », avec notamment le focus sur la dialectique entre esprit fixé et esprit naïf, invitant le patient à se placer en esprit ouvert, (cf. extrait du manuel ci-dessous[33])

« Lorsque vous êtes en **esprit FIXÉ**, vous êtes régi par des règles rigides sur la façon dont les choses devraient être. Ce qui a fonctionné dans le passé détermine vos pensées, vos émotions, vos comportements. Vous êtes rigide, borné et régi par des règles. Vous vous sentez protégé, mais vous ne pouvez pas apprendre de nouvelles choses.

Lorsque vous êtes en **esprit NAÏF**, vous êtes inconscient des dangers. Vous faites trop confiance aux autres et aux situations. Vous prenez des décisions sans tenir compte des conséquences et en oubliant les erreurs passées. Vous ne prenez plus en compte votre propre expérience, vos émotions et opinions, vous êtes vulnérable et ballotté par les circonstances.

Les deux extrêmes sont problématiques.

Esprit OUVERT : c'est la voie la plus sûre.

Vous êtes ouvert à de nouvelles expériences tout en honorant le passé.

Vous pouvez avancer.

Lorsque vous êtes en Esprit Ouvert, vous voyez et répondez à "ce qui est", y compris les implications passées, présentes et futures. L'Esprit Ouvert sait qu'il faut s'adapter aux autres, à un environnement, à un contexte qui change sans cesse. Ce qui était une bonne solution hier, ne l'est peut-être plus aujourd'hui. Ce qui vous semble être LA solution n'est peut-être qu'une solution parmi beaucoup de solutions possibles. »

Extraits du manuel patient GREMO

1 OBSERVER

- ✓ **Prêtez attention, délibérément, au moment présent.**
- ✓ **Remarquez vos sensations corporelles** : ce qui se passe dans votre corps (le rythme de votre respiration, la crispation de vos muscles, etc.), dans vos sens (odeurs, saveurs, etc.).
- ✓ **Observez vos pensées et vos émotions** : observez les pensées qui viennent à votre esprit et laissez-les passer. Remarquez les émotions qui changent, s'accroissent ou s'atténuent.
- ✓ **Contrôlez votre attention** : accueillez ce qui vient à vous (pensées, émotion, etc.) et observez sa présence, mais ne vous accrochez à rien.



2 DÉCRIRE

- ✓ **Mettez des mots sur l'expérience** : quand un ressenti ou une pensée émerge, ou quand vous faites quelque chose, prenez-en acte. Par exemple, dites dans votre tête : « La tristesse m'enveloppe » si vous prenez conscience que vous ressentez de la tristesse, ou « Les muscles de mon estomac se contractent » si vous prenez conscience qu'ils sont ainsi, ou « je remarque que la pensée 'je ne peux pas le faire' est apparue dans mon esprit ».
- ✓ **Mettez un nom sur vos pensées, vos ressentis et vos actions.** Reconnaître qu'une pensée est une pensée et l'étiqueter comme telle « la phrase 'je suis nul' a émergé dans ma tête, c'est une pensée qui me traverse l'esprit », de même pour les émotions et les actions.
- ✓ **Remettez-vous aux faits en laissant vos interprétations de côté.** Décrivez ce que vous observez : avec qui, quoi, quand, et où.
- ✓ **Rappelez-vous**, vous ne pouvez pas décrire quelque chose que vous n'avez pas observée à travers vos sens → **La compétence de l'observation est un prérequis.**



Ainsi les TCC de 3ème génération, qui mettent un accent important sur les émotions, donnent des pistes très importantes pour aider les patients à maximiser les capacités cognitives en vue de comportements correspondant à leurs valeurs, en identifiant des pensées et des schémas cognitifs qui ne sont pas au service de la vie qu'ils veulent construire.

Mieux faire connaître ainsi les TCC de 3ème génération, donner accès aux patients à des prises en charges psychologiques « evidence-based » et former les neuropsychologues et orthophonistes aux outils que les TCC proposent pour la rééducation cognitive est l'une de mes priorités en terme d'enseignement. La journée organisée aux EMPR en 2023 sur les TCC de 3ème génération en sera, nous espérons, une étape importante.

4. REGULATION EMOTIONNELLE

De façon complémentaire à l'étude des fonctions exécutives « froides », cognitives, réalisée lors de ma thèse de sciences, le fait d'avoir rejoint en 2018 le laboratoire INSERM 1114 (Neuropsychologie cognitive et physiopathologie de la schizophrénie) et l'équipe de recherche clinique sur la thérapie comportementale dialectique du service de psychiatrie du CHU de Strasbourg, m'a permis de me tourner vers les aspects dits « chauds », soit émotionnels et comportementaux, des fonctions exécutives et des manifestations émotionnelles secondaires aux lésions cérébrales.

La majeure partie de mes collaborations se fait donc actuellement avec les domaines de psychiatrie et psychologie en rapport avec ce thème. C'est ainsi qu'une étude pilote de régulation émotionnelle a vu le jour, des encadrements de thèse et un partenariat avec le Master de psychologie clinique en thérapie comportementale et cognitive.

Le premier défi (toujours en cours) a donc été de trouver un langage commun à des manifestations que chaque discipline (MPR, neuropsychologie, psychiatrie, psychologie TCC, psychologie d'inspiration analytique) nomme autrement et explique par d'autres modèles.

A) PROPOSITION D'UNE LECTURE DES TROUBLES DU COMPORTEMENT APRES LESION CEREBRALE COMME EXPRESSION D'UNE DYSREGULATION EMOTIONNELLE

Les troubles du comportement des victimes de lésions cérébrales acquises, et en particulier de traumatisme crânien, constituent la séquelle majeure, une source de souffrance et une sujétion considérable pour les familles et la société. Récemment, l'HAS a proposé de classer les troubles du comportement en 4 sous-ensembles de manifestations[34] :

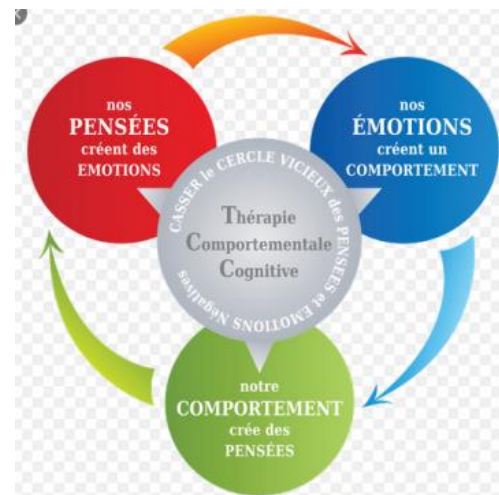
- (i) les perturbations des comportements par excès (la désinhibition, l'irritabilité, l'impulsivité, les addictions, l'agressivité, la violence verbale et physique...)
- (ii) les perturbations des comportements par défaut (ex : l'apathie)
- (iii) les troubles du comportement secondaires à une complication psychiatrique (la dépression, l'anxiété...)
- (iv) les tentatives de suicide et suicides.

L'incidence de l'irritabilité (réactivité disproportionnée avec notamment des accès de colère non justifiés) varie entre 29 et 71% selon les études chez le TC grave, l'incidence de l'agressivité entre 25

et 39%. Les troubles du comportement secondaires à un traumatisme crânien peuvent être associés à des comportements délictueux ou criminels. Chez les hommes, un antécédent de TC est significativement associé à des troubles psychiatriques ultérieurs associés à une criminalité (OR=4.1). Jusqu'à 24,5 % des personnes cérébro-lésées présentent un trouble anxieux généralisé contre 3,1 % dans la population générale. Les idéations suicidaires sont observées chez 21-22 % des TC et 12% des personnes après un AVC [35]. Le risque relatif de suicide en cas de TC sévère est évalué à 3-4 fois celui de la population générale, avec un taux cumulé de suicide de 1 % dans les 15 ans post-TC.

Du point de vue neuropsychologique, dans la lésion cérébrale, les difficultés de comportement sont directement liées au syndrome dysexécutif comportemental, qui inclue la difficulté à percevoir et interpréter les indices sociaux et le comportement social des autres, à contrôler les réponses émotionnelles, à apprendre des conséquences de ses actes et à ajuster son comportement en fonction, à avoir une conscience de soi et un sens de son identité personnelle, et enfin à avoir des connaissances de ses propres capacités [36,37]

Alors que la littérature neurologique et neuropsychologique sur les troubles du comportement s'attache surtout aux manifestations comportementales comme conséquences directes des lésions cérébrales (éventuellement aggravées par l'environnement), une autre manière d'aborder les TdC est de regarder les émotions qui les sous-tendent. Dans le modèle des thérapies cognitivo-comportementales, les TdC peuvent alors être conceptualisés comme la résultante d'émotions trop fortes et/ ou insuffisamment régulées par le patient, phénomène appelé dysrégulation émotionnelle, qui engendre un comportement non adapté. La dysrégulation émotionnelle peut être modulée par les pensées, schémas cognitifs qui viennent amplifier (générant des TdC) ou diminuer l'intensité de l'émotion. Une approche cognitivo-comportementale et émotionnelle vise donc à apprendre aux patients à prendre conscience et à moduler leurs émotions par des compétences cognitives afin de diminuer les TdC.



La dysrégulation émotionnelle est définie comme « l'incapacité, même avec de grands efforts, et dans des conditions normales, à modifier ou à réguler les signaux et expériences émotionnelles, ainsi que ses actions, réponses verbales et non verbales »[38]. La dysrégulation émotionnelle est le dysfonctionnement sous-jacent du trouble de la personnalité limite, mais aussi d'autres troubles cliniques tels que la toxicomanie, les troubles de l'alimentation. La difficulté à réguler les émotions, ou dysrégulation émotionnelle, est un symptôme fréquent dans les troubles psychiatriques[39], neurodéveloppementaux [40], mais également suite à des lésions cérébrales acquises [41], qui peut

se traduire par des troubles du comportement, ayant un impact important sur le bien-être et le fonctionnement social des personnes. La dysrégulation des émotions perturbe tous les aspects des réponses émotionnelles d'un individu : physiologique, cognitif, comportemental et interpersonnel et dans de multiples domaines de fonctionnement[33].

Les TdC/la dysrégulation émotionnelle dans la plupart des pathologies, et après lésion cérébrale notamment, est multi factorielle.

Après lésion cérébrale, les facteurs sont :

1. les conséquences immédiates de dysfonctionnements **lésionnels** de zones, réseaux ou connectivités cérébrales impliqués dans la genèse et/ou régulation émotionnelle.
2. les altérations de **capacités cognitives** nécessaires au traitement des informations émotionnelles et à la régulation de ces émotions, notamment :
 - (1) la reconnaissance des émotions des interlocuteurs [42,43], la théorie de l'esprit [44], la capacité à reconnaître ses propres émotions (alexithymie) [45] et plus largement les capacités de cognition sociale [42,46] (antérieures à la lésion et secondairement modifiées par les lésions) ;
 - (2) les fonctions exécutives dites « froides », indispensables à la mise en œuvre de la régulation émotionnelle, comme l'inhibition de réponses/comportements automatiques/impulsifs, la flexibilité (pour voir, par exemple, un autre point de vue que le sien lors d'un conflit ou des interprétations alternatives à l'analyse de la situation qui génère l'émotion), l'initiation (de stratégies de régulations, par exemple), la formulation et la direction de son comportement vers un but (engendrant des émotions lorsque ce but est atteint ou lorsqu'il n'est pas atteint, mais également appelant à réguler son émotion pour parvenir à ce but), planification de ses actions (selon une manière dirigée vers le but et non basée sur les émotions seules), résolution de problèmes (pour éviter les émotions négatives récurrentes) [36,37]
 - (3) les capacités cognitives nécessaires à tout comportement, y compris, mais pas spécifiquement, à la régulation émotionnelle, et notamment les capacités attentionnelles, de vitesse de traitement suffisante, et de mémoire de travail [47,48].

Ces capacités peuvent être entravées par :

- a) les lésions cérébrales elles-mêmes
- b) le contexte qu'engendre la lésion cérébrale qui peut induire, maintenir ou aggraver les troubles cognitifs. En effet, expérimenter des troubles attentionnels, mnésiques, dysexécutifs, même peu sévères, produit une insécurité avec une expérience d'avoir peu de contrôle sur son comportement (oublis, difficultés à s'organiser, décrochages des conversations...). Cette expérience de perte de contrôle, peut en plus être renforcée par l'entourage (famille, employeur, amis...) qui va décider, initier, gérer beaucoup de choses à la place du patient peut, involontairement, l'invalider et contribuer à une impression de perte de contrôle sur sa vie. Ceci peut être très anxiogène et contribuer aux troubles

cognitifs (parfois plus que les lésions elles-mêmes dans les traumatismes crâniens légers, par exemple). Les contextes anxiogènes et de perte de contrôle peuvent, à leur tour, induire des difficultés de régulation émotionnelle [49,50].

- c) la surcharge cognitive et la fatigabilité : les capacités cognitives nécessaires à tout comportement et notamment les capacités attentionnelles, de mémoire de travail sont rapidement dépassées par la fatigabilité, quasi constante dans la lésion cérébrale. Ainsi des patients ayant des capacités cognitives et de régulation émotionnelle (i.e. pas/peu entravées par la lésion cérébrale), auront des difficultés croissantes à se réguler au fur et à mesure de la fatigue accumulée dans la journée, ou en cas d'expériences émotionnelles fortes répétées.

3. les facteurs **psychologiques** :

- a) les conséquences thymiques secondaires de la lésion cérébrale et de ses conséquences cognitives, du fait des changements majeurs qu'elle entraîne sur son niveau de fonctionnement, les modifications de rôles sociaux, de sa place dans l'environnement familial, de la perte professionnelle, etc. La lutte contre la réalité des problèmes cognitifs ou au contraire la prise de conscience de leur impact peut entraver l'adaptation à la vie quotidienne et affecter la régulation émotionnelle. Ces modifications psychologiques peuvent aussi entraîner des complications psychiatriques comme une dépression ou addiction, elles-mêmes pourvoyeuses de dysrégulation émotionnelle.
- b) les capacités de coping [51], de régulation émotionnelle et les facteurs personnels antérieurs à la lésion cérébrale [52]

4. les facteurs **environnementaux, notamment familiaux**, aggravant ou aidant à gérer les TdC, en fonction des capacités de régulation émotionnelle des aidants eux-mêmes, de leur alexithymie [53], de leur degré d'épuisement, de la réorganisation familiale secondaire à la lésion cérébrale (et aux troubles cognitifs) , permettant (ou pas encore) au patient et à chaque membre de la famille/du couple de trouver sa place.

5. **les comorbidités pourvoyeuses de dysrégulation émotionnelle préexistantes à la lésion cérébrale** dont certaines ont contribué à la lésion cérébrale elle-même et qui viennent aggraver la dysrégulation émotionnelle (ex : traumatismes crâniens chez des patients avec TDAH ou personnalité borderline avec prise de risques)

6. **les facteurs présents en dehors de toute pathologie** [22].:

- a) absence de compétences de régulation d'émotions (qui sont apprises à différents degrés dans l'enfance [54], influencées par la capacité de régulation des parents eux-mêmes [55] ou auto-apprises de ses expériences dans la vie adulte)
- b) les « mythes » de chacun sur la régulation émotionnelle, c'est-à-dire les fausses croyances selon lesquelles les émotions seraient mauvaises et à éliminer ou au contraire qu'elles devraient déterminer de façon brute les actions
- c) l'humeur du moment (en-dehors d'un trouble de l'humeur caractérisé) [56]

- d) la surcharge émotionnelle, liée à l'effort et à l'énergie nécessaire pour réguler ses émotions avec dépassement des capacités de régulation possible chez toute personne (mais plus rapidement chez les personnes ayant une lésion cérébrale)
- e) les particularités biologiques propres à chacun [57,58]
- f) le renforcement des conséquences des comportements émotionnels (par exemple, si l'on atteint plus facilement ses buts en agissant lors de colères intenses)

Ainsi les TdC peuvent être vus comme les conséquences d'une dysrégulation émotionnelle présente à divers degrés en tout un chacun, mais aggravée par les lésions cérébrales impliquant les circuits émotionnels, aggravée par les troubles cognitifs nécessaires à l'autorégulation, la fatigabilité, la surcharge cognitive et émotionnelle en lien avec les conséquences de la lésion, et aggravée encore davantage dans certains cas par l'environnement, les comorbidités préexistantes et les complications psychiatriques.

B) TRAITER LA DYSREGULATION EMOTIONNELLE

Les approches thérapeutiques actuelles des TdC et de la dysrégulation émotionnelle pour les patients avec lésion cérébrale comprennent :

- des traitements pharmacologiques (voir les recommandations de l'HAS [34] pour une revue) mais dont les effets sont modérés (ex : anti-comitiaux thymo régulateurs), inconstants (beta bloquants) et pour beaucoup nocifs pour la plasticité cérébrale (benzodiazépines, neuroleptiques) et par conséquent employés lorsque d'autres thérapeutiques n'ont pas pu être mises en place ou lorsque ils sont indiqués par les comorbidités ou complications psychiatriques
- des approches dites « holistiques » [59] développées surtout dans le traumatisme crânien (avec les UEROS en France)
- des approches de rééducation cognitive incluant un entraînement de régulation émotionnelle dans la rééducation des fonctions exécutives [60], de cognition sociale [41,46,61], et de résolution de problèmes [27,28]
- des approches agissant sur l'environnement :
 - (1) comportementales [62] (ex : diminuer les situations pourvoyeuses /déclencheur de TdC)
 - (2) familiales (ex : neuro-systémie familiale) [34]
- des approches psychologiques :
 - (1) psychoéducation sur les conséquences de la lésion cérébrale et la compréhension des troubles cognitifs à l'attention des patients mais aussi de leurs proches
 - (2) psychothérapies individuelles (« soutien psychologique »), utilisant différents outils pour permettre au patient de trouver sa place après la lésion cérébrale, comprendre son histoire et reconstruire un projet de vie, malgré ses troubles cognitifs
 - (3) des thérapies cognitivo-comportementales et émotionnelles (TCC) [63] (voir Ownsworth et Gracey pour une revue des approches cognitivo-comportementales dans les LCA)
 - (4) interventions TCC dites de 3^{ème} génération comme la thérapie d'acceptation et d'engagement « ACT »[29] , les thérapies issues de la psychologie positive [64,65], cf. revue de Ashworth et al. [66].

Les recommandations actuelles pour les TdC sont de « prendre en compte les différents éléments participant aux TdC: émotionnel, cognitif, relationnel, et des facteurs environnementaux, et la répercussion sur les aidants » [34].

Parmi les thérapeutiques existantes, l'HAS et SOFMER recommandent :

« Malgré certaines limites liées à l'intensité des déficiences cognitives et à la nécessaire faculté d'auto-analyse, les TCC sont recommandées notamment chez les patients souffrant de manifestations anxio-dépressives, d'irritabilité ou de colère. Un effort doit être effectué à l'échelon national pour développer et évaluer les TCC qui sont sous-utilisées en France malgré de nombreuses études scientifiques internationales suggérant un intérêt dans certains troubles du comportement des patients TC. »

Dans la lignée de cette recommandation, un type de TCC dite de « 3^{ème} génération », la thérapie comportementale dialectique (TCD), semble particulièrement intéressante car elle cible spécifiquement la dysrégulation émotionnelle, tout en prenant en compte les interactions entre le patient et son entourage familial dans la genèse/maintien des comportements problématiques.

C) LA THÉRAPIE COMPORTEMENTALE DIALECTIQUE

La TCD est un traitement intégratif, utilisant les principes des thérapies cognitivo-comportementales et émotionnelles, de la dialectique, de la pleine conscience et des principes de la pratique du Zen. La TCD comprend différentes composantes :

- une thérapie individuelle basée sur la dialectique, centrée à la fois sur l'acceptation de la réalité telle qu'elle est et sur l'amélioration de la motivation pour le changement.

- l'établissement d'objectifs précis [67] de court terme (diminution de TdC) et long terme (correspondant à ce que serait « une vie qui vaut la peine d'être vécue »)

- l'acquisition de compétences (compétences de pleine conscience, d'efficacité interpersonnelle rejoignant certaines compétences de cognition sociale, de tolérance à la détresse pour les émotions de très forte intensité et des stratégies de régulation émotionnelle – voir [Quand utiliser les compétences de la Thérapie Comportementale Dialectique \(TCD\) ? © GREMO - YouTube](#), pour une brève description), présentées en séances de groupe, et dans un manuel, et en encourageant la pratique personnelle à la maison. Les patients remplissent, si possible de façon quotidienne, une fiche d'auto-observation, pour apprendre à observer et reconnaître leurs émotions, suivre leurs pensées et noter les comportements problématiques. **Cette partie de la TCD est réalisée en routine clinique en psychiatrie au CHU de Strasbourg sous le nom de GREMO (GroupeRegulationEMOtionnelle), sous la direction de Sébastien Weibel et Luisa Weiner.**

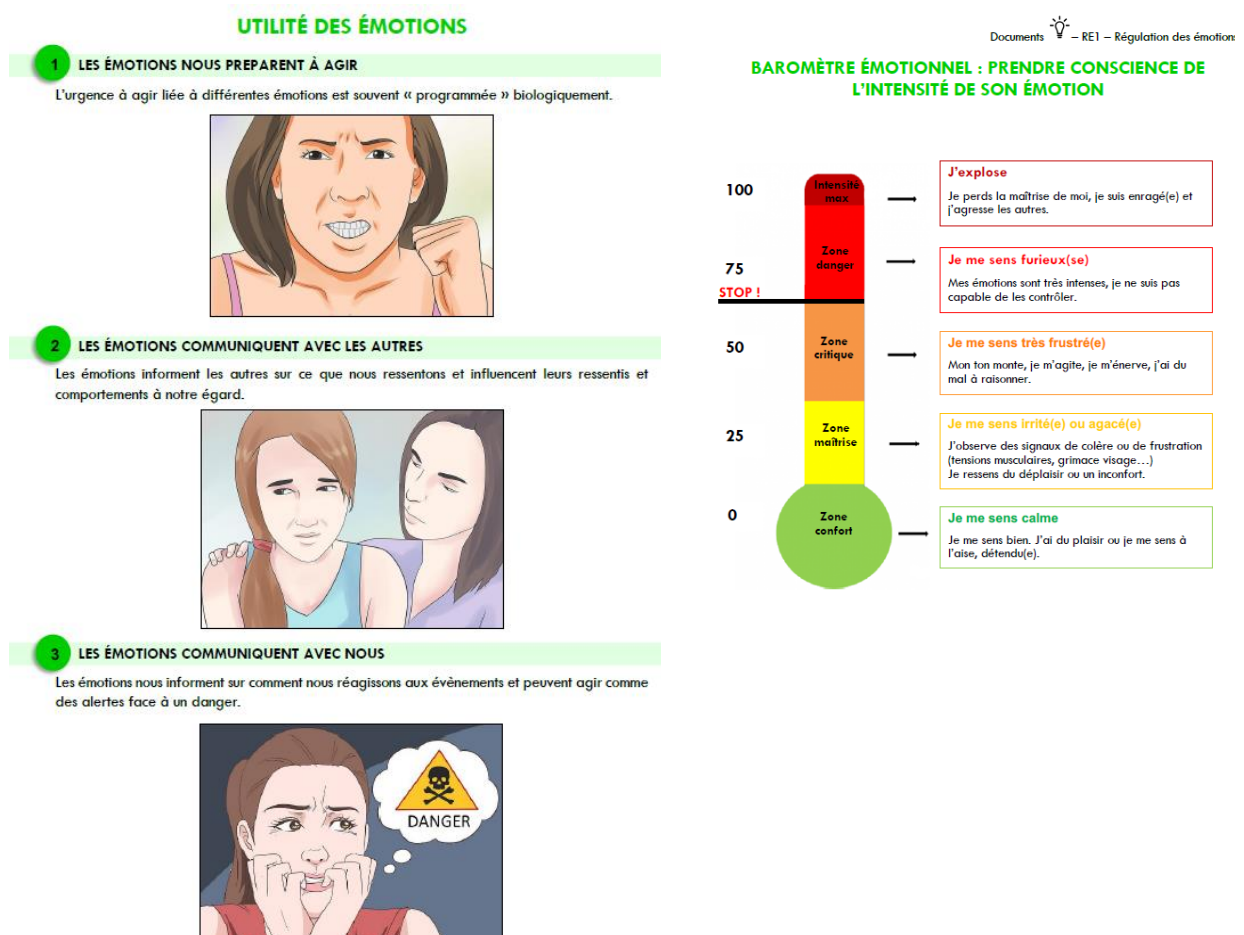
- un focus sur la généralisation par téléphone, SMS, email et disponibilité des thérapeutes en dehors des séances individuelles programmées, permettant au patient d'être guidé vers l'utilisation de telle ou telle compétence en situation écologique.

Initialement formalisée pour les patients à haut risque suicidaire dans le cadre de la personnalité limite, l'entraînement aux compétences TCD a montré ensuite son efficacité également dans d'autres

pathologies, comme la dépression résistante au traitement, l'anxiété, la boulimie.. avec actuellement une application « transdiagnostique » [68] c'est-à-dire non spécifique d'un trouble, mais spécifique des problèmes de régulation émotionnelle. Notamment elle est maintenant utilisée dans les comorbidités et situations fréquemment rencontrées chez les patients cérébro-lésés : consommation et abus de substances[69], troubles cognitifs [70,71], syndrome de stress post traumatique [72]. Une diminution de l'activation du cortex préfrontal a été bien documentée chez les patients présentant un trouble de la personnalité limite [73], ce qui peut suggérer que les interventions dans cette population peuvent également être pertinentes dans les populations présentant des lésions préfrontales dues à une lésion cérébrale. **C'est actuellement l'une des thérapies en psychiatrie qui a accumulé le grand niveau de preuve** dans le trouble de la personnalité borderline [74] .

Dans la suite de l'HDR, les différents composants de la TCD seront expliqués, et des extraits du manuel de Marsha Linehan [22], adapté et illustré par l'équipe TCD de recherche de Strasbourg, (en particulier Doha Bemmouna, Enzo Lachaux et Marie Kuppelin) [23],seront discutés.

Exemples du module régulation émotionnelle



SURVOL : RÉDUIRE LA VULNÉRABILITÉ À L'ESPRIT ÉMOTIONNEL

ABC SANTE est un moyen de se rappeler de ces compétences.

Séance 8

ACCUMULEZ LES ÉMOTIONS POSITIVES

- **À court terme** : Faites des choses plaisantes possibles maintenant.
- **À long terme** : Faites des changements dans votre vie afin que les événements positifs se produisent plus fréquemment.
- ➔ Construisez une vie qui vaut la peine d'être vécue.

BATISSEZ VOTRE EXPERTISE

Faites des choses qui vous font sentir compétent.

Séance 9

CERCHER À ANTICIPER

Répétez un plan à l'avance afin d'être préparé à faire face de manière compétente aux situations émotionnelles.

PRENEZ SOIN DE VOTRE CORPS

- **S**anté soignée
- **A**ddiction évitée
- **N**utrition équilibrée
- **T**emps de sommeil suffisant
- **E**xercice physique

ACCUMULER LES ÉMOTIONS POSITIVES : COURT TERME

CONSTRUISEZ DES EXPÉRIENCES POSITIVES MAINTENANT

- 1) Faites une liste des « Événements Plaisants ».
- 2) Faites chaque jour une chose de la liste.

Entraînez-vous à agir à l'opposé (par exemple, si vous êtes d'humeur triste et vous cherchez à vous isoler et ne rien faire, agissez à l'opposé en intégrant des activités plaisantes à votre journée).

- Liste :
- Me balader au parc (samedi)
 - Aller au cinéma avec Jean
 - Faire du jardinage (Dimanche)
 - Manger une pizza devant ma série favorite (Lundi)
 - Bouquiner dans mon coin lecture
 - Faire des cupcakes et inviter Coralie
 - Prendre un bain chaud (Mardi)
 - ...

SOYEZ CONSCIENT DES EXPÉRIENCES POSITIVES

- Centrez votre attention sur les moments positifs lorsqu'ils se produisent. Ne faites pas plusieurs choses en même temps.
- Recentrez votre attention quand votre esprit s'égaré vers le négatif.
- Participez et Engagez-vous pleinement dans chaque expérience.



NE PRÊTEZ PAS ATTENTION AUX INQUIÉTUDES

Telles que...

- « Quand l'expérience positive prendra-t-elle fin ? »
- « Est-ce que je mérite cette expérience positive ? »
- « Que va-t-on attendre de plus de ma part maintenant ? »

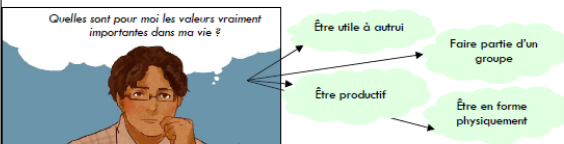
ACCUMULER LES ÉMOTIONS POSITIVES : LONG TERME

Accumulez les émotions positives sur le long terme pour construire une « vie qui vaut la peine d'être vécue », c'est-à-dire, faites des changements dans votre vie afin que des événements positifs se produisent dans le futur.

Étape 1 : N'évitez plus, soyez prêt à vous engager dans des actions.

Commencez maintenant à faire ce qui est nécessaire pour construire la vie que vous voulez. Si vous n'êtes pas sûr de ce qu'il faut faire, suivez les étapes ci-dessous.

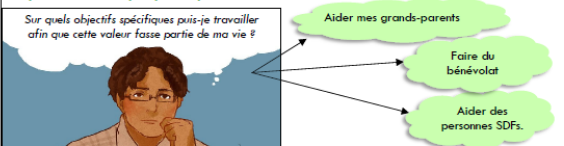
Étape 2 : Identifiez les valeurs importantes pour vous.



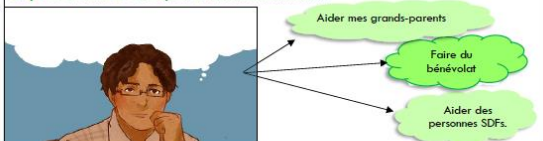
Étape 3 : Identifiez UNE valeur à travailler maintenant.



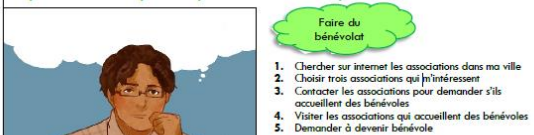
Étape 4 : Identifiez quelques objectifs liés à cette valeur.



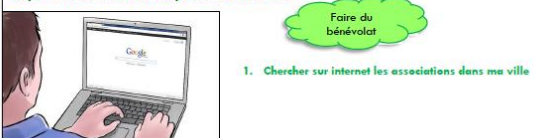
Étape 5 : Choisissez UN objectif à travailler maintenant.



Étape 6 : Identifiez les petites étapes actives vers votre objectif.



Étape 7 : Franchissez une étape active maintenant.



D) RESULTATS PILOTES TCD CHEZ DES PATIENTS AVEC LESIONS CEREBRALES ACQUISES

Basée sur cette vision de la dysrégulation émotionnelle, un premier groupe de 9 patients a bénéficié d'une intervention GREMO en 2020, sous la guidance de Sébastien Weibel et Luisa Weiner, et grâce à l'investissement de l'équipe EMOI TC.

Les résultats clefs du premier groupe ont fait l'objet de la thèse de médecine d'A. Goetsch (2021) et d'une communication affichée au congrès WFNR de 2020 (cf. page suivante).

Faisabilité d'une prise en charge par thérapie comportementale et dialectique de la dysrégulation émotionnelle chez des patients avec lésion cérébrale acquise en phase chronique et de son évaluation par auto-questionnaires. Thèse présentée pour le diplôme de docteur en médecine. Mention : médecine physique et réadaptation par Antoine GOETSCH, ANNEE :2021, N° : 58

Congrès WFNR on-line, octobre 2021 "Feasibility of an emotion regulation intervention based on dialectical behavior therapy (DBT) in adults with a chronic acquired brain injury." Goetsch A., Di Santi C., Choisel R., Weiner L., Weibel S., Isner-Horobeti M.-E., Krasny-Pacini A.

GOETSCH A.¹, DI SANTI C.¹, CHOISEL R.¹, WEIMER L.², WEBER L.²

INSER-HOROBETIM-E.^{1,3,4}, KRASNY-PACINI A.^{1,3,4}

¹Institut Universitaire de Réadaptation Clémenceau, Strasbourg, France

²Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

³Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁴Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁵Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁶Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁷Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁸Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁹Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

¹⁰Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

¹¹Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

¹²Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

¹³Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

¹⁴Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

¹⁵Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

¹⁶Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

¹⁷Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

¹⁸Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

¹⁹Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

²⁰Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

²¹Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

²²Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

²³Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

²⁴Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

²⁵Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

²⁶Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

²⁷Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

²⁸Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

²⁹Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

³⁰Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

³¹Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

³²Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

³³Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

³⁴Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

³⁵Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

³⁶Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

³⁷Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

³⁸Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

³⁹Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁴⁰Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁴¹Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁴²Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁴³Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁴⁴Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁴⁵Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁴⁶Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁴⁷Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁴⁸Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁴⁹Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁵⁰Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁵¹Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁵²Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁵³Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁵⁴Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁵⁵Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁵⁶Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁵⁷Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁵⁸Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁵⁹Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁶⁰Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁶¹Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁶²Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁶³Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁶⁴Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁶⁵Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁶⁶Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁶⁷Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁶⁸Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁶⁹Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁷⁰Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁷¹Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁷²Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁷³Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁷⁴Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁷⁵Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁷⁶Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁷⁷Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁷⁸Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁷⁹Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁸⁰Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁸¹Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁸²Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

⁸³Unité de rééducation à la Stricte, Strasbourg, France

Feasibility of an emotion regulation intervention based on dialectical behavior therapy (DBT) in adults with a chronic acquired brain injury

Results - 9 patients participated in the therapy (of whom 8 completed the therapy and 7 completed the final evaluation), and 13 controls were evaluated. Therapy was feasible, appreciated by patients and the rate of participation were excellent. Because of cognitive impairments, individual sessions were necessary for the comprehension of the different emotion regulation skills.

Patients had difficulties complying with the self-monitoring and therefore, the main outcome measure could not be interpreted due to missing data.

Because COVID-19 related sanitary restrictions groups had to be interrupted after session n°15 and resumed after 10 weeks. During these 10 weeks, DBT training was delivered through Youtube tutorials ("GREMO HUS" channel) and individual phone coaching, which only 5 patients adhered to.

Regarding questionnaires of quality of life (QOLIBRI), emotional regulation (DERS) and self-esteem (Rosenberg self-esteem scale), all patients showed important variability, but with a trend towards benefits of DBT compared to controls.



Emotional dysregulation
We think of participants and controls from EMOTIC department, Thibaut Gauthier for the diagnosis, and a speech therapist to the "GREMO HUS" channel in Strasbourg University Psychiatry unit for individual patient, individual and group coaching, which only 5 patients adhered to.

Conclusion
The main outcome measure was planned to be the decrease in problematic behaviors on self-monitoring charts. French validated versions of self-report and proxy-report questionnaires were selected for secondary outcomes. Questionnaires were assessed 2 times before therapy 4 months apart (T0 and T1), to determine responses' stability, at the end of the therapy (T2). Controls were assessed at baseline (T0 only), and at T2. Results were graphed, as the small sample size and large variability did not allow a reliable statistical analysis.

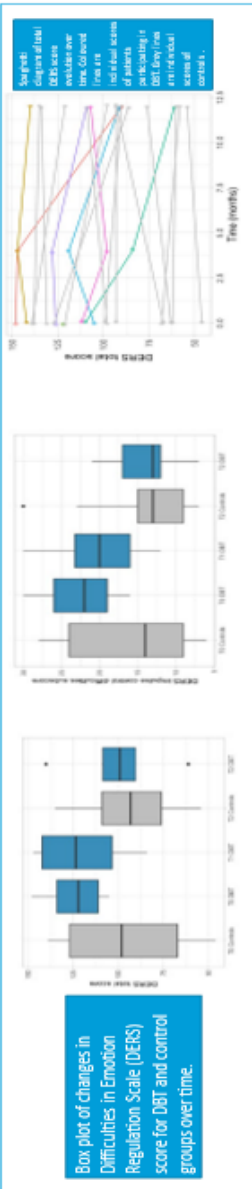
The aim of the study was to examine the feasibility of a DBT intervention in adults with chronic ABI suffering emotion dysregulation

Methods: Patients eligible for the study had emotion dysregulation with social repercussions in daily life following or increased by an ABI.

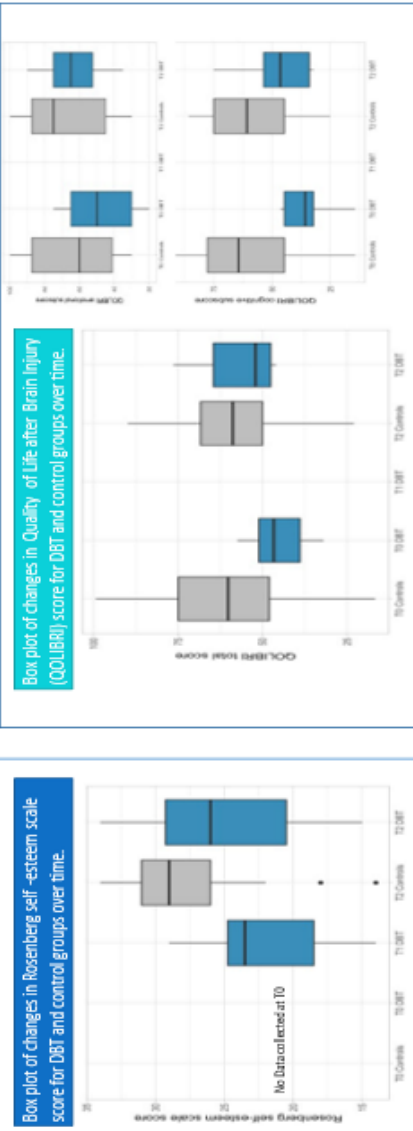
Exclusion criteria were severe cognitive impairments interfering with treatment comprehension or severe anosognosia. Control patients were eligible on the same criteria but did not wish to participate or were unable to for organization reasons.

The main outcome measure was planned to be the decrease in problematic behaviors on self-monitoring charts. French validated versions of self-report and proxy-report questionnaires were selected for secondary outcomes. Questionnaires were assessed 2 times before therapy 4 months apart (T0 and T1), to determine responses' stability, at the end of the therapy (T2). Controls were assessed at baseline (T0 only), and at T2. Results were graphed, as the small sample size and large variability did not allow a reliable statistical analysis.

Conclusion : DBT seems a promising tool to treat emotion dysregulation in patients with ABI but further adaptations and simplifications are needed to make it available and effective for patients with more marked cognitive impairments. Especially the self-monitoring paper charts should be massively simplified, and patients more closely trained and supported to fill them. Difficulties of insight into emotional regulation and lack of recognition of behaviors perceived by others as problematic, make self-monitoring and self-rated questionnaires challenging to use to explore treatment effects.



T0 (all subjects) and T1 (DBT patients only) = scores before DBT
T2 = scores immediately after DBT completion



PREMIER GROUPE GREMO : FAISABILITE DE LA TCD ET DIFFICULTES RENCONTREES

La dynamique de groupe était appréciée des patients et des thérapeutes. Néanmoins, l'animation a été rendue difficile lors des 5 premières sessions, par la présence de conflits entre les participants, voire de troubles du comportement pendant les sessions, déclenchés par des attitudes de jugement entre participants, ayant nécessité des séances individuelles de débriefing immédiatement après la séance de groupe.

Concernant les compétences enseignées aux patients :

- Compétences de Tolérance à la détresse jugées très utiles mais surutilisées, conduisant à une sous-utilisation des compétences de régulation émotionnelle présentées plus tard.

- Difficultés sur le module de pleine conscience en lien avec la fatigabilité et les troubles attentionnels.

- Difficultés à mémoriser les acronymes (la plupart des compétences sont présentées avec des acronymes pour mieux les mémoriser, ex : STOP = S'arrêter -Temporiser-Observer-Poursuivre en pleine conscience).

- Difficultés avec les compétences d'Acceptation radicale : les exemples pris par les patients concernaient souvent la lésion cérébrale plutôt que l'acceptation des petites choses de la vie quotidienne, ce qui était source de refus de cette compétence.

- Utilisation fréquente par les patients d'exemples en rapport avec lésion cérébrale : les patients étaient invités à extrapoler sur d'autres éléments de leur vie.

- Pertinence de la résolution de problèmes dans un contexte de dysfonctionnement exécutif (exemple page suivante)

RÉSoudre LES PROBLÈMES POUR CHANGER LES ÉMOTIONS (EXEMPLE)

Choisissez **UN événement** déclencheur générant **UNE émotion** douloureuse. Si l'événement est relié à plusieurs émotions douloureuses, remplir une fiche par émotion.

Transformez l'événement choisi en problème à résoudre. Suivez les étapes ci-dessous et décrivez ce qui s'est produit.

NOM DE L'ÉMOTION : Honte

INTENSITÉ (cf. thermomètre) : AVANT : 90

1. QUEL EST LE PROBLÈME ? Qu'est-ce qui rend la situation problématique ? Décrivez l'événement déclenchant vos émotions.

Lors d'une réunion, mon chef me questionne sur une possible erreur dans le rapport que j'ai rédigé. Pris dans le stress, j'avance des arguments pour expliquer en quoi ça n'était pas une erreur en me sentant très mal à l'aise. Sauf qu'en vérifiant à posteriori, je me rends compte que je m'étais, en effet, trompé et je me suis senti honteux et très nul.

2. VÉRIFIEZ LES FAITS POUR ÊTRE SÛR DE CIBLER LE BON PROBLÈME. Décrivez ce que vous avez fait pour être certain des faits.

J'ai relu le rapport.

J'ai vérifié dans les archives et me suis rendu compte que je m'étais bien trompé.

Si nécessaire, **RÉÉCRIVEZ** le problème autrement de façon à ce qu'il colle aux faits.

J'ai commis une erreur dans un rapport fourni à mes responsables. J'ai avancé des arguments qui se sont avérés faux pour expliquer qu'il n'y avait pas d'erreur.

3. QUEL SERAIT UN OBJECTIF RÉALISTE DE VOTRE RÉSOLUTION DE PROBLÈME À COURT-TERME ? Qu'est-ce qui doit se produire pour que vous pensiez avoir progressé ?

Reconnaître mon erreur, m'en excuser puis la corriger sans me sentir coupable et honteux.

4. EXPLOREZ LES SOLUTIONS en esprit ouvert : Énumérez autant de solutions et de stratégies pour faire face que possible. NE LES ÉVALUEZ PAS !

- Retourner aussitôt avouer mon erreur à mon chef, malgré la présence de mes autres supérieurs.
- Expliquer mon erreur plus tard, à une occasion quand je serai seul avec mon chef dans son bureau.
- Ne pas dire mon erreur : personne n'aura le temps de vérifier dans les archives.
- Masquer au maximum mon erreur, tout en admettant les éléments les plus importants.
- Demander conseil à mes collègues sur la meilleure ligne de conduite.
- Aller manger avec mes collègues, me distraire pour ne plus penser à ce problème sans le résoudre.

5. QUELLES SONT LES 2 IDÉES QUI PARAISSENT LES MEILLEURES (susceptibles d'atteindre votre objectif et réalisables) ?

1. Demander conseil à mes collègues sur la meilleure ligne de conduite.
2. Retourner aussitôt avouer mon erreur à mon chef, malgré la présence de mes autres supérieurs.

	SOLUTION 1	SOLUTION 2
AVANTAGES	- Ça m'évitera d'agir vite sans prendre le temps de réfléchir. - Mes collègues sont plus expérimentés que moi et connaissent mieux notre chef et les autres supérieurs hiérarchiques. - Mes collègues sont bienveillants. - Ça m'aidera à prendre une décision optimale.	- « Faut avouer, à moitié pardonnée » - Éviter de ruminer la question. - Ne pas laisser trop traîner. - Avoir la possibilité de corriger le compte rendu et en envoyer rapidement une nouvelle version. - Admettre mes fautes rapidement, montrant mon implication dans la question.
INCONVÉNIENTS	- Ça risque de prendre du temps de parler avec les uns et les autres. - Je risque de donner de l'ampleur à la question. - Tout le monde va être au courant - Ils risquent de me conseiller mal. - Ils risquent de me conseiller une solution qui ne me convient pas.	- Montrer que j'ai fait une erreur. - Risque de décevoir mes supérieurs hiérarchiques. - Risque qu'on ne me fasse plus confiance.

6. CHOISISSEZ une solution à essayer ; listez les étapes nécessaires ; cochez les étapes réalisées et notez leur efficacité.

Étape	Décrivez	✓ Fait	Que s'est-il passé ?
1.	Expliquer la situation à mes collègues	✓	Ecoute attentive de mes collègues.
2.	Leur demander conseil	✓	Conseils bienveillants. La plupart m'ont conseillé d'avouer aussitôt.
3.	Choisir le conseil donné par la majorité	✓	J'ai donc décidé d'avouer aussitôt.
4.	Préparer l'application du conseil en étapes	✓	Je me sentais plus confiant après.
5.	Appliquer le conseil	✓	Mes responsables ont été compréhensifs et n'ont juste demandé de corriger le compte-rendu. Je me suis senti moins honteux.
6.	Corriger le compte rendu	✓	Sentiment de satisfaction.
7.	Envoyer la nouvelle version	✓	J'ai été soulagé et fier d'avoir réussi à être honnête. Ma honte avait considérablement baissé.

7. AVEZ-VOUS ATTEINT VOTRE OBJECTIF ? Si oui, décrivez. Sinon, que pouvez-vous faire ensuite ?

Oui. J'ai réussi à être honnête et avouer mon erreur puis corriger le compte rendu tout en me sentant beaucoup moins honteux qu'au départ.

8. Y A-T-IL MAINTENANT UN NOUVEAU PROBLÈME À RÉSoudre ?

☐ Oui ☒ Non Si oui, décrivez et faites à nouveau de la résolution de problème.

INTENSITÉ (cf. thermomètre) : APRÈS : 20

L'assiduité des patients aux pratiques à domicile et à l'auto-observation des comportements, pensées, émotions, et l'utilisation pratique des compétences étaient variables. Les fiches de suivi hebdomadaires étaient peu remplies en général : régulièrement par 4 patients, pas du tout remplies par 2 patients et remplies aléatoirement par les autres patients. **Les résultats des fiches d'auto-observation étaient ainsi peu exploitables comme mesures répétées d'évolution, en raison de :**

-Difficultés pour les patients à reconnaître leurs émotions, à les nommer (ex : confusion entre colère, tristesse, honte et culpabilité), et à en apprécier l'intensité. Le but du GREMO étant justement de mieux reconnaître, nommer, évaluer l'intensité de ses émotions, les patients n'avaient les connaissances théoriques pour remplir la fiche qu'en fin de GREMO (le module de régulation émotionnelle était administré en dernier).

-Une très faible variabilité des émotions rapportées (ex : émotions de tristesse, culpabilité, honte, cotées à 0 sur 7 semaines), confirmant la difficulté d'identification de ses émotions, les patients repérant uniquement l'émotion secondaire de colère sans repérer l'émotion primaire qui a déclenché la colère. Clairement, le schéma de groupe sans accompagnement individuel était insuffisant pour apprendre à repérer ses émotions.

-Probable sous-estimation du nombre de comportements problématiques (problème des mesures auto-rapportées)

ADAPTATIONS DE LA TCD A LA LESION CEREBRALE POUR LE DEUXIEME GROUPE

Suite à ce premier groupe, les adaptations suivantes ont été réalisés, et rendues possible par la présence à mi-temps d'une psychologue stagiaire en master 2 de psychologie clinique en TCC , Marie Kuppelin, actuellement en thèse de psychologie dans notre service:

-au lieu de 16 séances de 2h15, 22 séances de groupe de 2h45, 1 fois/semaine (retour sur les pratiques à domicile, nouvelles compétences présentées de façon interactive et avec jeux de rôle).

-ajout de séances présentes dans d'autres version de la TCD que celle de nos collègues de psychiatrie de Strasbourg, jugées indispensables pour la population de patients avec lésion cérébrale, notamment celles ciblant davantage les problématiques en rapport avec la flexibilité et la cognition sociale

-simplification de la fiche d'auto-observation

-consultation hebdomadaire systématique (présentiel, visio ou téléphonique) pour s'assurer de la compréhension de la compétence à travailler, pour aider à la réalisation de la pratique à domicile, pour analyser et motiver les patients à l'utilisation de la fiche hebdomadaire

-révision de la séance par un lien YouTube de 20 minutes (matériel élaboré par le service de psychiatrie des HUS pendant le temps de confinement, chaîne GREMO HUS)

[GREMO HUS - YouTube](#)

NB des vidéos ont été également ajoutées par notre service EMOI TC

Psychoéducation et régulation émotionnelle en temps de confinement : faisabilité et intérêt de vidéos YouTube de thérapie comportementale dialectique Amaury Durpoix, Luisa Weiner, Doha Bemmoun, Enzo Lachaux, Agata Krasny-Pacini, Sébastien Weibel. Annales Médico-Psychologiques IN PERSS

-préparation obligatoire (parfois aidée) des pratiques à domicile par écrit pour éviter les discours digressifs, parfois en séance de rééducation cognitive

E) RESULTAT PILOTES GREMO SUR LES 2 PREMIERS GROUPES

17 patients ayant suivi le GREMO comparés à l'évolution de 15 patients suivi également à EMOI TC mais sans GREMO.

A noter que les groupes n'étaient pas comparables sur leur dysrégulation émotionnelle puisque le critère pour proposer le GREMO dans cette étude pilote en soins courants était une dysrégulation émotionnelle particulièrement importante.

Le comité éthique de la faculté de médecine de Strasbourg a donné son accord pour exploitation des données à posteriori (questionnaires utilisés dans le cadre de suivi habituel)

Congrès SOFMER Lille, Octobre 2021, « Étude exploratoire d'une intervention de régulation émotionnelle chez des patients avec lésion cérébrale acquise ». Marie Kuppelin, Antoine Goetsch, Régine Choisel, Thibaut Goetsch, Claire Di Santi, Luisa Weiner, Sébastien Weibel, Marie-Eve Isner-Horobeti, Agata Krasny-Pacini

Publication in prep

<u>Caractéristiques des patients inclus</u>	Patients GREMO	Patients contrôles
Nombre	17	15
Ratio H/F	9/8	11/2
Délai moyen de la LCA	4,8 ans	6,8 ans
Âge moyen	43,1 ans	39,2 ans
<u>Types de LCA :</u>		
TCL / M	3	3
TCS	6	6
AVC dont rupture d'anévrisme / MAV	6	3
Autres	2	1

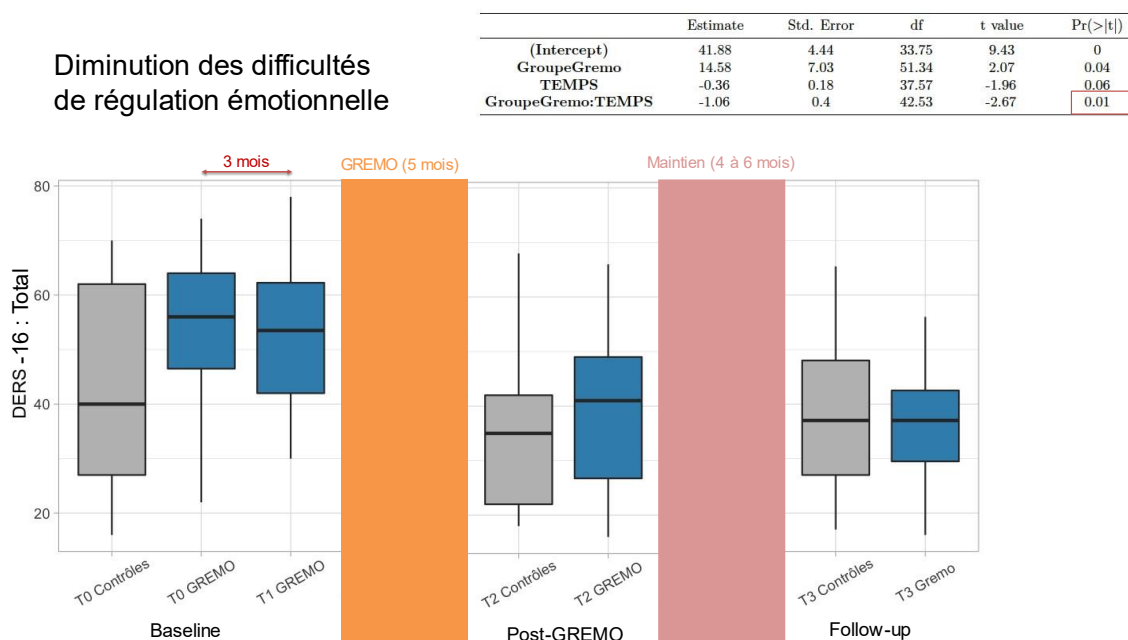
Diagramme en boîtes à moustache de l'évolution des scores totaux au questionnaire DERS-16[75] (échelle de régulation émotionnelle) et QOLIBRI[76] (échelle de qualité de vie) pour le groupe contrôle et pour le groupe GREMO.

Les patients contrôles sont représentés en gris (évalués à T0 – avant l'intervention et T2- après l'intervention), les patients GREMO sont représentés en bleu (évalués à 2 reprises avant intervention (T0 et T1) et après l'intervention(T2)). Le trait représente le score médian du groupe, les rectangles la répartition de 50% des scores autour de la médiane, et les traits verticaux les 25% des scores hauts et bas.

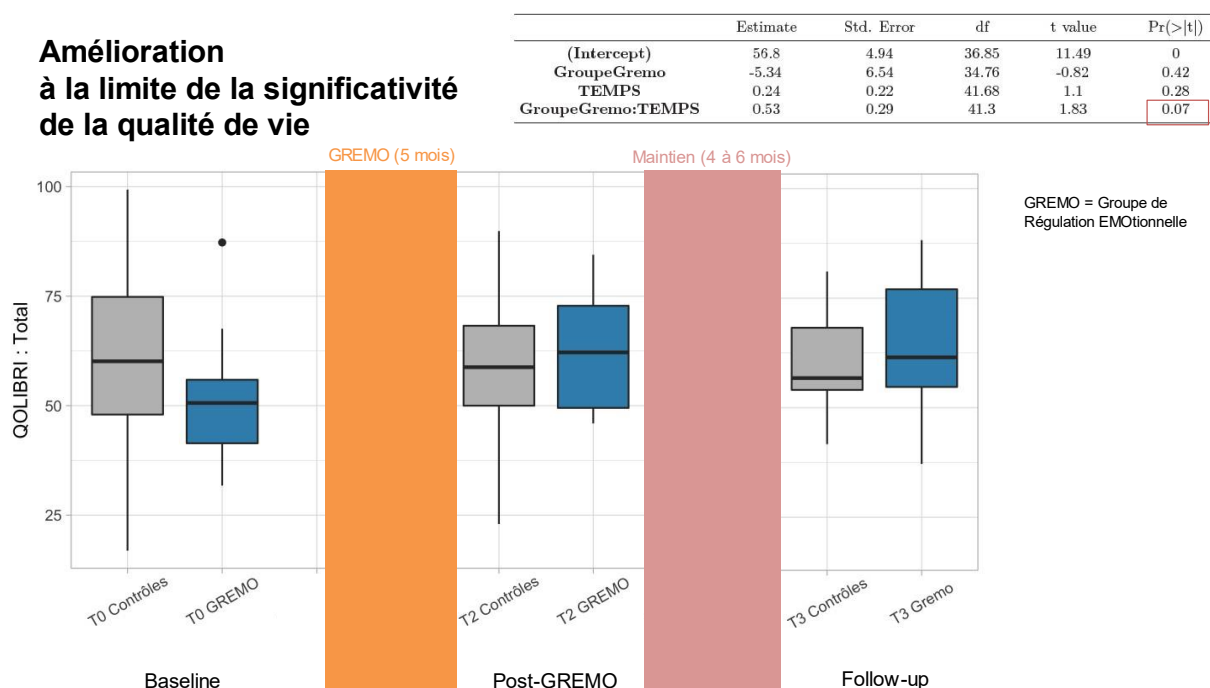
Des scores élevés DERS indiquent plus de difficultés dans la régulation des émotions.

VERSUS

Des scores élevés QOLIBRI indiquent une meilleure qualité de vie



Amélioration à la limite de la significativité de la qualité de vie



F) PROFILS DE PATIENTS DES 2 PREMIERS GROUPES GREMO-LCA

La difficulté principale lors de la mise en place de cette intervention était la sélection des candidats. En effet, issue de la psychiatrie et utilisant le terme de « dysrégulation émotionnelle » peu familier aux MPR et neuropsychologues, nous avons inclus des patients en se basant sur leur souffrance psychique ou la présence de troubles de comportement comme plainte principale, non accessible ou stagnante avec les prises en charge habituelles psychologiques ou cognitives du service.

Nous avons catégorisé *a posteriori* les patients, en fonction de leur réponse au traitement, mais surtout en fonction de leur engagement dans l'intervention :

Types de profils de patients	Moyens et formats différents de PEC à prendre en compte pour le futur
Patients avec troubles cognitifs « isolés » et modérés (essentiellement troubles attentionnels et exécutifs)	Important intérêt du GREMO Possibilité d'apprentissage de compétences TCD seuls, mais avec des séances individuelles à visée de compréhension des compétences et des supports pour les pratiques à domicile
Patients qui ne sont pas en souffrance, et où la demande émane des proches/ familles épuisées par les troubles du comportement	Difficulté majeure d'engager le patient dans la démarche. Privilégier une intervention familiale.
Patients avec problématique psychiatrique associée: nécessité de grande disponibilité (en réactivité, en fréquence et en temps de RDV individuels pour les thérapeutes, en terme d'échanges dans l'équipe, en terme de temps de liens avec le psychiatre traitant).	Nécessité de la présence d'un psychiatre et/ou thérapeute TCC en dehors des groupes GREMO avec temps dédiés pour ces patients. Ne pas inclure de patients instables en l'absence de disponibilité complète des thérapeutes
Patients avec troubles cognitifs sévères avec défaut d'abstraction, de flexibilité et de compréhension	Programme actuel non adapté pour eux. Utilisation de la version de TCD simplifiée par Brown (TCD-Skills Sytem)[70,71,77], mais non traduite en français Durée plus longue de traitement (> 12 mois chez Brown)
Patients avec trouble d'initiation important	Alarmes et rappels par le thérapeute pour initier les pratiques à domicile Intervention de la famille à inclure
Patients pour qui le GREMO arrive « trop tôt »	Il semble nécessaire que les patients doivent avoir au moins entamé un processus de deuil des capacités cognitives perdues et/ou s'être confrontés à leurs difficultés cognitives et émotionnelles pour pouvoir tirer profit de la TCD. Inclure probablement les patients au minimum à 2 ou 3 ans de la lésion cérébrale, dans une phase de non progression ou de progression très lente

Au total, les meilleurs candidats pour l'intervention semblaient donc être des patients avec troubles cognitifs non sévères, conscients de leurs difficultés et en demande d'aide, dont le comportement ou les idées noires sont source de souffrance importante, et donc motivés à les changer, et qui ne sont pas en attente d'une récupération (donc de préférence à distance > 3 ans) d'une lésion cérébrale.

Ce type de candidat idéal n'étant pas le plus courant dans nos suivis, la suite de la recherche (cf. chapitre IV), a cependant décidé de ne pas exclure les patients ne réunissant pas tous ces critères (cf. chapitre V discussion), postulant que c'est à l'intervention de s'adapter pour devenir plus inclusive et au service de la réalité des patients, plutôt que de sur-sélectionner des patients déjà motivés.

La question de la motivation à changer, de la croyance en sa capacité de changer a ainsi donné lieu à un autre volet du projet : le libre arbitre.

5. CONSTRUCTION D'UN PROJET DE VIE : LIBRE ARBITRE

Notre équipe EMOI TC est souvent confrontée au refus de suivi de la part des personnes, alors même que leurs familles, ou les acteurs sociaux ou judiciaires voient l'ampleur avec laquelle leurs troubles cognitifs et comportementaux restreignent leur capacité à fonctionner en société et à construire sa vie. Cette constatation et le désarroi des familles dont l'être cher refuse les soins nous a amené à réfléchir pourquoi certaines personnes s'engagent dans un accompagnement, une construction de nouveau projet de vie, alors que d'autres restent coincées dans des vies compliquées (prison, addiction, désinsertion, absence de liens sociaux) en refusant les aides proposées, qu'elles soient sociales, psychologiques, médicales ou neuropsychologiques. C'est ainsi qu'a émergé la question du libre arbitre après lésion cérébrale.

A) BREF POINT SUR LES CONCEPTS DE LIBRE ARBITRE

Le libre arbitre est décrit classiquement comme la propriété qu'aurait la volonté humaine de se déterminer librement. La définition du libre arbitre, son existence même en dehors de toute pathologie et les conditions nécessaires au libre arbitre sont débattues au cœur des recherches et écrits philosophiques du 21^{ème} siècle². De façon non exhaustive et issues de différentes théories et manières de voir le libre arbitre, on peut cependant citer comme condition influençant le libre arbitre :

-la possibilité de faire autrement[78], c'est-à-dire de disposer de possibilités alternatives, même si la notion de ce qu'est une alternative reste un vaste sujet. Le « faire » autrement a plusieurs significations : possibilité d'essayer ou choisir ou être motivé à faire autrement[79]. "Pouvoir faire autrement" peut signifier que l'agent aurait pu agir autrement s'il avait eu d'autres désirs et motivations. "Pouvoir faire autrement" peut également signifier que l'agent, avec exactement les mêmes désirs, circonstances et les mêmes motivations, aurait pu faire autrement. Autrement dit, même quelqu'un qui aurait une connaissance parfaite des désirs et des motivations de cette personne, ainsi que des lois de la psychologie humaine, serait incapable de prédire son comportement : il y aurait toujours la possibilité que, sans raison apparente, la personne agisse autrement.

-l'action doit être au moins en partie consciente, donc non automatique (donc ne pas être « réflexe »), avec toute la problématique des actions qui deviennent réflexe en cas d'émotions fortes, de déficit de fonctions exécutives[79]

² Les débats sur l'existence du libre arbitre versus déterminisme, le débat sur la responsabilité morale en fonction de l'existence de libre arbitre (et la notion de comptabilisme à savoir d'être responsable malgré un déterminisme), et les très riches recherches en neurosciences sur les substrats anatomiques, les fonctions cognitives impliquées et les mesures de libre arbitre, bien que passionnantes, ne seront pas discutés ici, car hors champ de cette HDR et des recherches en cours. La question de la responsabilité morale (ou les conséquences judiciaires par exemple), en lien avec les conséquences médico-légales du trauma crânien, ne sera pas non plus abordée. Ici le libre arbitre, est exploité en tant que **liberté de choisir la vie que l'on souhaite, dans l'optique d'éclairer les accompagnements des patients avec lésions cérébrales**.

-agir /choisir pour une raison[78] (seuls les comportements avec des raisons intelligibles seraient librement choisis), avec toute la problématique des accès paranoïaques où les actes criminels obéissent à une raison intelligible et très raisonnée (bien que délirante)[80]

-vouloir faire l'action ET vouloir avoir la volonté à effectuer cette action[81], Frankfurt fait ainsi une distinction entre les *désirs de premier ordre* (les désirs portant sur des objets qui ne sont pas eux-mêmes des désirs) et les *désirs de second ordre* (les désirs portant sur des désirs). Par exemple, un patient qui essaie sans succès à contrôler ses accès de colère a le désir de premier ordre de décharger sa colère par de l'agressivité, mais a aussi un désir de second ordre : réguler sa colère et pouvoir dialoguer calmement. Autrement dit, il y a un conflit entre ses désirs de premier ordre (décharger sa colère par des actes agressifs) et ses désirs de second ordre (le désir de ne plus avoir le désir de décharger sa colère par des actes agressifs). Ainsi, quand il explose de colère avec agressivité, il cède à un désir de premier ordre auquel il ne s'identifie pas et n'est donc pas libre. Pour être libre, la personne doit vouloir se mettre en colère et avoir la volonté d'exploser de colère comme manière de communiquer, d'après cet exemple.

- être l'agent/l'origine /la source causale de l'action[78]. Mis à part les cas de figure comme des accès psychotiques, où le patient est considéré « ne plus être lui-même »[80], être pleinement la source causale de son action est ambigu, et amène aux questions de ce qu'est le vrai soi. Ainsi on pourrait distinguer deux types d'états motivationnels qui motive nos actions : ceux qui appartiennent au *vrai soi* (ou *soi profond*) et ceux qui appartiennent au *soi superficiel*[82]. Le *vrai soi* (ou *soi profond*) rassemble les valeurs et les désirs qui sont stables et constitutifs de notre personnalité, plutôt que de simples envies, ou des désirs biologiques indépendants de notre personnalité. Dans ce cadre théorique, être libre, c'est agir sur la base de désirs qui font partie de notre *vrai soi*. Autrement dit : une action libre est une action qui prend sa source dans le vrai soi.[83]

B) QUESTIONNEMENTS CLINIQUES AUTOUR DU LIBRE ARBITRE

Les lésions cérébrales acquises viennent interroger sur ce qu'elles entravent dans la vie des patients, par la dysrégulation émotionnelle, les troubles du comportement et par les troubles de fonctions exécutives, et particulièrement est-ce qu'elles entravent la capacité des patients à être libres de leurs actions, à exercer le libre arbitre. Le lien entre la dysrégulation émotionnelle, les troubles du comportement et le déficit des fonctions exécutives (e.g. difficulté à initier une action qui correspond à ce que je veux réellement), très fréquent après LCA, appelle à mener une réflexion au-delà des critères de diminution des troubles du comportement.

La question centrale pour moi, est pourquoi certaines personnes s'engagent dans un accompagnement, une construction de nouveau projet de vie, alors que d'autres restent coincées dans des vies compliquées (prison, addiction, désinsertion, absence de liens sociaux) en refusant les aides proposées, qu'elles soient sociales, psychologiques, médicales ou neuropsychologiques :

-Soit les patients sont libres et **choisissent** de ne rien changer (et aller mal/ refuser l'accompagnement à la construction d'un projet de vie). Alors on devrait les laisser faire/ les « laisser tranquilles ».

-Soit on considère qu'ils ne sont pas libres et il faut les faire gagner en liberté par tous les moyens à disposition afin qu'ils choisissent la vie qui correspond à ce qu'ils veulent vraiment, voire, pour certains, les « forcer » vers la vie, en attendant qu'ils prennent conscience de ce qu'il veulent (une fois qu'ils auront conscience qu'une autre vie est possible)



EXEMPLES DE CAS CLINIQUES ISSUS DU SERVICE EMOI TC POUR OUVRIR LA REFLEXION AVEC LES PHILOSOPHES

Monsieur BE, aime le tennis, c'est d'ailleurs « tout ce qui lui reste ». Malgré sa petite allocation handicap, il arrive à économiser pour s'acheter une nouvelle raquette et s'inscrire à un club de tennis. Le deuxième jour, un joueur au double lui fait une remarque que le patient prend pour une attaque. Dans un accès impulsif de colère, le patient casse sa raquette, frappe le joueur et est expulsé du club. Son impulsivité le prive-t-elle de libre arbitre ? ³

Madame J a une dysrégulation émotionnelle sévère qui handicape tout ce qu'elle entreprend. Le traitement TCD GREMO semble indiqué et elle est intéressée par son contenu. Mais le fait que la

³ Si l'impulsivité empêche de construire la vie que l'on souhaite (ex : Monsieur BE), le libre arbitre ne devrait peut-être pas être réfléchi en termes de situations où l'impulsivité -quasi réaction réflexe sans aucun contrôle- « choisit » à la place du patient, mais en termes de liberté à prendre des décisions pour que, sur le long terme, ce soit moins l'impulsivité et plus la personne qui pose des choix. Finalement, à impulsivité égale, le patient qui s'engage dans le GREMO, a plus de chance de devenir plus libre vis-à-vis de son impulsivité que celui qui ne prend aucune décision pour sortir de l'impulsivité. **Finalement est libre celui qui prend conscience de ce manque de liberté et qui se donne les moyens d'en sortir ?** A impulsivité égale, la personne qui « COPE AHEAD » (compétence GREMO) et planifie pour éviter les situations où son impulsivité risque de choisir pour lui est plus libre que celui qui se laisse balloter par les événements sans tenter de diminuer les situations à risques. Mais finalement la liberté serait liée aux capacités cognitives de planification ? de remise en question ? d'acceptation d'avoir besoin de thérapie/compensation ?

thérapie soit en groupe fait qu'elle la refuse, ayant été humiliée et traumatisée en classe étant jeune. Ce passé la lie et empêche de faire toute activité de groupe alors même qu'elle en voit l'utilité et au fond voudrait participer. Est-elle libre de choisir ou non cette thérapie ?

Patients qui se dégradent cognitivement (ex : augmentation des troubles attentionnels) car leurs évolutions se compliquent d'une dépression. Proposition d'un antidépresseur qui stimule plasticité cérébrale en plus d'agir sur la dépression.

-A ne le prend pas car il a peur des médicaments

-B ne le prend pas car ses troubles exécutifs d'initiation font qu'il ne prend pas l'initiative d'aller à la pharmacie le chercher

-C ne se souvient pas de la prescription et d'ailleurs a perdu l'ordonnance pour la 3ème fois.⁴

-D ne le prend pas car ne comprends pas son intérêt, du fait de limitations cognitives.

-E ne le prend pas car il estime que sa vie ne vaut plus la peine d'être vécue et il préfère rester dans cet état.

-F présente une grande adhérence à l'environnement. Il est influencé par la dernière personne qui a parlé et en l'occurrence c'était sa sœur qui n'aime pas les médicaments

Les 6 patients ne prennent pas le traitement, se dégradent, avec des conséquences sur la vie qu'ils voulaient avoir (ex : perte emploi, rupture conjugale, n'arrive plus à aller à son club de scrabble). Ont-ils « choisi » librement de ne pas prendre l'antidépresseur ?

Patients qui présentent une apathie sévère:

-F présente une apathie surtout émotionnelle/motivationnelle : il ne fait rien car n'a aucune envie ni motivation, même quand des activités lui traversent la tête. Il reste assis sur son canapé, ne fait aucune activité d'avant le TC alors qu'il en est capable physiquement/cognitivement et ne va même pas manger si quelqu'un ne l'y incite pas physiquement

-G présente une apathie surtout cognitive : l'activité cognitive est très pauvre, il n'a en quelques sortes pas d'idées qui lui traverse la tête

-H a une apathie d'initiation, il sait ce qu'il voudrait faire, il y est au moins en partie motivé, il sait éventuellement même par quoi commencer mais n'enclenche pas la première étape.

Sont-ils libres de rester toute la journée sur le canapé ?

⁴ Si ma mémoire est altérée et que je n'ai pas pu réaliser une action souhaitée (ex : penser à l'anniversaire de mon mari), ai-je « omis » cet anniversaire librement ? Comme l'évènement n'était pas accessible en mémoire, je n'aurais pas pu fêter cet anniversaire. Et en même temps, j'aurais pu programmer une alarme sur mon smartphone sachant que j'ai des troubles de mémoire, décidant alors librement de programmer ou pas l'alarme selon l'importance que je choisis de donner à cet anniversaire.

Monsieur R a perdu son travail suite à une rupture de l'artère communicante antérieure. Il est dans le déni avec une part d'anosognosie ; de manière défensive il trouve que sa vie est super même, s'il ne sort pas /ne fait rien de ses journées (apathie). Interrogé, il dit qu'il ne s'est jamais senti aussi libre que maintenant car avant il était « contraint » à travailler et à se lever chaque matin pour aller travailler.⁵ Le fait de se sentir en pleine possession de son libre arbitre témoigne-t-elle de libre arbitre ?

Monsieur RE, ancien directeur de casino, aimant la fête, les amis et le divertissement présente une aphasie sévère depuis son AVC qui restreint toute communication. Il a perdu son emploi, doit vivre avec une pension d'invalidité très inférieure à son niveau de vie d'avant l'AVC. Il reste enfermé chez lui à boire de l'alcool, dans un appartement qui devient rapidement insalubre. La rééducation orthophonique est mise en péril car le patient ne vient pas ou vient ivre, sa communication et son état psychique se dégradent par conséquence d'alcool. Il ne présente pas d'idées suicidaires immédiates qui auraient permis une hospitalisation sous contrainte et d'ailleurs l'équipe qui le suit considère qu'il est « libre » de se laisser mourir/se détruire le cerveau par alcool. Est-il libre ?

M qui est dans l'incapacité cognitive de voir une alternative dans une situation de vie quotidienne précise (ex : ne voit pas qu'il n'est pas obligé de tailler la haie le seul samedi de l'année où sa fille vient en visite). Ce défaut de flexibilité mentale permet-il « d'agir autrement ? » et être vraiment libre ?

N qui est dans l'incapacité cognitive de voir une alternative sur son projet de vie : il ne voit pas comment une vie autre que celle où il était chef d'entreprise est possible. Il est pris dans une grande angoisse, mais ne peut concevoir de lâcher un projet de reprise professionnelle pourtant irréaliste du fait de la sévérité des troubles. Ne voyant pas d'alternative, ne voyant pas comment faire autrement, est-il libre dans ses choix de vie ?

Madame P manque de persévérance par dysrégulation émotionnelle (dans sa composante de difficultés à progresser vers un but en présence d'émotions négatives). Elle abandonne tous les projets qui lui tiennent à cœur dès qu'il y a une difficulté ou une simple émotion désagréable. 15 ans après son traumatisme crânien, son projet de vie n'a pas avancé. Sa « faiblesse de volonté » contraint-elle sa liberté de construire un projet de vie ?

Monsieur X qui s'embrouille avec la police et finit en garde à vue ou prison dès qu'il fait le cocktail 1L de vodka + rap violent. Il perd son permis alors que les voitures sont son unique passion depuis le TC. Il ne semble pas voir le lien entre sa prise d'alcool et les conséquences, attribuant sa « vie pourrie »

⁵ C'est la question fréquente du patient anosognosique qui ne se rend pas compte qu'il y a un problème (même si sur long terme on sait que l'anosognosie est source d'angoisse devant les discordances entre la réalité perçue et la réalité). Interroger les personnes sur le vécu de libre arbitre fait qu'on aura beaucoup de réponses d'« anosognosie de défaut de libre arbitre ».

uniquement à l'accident et la personne qui l'a renversé, et il ne voit pas pourquoi « ce serait à lui de faire l'effort de ne pas s'alcooliser ». Choisit-il la vie qu'il mène actuellement librement ?

Madame Y a des difficultés de fonctions exécutives importantes faisant qu'elle n'arrive pas à mener une série d'étapes pour arriver à un but, elle part en « pilote automatique » et fait ce qui est le plus habituel ou salient alors qu'elle voulait faire autre chose ce jour-là/ à ce moment-là. Est-elle libre lorsque son attention est happée par quelque chose ?

Madame Z est capable d'élaborer un projet de vie, de savoir les valeurs qu'elle veut vivre, mais ses difficultés de mémoire prospective font qu'elle « oublie », ne met pas en action ce qu'elle souhaite et elle ne le réalise que après une situation/ opportunité . Est-elle libre de choisir sa vie ?

Ces situations sont caricaturales car en réalité les déficits (de flexibilité, fonctions exécutives...) sont rarement complets et les patients gardent possiblement tout de même une possibilité d'action pour certains ou dans certaines situations et c'est ce qu'on voudrait explorer en les interrogeant.

C) IMPLIQUER LES PATIENTS SUR LA RECHERCHE PHILOSOPHIQUE SUR LE LIBRE ARBITRE

Les réflexions et théories philosophiques sur le libre arbitre ont souvent pris des cas de psychopathologies comme exemple d'absence de libre arbitre, cependant les exemples pris par les philosophes sont souvent : (1) des cas « extrêmes » ; (2) basés sur la projection du philosophe de ce que vit la personne ayant une pathologie ; (3) des citations de phrases uniques de patient et rarement une méthodologie qualitative rigoureuse explorant leur vécu profond complexe.

En réponse à cela, Meynen [80] a proposé qu'une manière plus pertinente d'aborder le libre arbitre est d'interroger directement les patients sur leur vécu au lieu d'inférer une absence de libre arbitre. Son papier a été l'une des origines du projet de recherche participatif dans la lésion cérébrale :

"It would be particularly interesting to qualitatively and quantitatively study the extent to which people who actually suffer(ed) from mental disorders experience(d) an effect on their free will and/or responsibility.

Their accounts are remarkably absent from the philosophical and forensic discussions on free will and mental disorder; in general, philosophers, as well as forensic theorists, appear just to assume the (partial) absence of freedom in these conditions."

La question du libre arbitre est également centrale en termes d'implications : beaucoup de PEC, psychothérapies et interventions commencent avec le fait de demander au patient leur accord pour stopper (ou essayer de stopper) des comportements problématiques. Cet engagement repose sur la possibilité pour les personnes de faire autrement que de continuer les comportements problématiques, ainsi notre vision de certaines pathologies comme enlevant le libre arbitre va à l'encontre des présupposés de ces thérapeutiques [79] . Cette question est particulièrement présente au sein de notre service EMOI TC. Pour beaucoup de patients nous n'arrivons pas à nous mettre d'accord sur une existence de libre arbitre, ce qui aboutit à des discordances en termes de PEC proposées.

Meynen[80] fait remarquer comme des pathologies semblant compromettre le libre arbitre (ex : tics involontaires du Sd de Gilles de la Tourette), vu du point de vue des patients, peuvent comporter une certaine liberté (majorité les considère volontaires, c'est-à-dire produits intentionnellement, sans toutefois souhaiter les produire) et que ce vécu des patients à amener à tester et montrer l'efficacité des thérapeutiques (TCC). C'est un exemple de considération d'une action comme échappant au libre arbitre, mais vécue comme (au moins partiellement) libre par les patients (au moins certains) et aboutissant à une thérapie (TCC).

Alors que beaucoup de philosophes utilisent la psychopathologie comme exemple de déficit de contrôle comportemental et donc de libre arbitre, d'autres soutiennent qu'il s'agirait d'une difficulté de libre arbitre[79], avec un coût élevé de l'exercer, et une influence majeure des circonstances pour arriver à l'exercer. Cette dernière conception, est celle qui semble le mieux correspondre à ce que rapportent les patients cérébro-lésés du service EMOI TC (cf section suivante)

D) EXEMPLE DE LA RECHERCHE PARTICIPATIVE SUR LE LIBRE ARBITRE

La méthodologie permettant la construction d'un guide d'entretien était la suivante :

1. Guide d'entretien préliminaire avec différents concepts de libre arbitre (cf. annexe 1)
2. Test du guide entretien sur un faible échantillon de patient pour apprécier (1) la formulation et compréhension des questions ; (2) la pertinence des questions, vue par le patient (Est-ce que les questions posées vous ont semblé pertinentes pour explorer le vécu après lésion cérébrale?); (3) l'adéquation des questions au concept exploré, vu par les chercheurs; (4) l'acceptabilité des questions (« y a-t-il des questions qui vous ont mis mal à l'aise ? qui étaient intrusives?) : cette étape a notamment mis en évidence :
 - la confusion de ce que les personnes mettent derrière « libre arbitre », avec notamment une majorité d'exemples sur des restrictions de liberté (« je ne peux plus conduire, je ne peux pas aller où je veux »), amenant à revoir les termes utilisés
 - des formulations trop complexes et difficiles à comprendre (notamment sur le fait d'être « moralement responsable »)
 - l'intérêt des patients pour la question, voir un effet quasi thérapeutique (« je suis contente d'avoir pu vous raconter ça »)
3. Préparation d'une réunion participative entre philosophes, patients, proches des patients et professionnels de rééducation, à partir de :
 - un écrit en langage courant par les philosophes des concepts de libre arbitre (réalisé par Pr Florian Cova de l'Université de Genève)
 - une série d'exemples de situations cliniques du service EMOI TC (cf. section B au -dessus), visant à permettre au philosophe de donner des exemples pertinents pour les patients (et non les exemples classiques de TOC, psychose... souvent retrouvés dans la littérature philosophique)
4. Réunion participative entre philosophes, patients, proches des patients et professionnels de rééducation comprenant un court exposé des concepts de libre arbitre (basé sur le 3), un temps

d'échange sur comment ces concepts résonnent pour les patients et leurs familles, et enfin, un temps d'échange avec proposition de la part des patients et des familles sur la manière de formuler les questions, aboutissant à un nouveau guide d'entretien (cf. Annexe 2)

5. La possibilité pour les patients et famille de faire un retour écrit ou téléphonique ou en consultation de leurs questionnements ou propositions

6. L'application du guide d'entretien à une étude qualitative (qui sera présentée dans le chapitre IV)

E) EXEMPLE DE PROPOS RAPPORTES PAR LES PATIENTS ET LEURS FAMILLES LORS DE LA REUNION PARTICIPATIVE

Et bien moi, professeur Florian (propos adressé au philosophe), je me reconnais très bien dans ce que vous venez de dire. Je suis très influençable. Si on me dit de sauter, je saute. Si on m'a promis une récompense, je le fais

Je ne suis pas d'accord, on choisit. On choisit tout le temps. C'est nos choix. Après mon accident je rangeais le lave-vaisselle 20 fois de suite mais je le faisais parce que je voulais le faire, je choisissais de le faire.

*Philosophe : Est-ce que vous auriez pu faire autrement ?
Ah... bonne question !*

Moi j'ai l'impression que je n'ai aucun contrôle cognitif de ce que je fais. Ce n'est que à la relecture que je me dis « tu as mal réagi » et encore 80 % du temps c'est plutôt mon entourage qui me demande « mais pourquoi tu as fait ça, pourquoi tu as réagi comme ça? »

Nous, patients, pour arriver au libre arbitre après une lésion cérébrale, c'est une gymnastique cérébrale qu'on doit faire travailler, obliger notre cerveau, c'est un travail de longue haleine. On a perdu le libre arbitre il faut qu'on se l'impose.

Quand j'ai une colère monstre j'ai pas le choix

Moi pour les décisions je mise tout sur la pleine conscience : je prends les décisions que dans un environnement sain, calme, en forêt, c'est là que je prends la meilleure décision

J'ai réfléchi à ce que vous m'avez dit par rapport à au trouble du sommeil. En fait je me lève à 3h du matin car c'est mon choix, ça me plaît fait plaisir d'être éveillé à ce moment-là

Dès qu'il y a un imprévu je ne peux pas mettre en route mon libre arbitre, je dépends entièrement de ce qu'on me propose.

Dès qu'il y a un imprévu je n'ai pas le temps de réfléchir et je le regrette après

Comme je n'ai pas la possibilité de faire une liste des raisons qui me pousseraient à décider, je décide car je dois prendre une décision, pas parce que j'ai pu poser les raisons

Être libre dans sa tête et ses actes c'est aussi selon ce qu'on a encaissé dans sa vie, son enfance et les préjugés il y a plein de choses qui n'ont rien à voir avec notre lésion cérébrale mais qui sont des freins ... est-ce que je suis vraiment libre dans ma vie ?

Dès qu'il y a de l'angoisse j'ai du mal à décider

Moi c'est la culpabilité de me dire que j'ai loupé une occasion d'exercer mon libre arbitre qui fait que la fois suivante je rate aussi l'occasion à cause de cette émotion de culpabilité. C'est la charge psychologique des échecs qui fait que j'ai du mal à être libre

6. RESILIENCE ET CROISSANCE POST TRAUMATIQUE DANS LES LESIONS CEREBRALES

Bien souvent, les prises en charge MPR après lésion cérébrale mettent en avant la rééducation cognitive et physique. Pourtant, l'accompagnement de la construction d'un projet de vie doit de façon indispensable accompagner également la résilience des patients, voire leur croissance post-traumatique.

L'expression croissance post-traumatique (CPT), (post-traumatic growth) ou développement post-traumatique désigne l'ensemble « des changements psychologiques positifs résultant de la confrontation, de la lutte avec tout événement de vie défiant hautement les ressources de l'individu »[84]. Cette définition conceptualise l'idée qu'un individu confronté à une situation grave mettant en jeu sa survie (accident, maladie grave, catastrophe naturelle ou agression mais également lésion cérébrale et ses conséquences en cascade) parviendrait non seulement à dépasser la crise entraînée par le trauma, mais également à en tirer des changements intérieurs majeurs et positifs. Ceci l'amènerait alors à dépasser son niveau de fonctionnement psychologique pré-traumatique[85]. La confrontation à une expérience traumatique permettrait une croissance personnelle par un processus adaptatif continu de réévaluation et de redéfinition des systèmes de croyances et des valeurs individuelles. [85]

La résilience, quant à elle, est définie comme la capacité de maintenir un « niveau de fonctionnement physique et psychologique relativement stable face aux pertes ou aux événements menaçants qui surviennent au cours de la vie »[86] La résilience serait donc le fait, après un événement douloureux, de revenir psychologiquement au même niveau qu'avant l'événement. La différence avec la CPT serait que celle-ci permet de dépasser le niveau de fonctionnement psychologique précédant le traumatisme, donc il s'agirait non seulement de la capacité à résister à des événements négatifs pour le psychisme, mais également de faire l'expérience d'un niveau plus élevé d'adaptations et de transformations positives[84]. Les individus résilients, eux, possédant déjà les capacités nécessaires pour faire face à l'adversité, seraient donc moins enclins à une CPT [87] d'après certaines études, bien qu'il puisse s'agir de nuances de terminologie entre CPT et résilience. D'autres définissent en effet la résilience de façon beaucoup plus large comme la capacité d'un système d'un individu ou d'une communauté, d'une organisation ou d'un système naturel à se préparer à des perturbations brusques, à récupérer des chocs et de stress intenses et à s'adapter et se développer à partir d'une expérience perturbatrice[88,89]. La résilience personnelle serait alors « la capacité à traverser des chocs émotionnels, des épreuves et traumatismes et à en sortir, non pas comme des victimes en puissance ou des survivants endurcis, mais comme des vivants avec une profondeur et une richesse humaine plus grande » [89], ce qui rapproche la résilience de la CPT.

La CPT aurait plusieurs dimensions :

- l'appréciation de la vie, soit le fait d'apprécier chaque jour, et plus amplement la vie, de se sentir chanceux d'être en vie.
- les relations aux autres, qui deviennent plus riches, plus intimes, plus appréciées, plus investies.
- le développement d'une force personnelle, soit le sentiment de se sentir plus fort après l'épreuve, plus apte à gérer les difficultés, plus confiant en ses propres ressources adaptatives.
- les nouvelles possibilités, soit les actions et comportements dont l'avènement a été créé ou catalysé par la situation de crise vécue.

-le développement d'une certaine spiritualité.

-plus de patience, d'acceptation, ou davantage d'aide aux autres (ce dernier n'étant pas testé par l'inventaire de croissance post-traumatique habituellement utilisé [90])

Après un TC léger, Sekely et Zakzanis[91], retrouvaient que 31% de l'échantillon présentait des niveaux modérés de CPT mesuré par échelle de croissance post traumatique, notamment en lien avec l'appréciation de la vie, les relations avec les autres, et la force personnelle.

Powell et al. [92] qui ont exploré la croissance post traumatique longtemps après un traumatisme crânien sévère, retrouvaient que la CPT était associée notamment à un sentiment de sens personnel (but et cohérence), de satisfaction de vie élevée, de soutien social, de nouvelles relations stables après TC, et le fait d'avoir une spiritualité. Le fait d'avoir un niveau élevé de "but" était le meilleur prédicteur de la CPT. Il n'y avait aucun changement dans la CPT entre 11 et 13 ans après TC, ce qui suggère que la CPT est un phénomène relativement stable une fois établi après les premières années. Powell suggérerait que les cliniciens doivent être conscients de la CPT et de la façon dont elle est associée à des facteurs tels que le "sens" et le "but", ainsi que l'évolution vers des valeurs spirituelles, et concluait que les cliniciens devraient concentrer leurs conseils, ressources et efforts pour soutenir ces développements. Il est à noter que dans la littérature, le concept de spiritualité renvoie « à la fois à un état et à des sentiments positifs, à des comportements et à des cognitions, à des rapports avec soi et avec les autres, à une dimension transcendante, qui donnent en retour à l'individu une notion d'identité, d'intégrité, de satisfaction, de beauté, d'amour, de respect, d'attitudes positives, de paix intérieur et d'harmonie, un but ou une direction dans la vie. » [93] mais aussi à « la quête de sens et la recherche de relations satisfaisantes entre les êtres humains, l'environnement non humain et, pour certains, Dieu » [94]. Elle est à bien différencier de la religion ou de pratiques ésotériques. La spiritualité et la croissance post traumatique sont de plus en plus évaluées dans les suivis des patients avec lésion cérébrale, du fait de leur corrélation avec la résilience : la revue de littérature de Jones et al. [95] a révélé que la spiritualité était étroitement liée à des évolutions favorables après TC, y compris l'adaptation psychologique, la santé physique et la santé mentale, la productivité, la satisfaction dans la vie, l'indépendance fonctionnelle et la croissance post-traumatique. Dans les études qualitatives, la spiritualité est identifiée par les patients cérébrolésés comme un composant majeur de reconstruction identitaire[96], de CPT[97] et un facteur protecteur de détresse suicidaire[24]. Un nombre croissant de modèles insistent sur ces dimensions (ex « TBI resiliency model »[98]). A la lumière de la littérature sur le croissance post-traumatique, il semblerait que « la spiritualité des patients est une ressource sous-estimée, dont le personnel peut s'inspirer pour soutenir et améliorer le processus de réhabilitation »[99]. **Un axe important de recherche futur sera probablement de prendre en compte cette spiritualité dans l'accompagnement de la croissance post traumatique, et d'en mesurer les bénéfices sur la construction d'un projet de vie. La difficulté est de trouver des interventions, non seulement efficaces mais pertinentes et respectueuses du chemin et de la culture de chacun. Les difficultés réglementaires de réaliser ce type de recherche dans une culture française semblent être un frein majeur.**

Dans la TCD, des modules comme celui sur le pardon (le pardon étant présenté comme une capacité cognitive de lâcher prise, indépendante de toute référence à un cadre religieux, cf. annexe 3), sont un bon exemple d'accompagnement de la croissance post-traumatique, dont l'efficacité serait à

tester dans les recherches futures, en particulier pour les patients vivant enfermés dans la rancune vis-à-vis de la personne qui a provoqué leur handicap (ex : accidents de voiture). Les bienfaits psychiques[100,101] et physiques [101]du pardon sont déjà bien documentés dans la littérature[102–104], et leur substrat neuroanatomiques commencent à être connus[105,106] hors LCA. Ce type d'approche mériterait d'être plus exploré en recherche chez les patients avec traumatisme crânien, en particulier dans le cadre de la TCD et de ses modules « radicalement ouvert » de Lynch et al. [38,107], ciblant la rigidité mentale.

Une question essentielle concernant la croissance CPT telle qu'explorée par les questionnaires, est de savoir si elle représente une croissance réelle ou une illusion protectrice, dite d'auto-préservation[108] (*je me raccroche au fait que la lésion cérébrale m'a fait grandir pour me raccrocher à quelque chose*). Cette question a été peu étudiée, alors qu'elle remet potentiellement en cause l'existence, les facteurs prédictifs et les conséquences de la CPT. Gangstad et al.[109] ont exploré les mécanismes maladaptatifs, tels que le déni et la comparaison (*je me compare à Monsieur X qui a moins bien récupéré pour voir la valeur de ma propre position*), et avaient montré qu'ils étaient associés à la CPT, et même que le déni prédisait la CPT ! Cependant, l'étude avait été réalisée très tôt après la lésion cérébrale (32 mois). Ils montraient aussi que l'utilisation de comparaisons diminuait avec le nombre d'années écoulées depuis la lésion cérébrale. La CPT telle que rapportée pourrait être une stratégie de coping palliatif initialement, dont le mécanisme serait basé sur une « illusion de CPT », mais qui permettrait ensuite d'entrer dans une CPT réelle.

Il est fondamental de noter l'importance du soutien social reçu, dont le rôle est de favoriser la remise en question du soi[85]. Le soutien social reçu permet en effet une réduction de la détresse émotionnelle ressentie après l'événement traumatique et le passage de pensées intrusives à des pensées volontaires sur le sens de l'expérience. Il est donc important que l'individu puisse faire le récit de ce qu'il a vécu à des personnes bienveillantes. Les prises en charge psychologiques, souvent longues, proposées dans le service EMOI TC répondent probablement à ce critère. Le concept de CPT est particulièrement utile dans les prises en charge médico-sociales où il est souvent difficile d'évaluer l'efficacité des soutiens psychologiques : souvent l'effet sur la thymie (principale indication d'adressage) est faible ou fluctuant. La notion de croissance post traumatique permet alors de mieux exploiter l'importance fondamentale de ces long entretiens répétées, dans lesquelles les thérapeutes ont parfois l'impression que le patient « stagne », alors qu'une croissance post traumatique se met possiblement en place.

« Une meilleure compréhension du développement de la croissance post traumatique dans les suites d'une lésion cérébrale acquise pourrait aider les cliniciens en réadaptation à promouvoir une meilleure adaptation en se concentrant sur le potentiel de changement positif des [clients] et le renforcement de leur capacité de croissance. »[65]

Au total, le concept de croissance post traumatique mériterait d'être davantage connu et exploité en MPR, étant donné le traumatisme que représente une perte de fonction (cognitive en particulier). Les recherches futures (chapitre IV) visent donc à utiliser les mesures de croissance post-traumatique comme critère de jugement, afin d'évaluer sa pertinence par rapport à d'autres CJ plus classiques tels les mesures de participation et de qualité de vie.

7. ACCOMPAGNER LES PROCHES ET FAMILLES

Si la dysrégulation émotionnelle est source de souffrance pour le patient, elle l'est aussi, et parfois même plus (en cas de faible conscience de ses troubles), pour sa famille. Les troubles cognitifs et les troubles du comportement (TdC) sont une source importante de fardeau et d'épuisement de l'entourage proche de patients cérébro-lésés [110]. La souffrance de l'entourage peut à son tour aggraver la dysrégulation émotionnelle du patient, par des réponses invalidantes aux TdC ou à la communication dysrégulée du patient, surtout en cas d'épuisement des aidants ou de faibles capacités de régulation émotionnelle de l'aidant lui-même.

Il est donc impossible d'aborder la construction du projet de vie et la reconstruction identitaire après lésion cérébrale sans s'intéresser aux proches (famille/conjoint) de la personne.

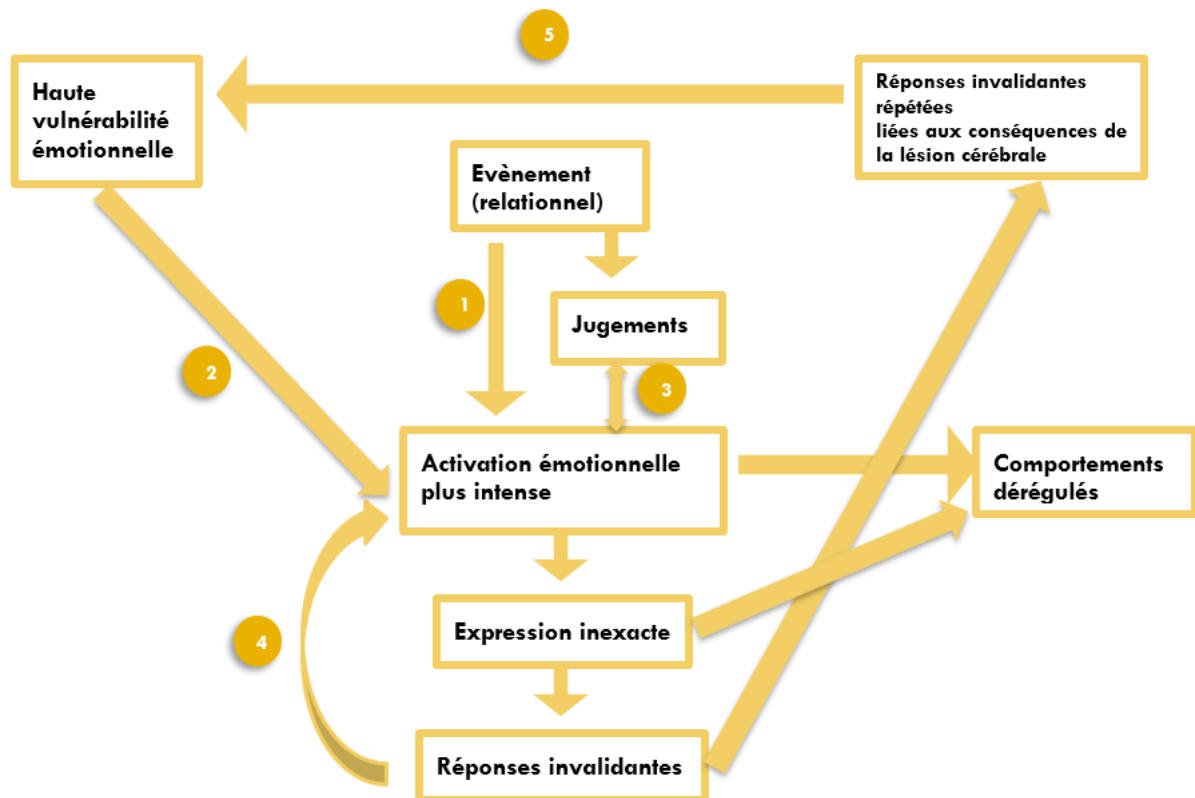
Les interventions visant à aider les aidants sont indispensables, mais leur efficacité est mitigée[111,112], et leurs objectifs parfois flous. Beaucoup se concentrent de façon pragmatique sur l'éducation aux conséquences des lésions cérébrales ou la résolution concrète de problèmes, mais peu sur le vécu émotionnel des aidants qui est plutôt abordé dans des groupes de paroles. Dans les groupes de paroles, les familles peuvent exprimer leur souffrance et bénéficier du soutien et des conseils de pairs, mais, en général, ces groupes de paroles ne sont pas orientés vers des compétences de régulation émotionnelle validées dans la littérature.

Les difficultés familiales peuvent se majorer en cas de polarisation des membres de la famille[113,114] (en particulier de 2 parents d'un adulte avec lésion cérébrale). Repérer ces polarisation permet un rééquilibrage dialectique.



Les émotions de culpabilité (ex : prendre du temps pour soi, dire non) sont particulièrement difficiles à repérer et à réguler par les familles, participant à un épuisement des aidants[110]. La souffrance de l'entourage peut à son tour aggraver la dysrégulation émotionnelle de leur proche (modèle transactionnel [115], cf. figure ci-dessous) par des réponses invalidantes ou une communication dysrégulée, surtout en cas de faibles capacités de régulation émotionnelle de l'aidant lui-même...

MODÈLE TRANSACTIONNEL DE LA DÉRÉGULATION ÉMOTIONNELLE



Un exemple simple du modèle transactionnel est l'influence majeure de la validation (ex : valider l'émotion de l'autre, même si son comportement, lui, n'est pas valide) versus invalidation (ex : donner un conseil de manière autoritaire) sur le niveau de détresse émotionnelle et de stress[116].

Ainsi le programme GREMO-famille que nous développons dans le service a un focus important sur l'apprentissage des différentes validations utiles (cf. page ci-dessous, tirée du livret GREMO-famille, réalisé en 2021 par Claire Iftissen--Husser, étudiante en M2 psychologie TCC)

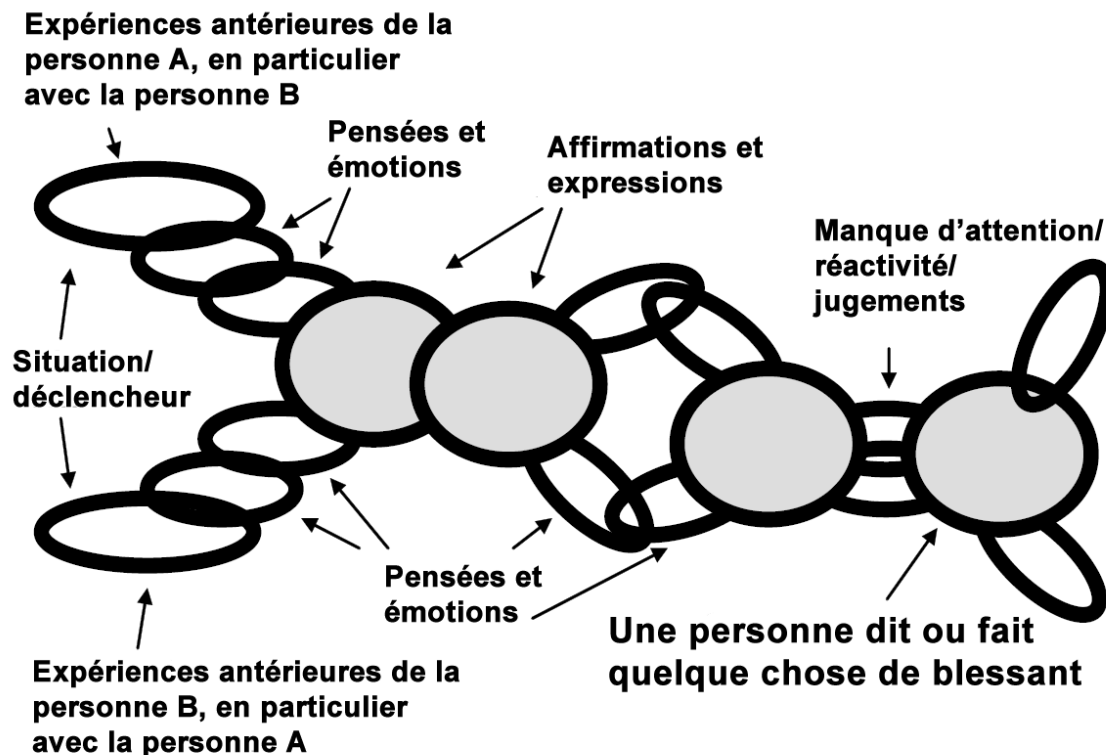
LES NIVEAUX DE VALIDATION

Quelle que soit la manière, vous pouvez :

Chercher à comprendre et communiquer ce que vous avez compris.

- I. **Prêter attention** : Ecoutez, observez et montrez-vous intéressé sur le plan verbal et non-verbal.
Exemple : établissez un contact visuel ; acquiescez de temps en temps ; souriez aux propos amusants ; ayez l'air concerné face à des propos douloureux...
- II. **Reformuler** : Reformulez ce que l'autre vous dit afin d'être certain que vous comprenez réellement ce qu'il dit. Pas de jugement ! Utilisez un ton permettant à l'autre de vous corriger !
Exemple : « Donc je t'entends dire que tu es fâché contre moi parce que tu penses que je t'ai menti, c'est cela ? »
- III. **Nommer le non-dit** : Faites attention aux expressions faciales, au langage corporel et au comportement de l'autre pour deviner ce qu'il pourrait ressentir et le nommer. Montrez que vous comprenez à travers vos paroles ou vos actions. Soyez ouvert aux corrections.
Exemples : « Tu as l'air vraiment fatigué. Je vais demander à quelqu'un d'autre. » « Ses propos ont l'air de t'avoir blessé, tu as l'air vraiment triste. »
- IV. **Comprendre à la lumière de l'histoire de la personne** : Examinez comment la personne se sent ou pense et comment cela fait sens compte tenu de son histoire/ses expériences passées/particularités biologiques.
Exemple : « Cela fait sens que tu craignes de le revoir, compte tenu des souvenirs négatifs que tu as avec lui » ; « Je comprends que tu penses qu'il veuille te faire du mal, compte tenu de ce que tu as vécu avec ton précédent compagnon »
- V. **Comprendre à la lumière de ce qui est vrai pour la plupart des personnes** : Montrez que vous considérez les pensées, sentiments ou actions de la personne comme valides, normaux et ayant du sens compte tenu des circonstances.
Exemple : « Bien sûr, tu es inquiet à propos de l'entretien d'embauche, tout le monde se sent anxieux lorsqu'il fait quelque chose d'aussi important. »
- VI. **Se montrer radicalement authentique et juste** : Traitez l'autre comme un égal, ni fragile, ni incompetent. En le traitant ainsi, vous exprimez à la fois votre soutien et votre conviction qu'il a la capacité de résoudre ses propres problèmes.
Exemples : Soyez prêt à admettre vos erreurs. Si une personne se présente en donnant son prénom, faites de même. Permettez-vous de demander aux autres leurs opinions. Soyez prudent en donnant des conseils ou en disant quoi faire à une personne quand elle ne vous l'a pas demandé ou que vous n'êtes pas censé le faire.

Enfin, l'outil issu de la thérapie comportementale dialectique dit d'« **analyse en chaîne** »[113,117], est utilisé en séances individuelles face aux comportements les plus problématiques. L'idée est d'arriver à casser cette chaîne à un des endroits, pour éviter la survenue du trouble de comportement. Utilisée au départ avec les pensées, comportements, émotions du patient, la double analyse en chaîne peut intégrer les pensées, comportements, et émotions du proche.



Un de nos axes de recherche à EMOI TC est l'évaluation de l'efficacité de ces approches pour les proches de personnes ayant une lésion cérébrale, basée sur la thérapie comportementale dialectique et le modèle transactionnel. C'est ainsi que l'étude GREMO-Famille a débuté en septembre 2021 et pourrait être poursuivie dans le cadre du projet transdisciplinaire LA-REPT (cf. section IV).

Groupe pilote GREMO famille :

En 2021, 5 séances hebdomadaires de groupe de 3h en présentiel, accompagnées de révisions sur youtube, de pratiques à domicile et d'échanges en groupe ont été réalisées. A partir de mars 2022, le même groupe réalisera la suite du programme au rythme (choisi par le groupe) d'une séance par mois.

Ce premier groupe comprenait :

- 4 épouses de patients avec LCA (TC sévères, rupture d'anévrisme)
- 1 maman d'un patient ayant eu un TC sévère sur un trouble de personnalité préexistant
- 2 parents d'un adulte d'un patient avec TC sévère de l'enfance

Le premier groupe rapporte un satisfaction élevée du programme. Qualitativement, les thèmes suivants étaient rapportés par les participants :

- **soutien** (moins de sentiment de solitude face à leurs problématiques communes)
- **compréhension** de la part d'autres personnes,
- **dynamique de groupe, normalisation** de ce qu'ils vivent,
- **reconnaissance de leur difficulté** due à la LCA de leur proche,
- **amélioration de leur relation** avec leur proche par une **meilleure communication**,
- **diminution des tensions** dans leur environnement familial,
- **meilleure compréhension de la dynamique** en jeu et de leur **moyen d'agir efficacement** dans leur quotidien (notamment dans la **gestion de conflits**),
- meilleure **acceptation de leur réalité**.

Bienvenue à GREMO-Famille !



= Documents avec les éléments théoriques



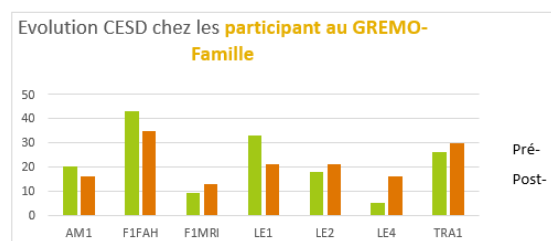
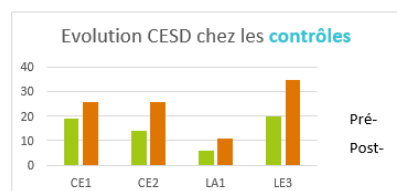
= Fiches de pratique à domicile

SOMMAIRE

GÉNÉRALITÉS	3
1) LA LÉSION CÉRÉBRALE	10
2) PLEINE CONSCIENCE : l'esprit éclairé, « quoi », « comment », l'esprit ouvert, la pleine conscience des autres	14
3) CRÉER UN ENVIRONNEMENT FAMILIAL AIDANT : l'attention relationnelle, le modèle transactionnel, la validation, la dialectique	46
4) COMMUNICATION DANS LA FAMILLE : DEAR MAN, AVEC, VRAI et PERCÉE	68
5) COMPÉTENCES COMPLÉMENTAIRES : l'acceptation radicale et le pardon	84

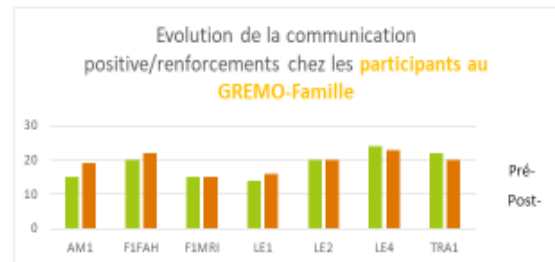
La comparaison de l'évolution de symptômes dépressifs (entre l'été 2021 et décembre 2021) de ce groupe, comparé à des proches suivis par EMOI TC mais n'ayant pas bénéficié du groupe semble suggérer un effet, mais avec un échantillon trop petit sur cette étude pilote pour tirer des conclusions d'efficacité (extrait du rapport de stage recherche de Claire Iftissen, étudiante en M2 psychologie TCC).

CES-D : Questionnaire de la détresse psychique



FCQ : Questionnaire de coping familial

Communication positive /renforcements



Suite de la recherche :

La difficulté majeure réside dans les emplois du temps chargés des aidants (personnes en activité professionnelle et déjà surchargées par leur proche ayant une lésion cérébrale). Un nouveau groupe est prévu en soirée en visio, permettant de rejoindre cette population.

Une série de SCED réalisés à l'échelle de couple est prévue afin de démontrer l'efficacité d'un entraînement à la validation.

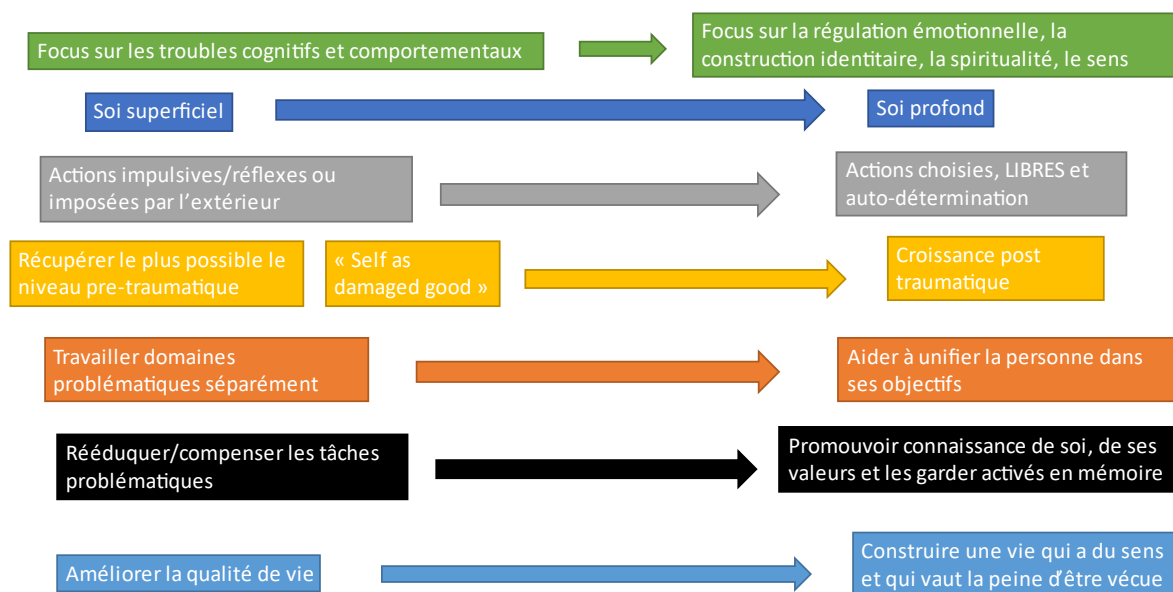
8. CONCLUSION SUR L'ACCOMPAGNEMENT DE LA CONSTRUCTION D'UN PROJET DE VIE EN MEDICO-SOCIAL

Au total, la construction d'un projet de vie après lésion cérébrale ne peut se faire que :

- dans le temps, donc accompagné par des dispositifs médico-sociaux comme EMOI TC ou les SAMSAH, et non sur les PEC habituelles d'un an maximum en HDJ neurologique immédiatement après la lésion.
- de manière multidisciplinaire avec une nécessité de meilleure cohérence entre le contenu des PEC psychologiques et des PEC rééducatives (de remédiation cognitive notamment).
- en faisant de la régulation émotionnelle un préalable à toutes les autres PEC.
- en intégrant les valeurs du patient, en favorisant l'émergence d'un (nouveau) sens de sa vie.
- en soutenant la mémoire autobiographique, la construction de sens et la reconstruction identitaire.
- en favorisant l'auto-détermination et le libre arbitre.
- en travaillant en partenariat étroit avec les proches.



Possibles pistes d'axes à prioriser dans l'accompagnement des personnes après lésion cérébrale



C'est à partir de ces axes identifiés comme indispensables que le projet transdisciplinaire LA-REPT (cf. chapitre suivant) a été élaboré.

IV) PROJET TRANSDISCIPLINAIRE « LIBRE ARBITRE ET REGULATION EMOTIONNELLE POUR TOUS » (LA REPT)

Étude participative explorant les bénéfices d'une intervention de régulation émotionnelle pour les personnes accompagnées en structure médico-sociale après lésion cérébrale, leurs proches, familles et aidants, pour diminuer la détresse des aidants, promouvoir le libre arbitre et l'auto-détermination des personnes accompagnées et améliorer le coping et le fonctionnement familial

Un projet porté par EMOI TC, IURC, UGECAM Alsace.

Dont une partie (GREMO patient) est déjà financée par la DGOS APJ GIRCI EST et l'UGECAM Alsace (doctorat de Marie Kuppelin) et en cours de demandes de financement pour la partie GREMO-famille

En collaboration avec :

AFTC : Association des familles de traumatisés crâniens et cérébrolésés d'Alsace

HUS : Hôpitaux Universitaires de Strasbourg, Pôle de psychiatrie pour adulte – Psychiatrie 2

INSERM 114 : Neuropsychologie Cognitive Et Physiopathologie De La Schizophrénie, Strasbourg

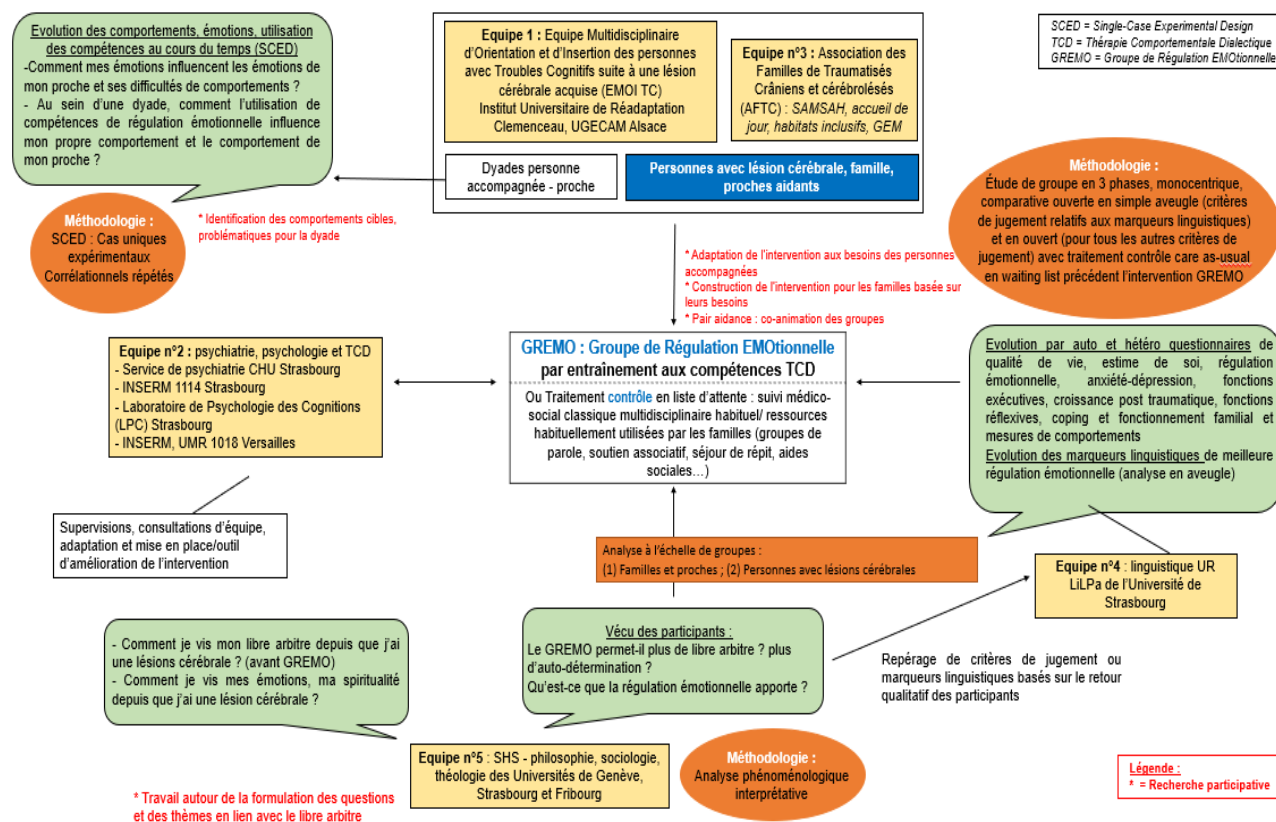
LPC : Laboratoire de Psychologie des Cognitions de Strasbourg

INSERM «Psychiatrie du Développement», CESP (Centre de recherche en Épidémiologie et Santé des Populations) de Versailles

UR LILPA : Unité de recherche de Linguistique, Langues, Parole de Strasbourg

Et les départements de Philosophie et Théologie des Universités de Genève, Fribourg et Strasbourg

NB : Le projet a été élaboré en 2021 pour répondre à l'appel à projet participatifs IRESP-ESTOMS (ÉTABLISSEMENTS, SERVICES ET TRANSFORMATION DE L'OFFRE MÉDICO-SOCIALE) et utilise le vocabulaire propre du médico-social.



PILOTÉ par l'équipe 1 : EMOI-TC (*Équipe Multidisciplinaire d'Orientation et d'Insertion de personnes avec Troubles Cognitifs suite à une lésion cérébrale acquise*) - dispositif médico-social, inclusif et à la carte qui vise à éviter la désinsertion due aux troubles cognitifs et comportementaux après lésion cérébrale acquise, aider à la construction d'un projet de vie malgré les troubles cognitifs, soutenir les familles vivant avec une personne ayant des troubles cognitifs.

Agata Krasny-Pacini, MCU-PH, médecin de Médecine Physique et de Réadaptation; Maud Elbel, médecin de Médecine Physique et de Réadaptation; Guillaume Behr, médecin psychiatre; Régine Choisel, psychologue; Mathilde Laugel, neuropsychologue; Laure Di Bitonto, neuropsychologue; Sabrina Rubio, assistante sociale; Catherine Knurek, secrétaire; Marie Kuppelin, psychologue et **doctorante en psychologue financée par l'UGECAM Alsace**; Usagers et Familles de personnes suivies à EMOI TC; Marie-Eve Isner-Horobeti, PU-PH, médecin de Médecine Physique et de Réadaptation.

EN COLLABORATION AVEC :

Équipe 2 : Psychiatrie, psychologie et thérapie comportementale dialectique (TCD) - équipe composée de cliniciens et chercheurs spécialisés dans les interventions de régulation émotionnelle par TCD transnosographique pour les patients et les familles.

Sébastien Weibel, PH, médecin psychiatre, service de psychiatrie CHU Strasbourg et INSERM 1114 Strasbourg ; Luisa Weiner, MCU, psychologue, service de psychiatrie CHU Strasbourg et Laboratoire de Psychologie des Cognitions de l'Université de Strasbourg ; Mario Speranza, PU-PH, médecin psychiatre, Service Universitaire de Psychiatrie de l'Enfant et Adolescent CH Versailles et INSERM UMR 1018 Versailles; Amaury Durpoix, interne en psychiatrie, service de psychiatrie CHU Strasbourg ; Psychologues et thérapeutes TCD du CHU Strasbourg.

Équipe 3 : AFTC d'Alsace (Association des Familles de Traumatisés Crâniens et cérébrolésés d'Alsace) – association qui défend et représente les activités des personnes cérébrolésées et développe de nouvelles initiatives en faveur des jeunes traumatisés crâniens.

Thérèse Lodel, directrice médico-social; Théo Pruneau, psychologue et chef de service SAMSAH; Marie-Christine Meloni, référent habitat; Pascal Gerzaguët, président de l'AFTC; Familles de l'association et usagers des structures de l'AFTC .

Équipe 4 : Linguistique UR LiPa 1339 de l'Université de Strasbourg – équipe de recherche de marqueurs linguistiques émotionnels dans les lésions cérébrales acquises comme critère de jugement.

Hélène Vassiliadou, maître de conférence; Céline Benninger, maître de conférence; Marie Lammert, maître de conférence; Francine Gerhard-Krait, maître de conférence; Camille Fauth, maître de conférence; Catherine Schnedecker, professeure des Universités; Amalia Todirascu, professeure des Universités; Pauline Kempf, étudiante en orthophonie; Lucie Fillot, étudiante en orthophonie; Anaëlle Mannella, étudiante en orthophonie; Valentine Blanchet-Jacquot, étudiante en orthophonie; Clarisse Martin, étudiante en orthophonie; Thalassio Briand, étudiant en sciences du langage; Salomé Klein, étudiante en sciences du langage et traitement automatique des langues; Agathe Galliot, étudiante en sciences du langage; Laurianne Gully, étudiante en sciences du langage; Joé Laroche, étudiant en sciences du langage et traitement automatique des langues.

Équipe 5 : SHS (Sciences Humaines et Sociales) - Philosophie, sociologie et théologie des Universités de Genève, Strasbourg et Fribourg – équipe fournissant un travail de recherches spécifiques à leurs disciplines sur le libre arbitre et son lien avec la régulation émotionnelle, la spiritualité, le sens de la vie et la liberté.

Florian Cova, professeur assistant au département de philosophie de l'Université de Genève; Thibault Joubert, maître de conférence à la faculté de théologie de l'Université de Strasbourg; Anne-Catherine Baudoin, maître d'enseignement et de recherche à la faculté de théologie de l'Université de Genève; Jacques-Benoit Rauscher, assistant docteur en théologie à l'Université de Fribourg; Jonathan Lachal, MCU-PH, MD, PhD, service de psychiatrie de l'Enfant et de l'Adolescent, CHU Clermont-Ferrand; Stéphanie Dupouy, maître de conférence à la faculté de philosophie de l'Université de Strasbourg; Thibaut Goetsch, interne en santé publique à la Faculté de médecine de Strasbourg; Céline Roy, étudiante en orthophonie à l'Université de Strasbourg; Ambre Leclerc, étudiante en orthophonie à l'Université de Strasbourg; Theo Declara, étudiant en philosophie à l'Université de Strasbourg.

1. ORIGINE ET CONSTRUCTION PARTICIPATIVE DU PROJET

Suite à la présentation des résultats de faisabilité d'une intervention de régulation émotionnelle, l'AFTC a émis un souhait fort de tester cette approche chez eux, avec les familles et les

professionnels, percevant les difficultés émotionnelles au sein des habitats partagés, des familles, des équipes et des accueils de jour, comme l'une des problématiques les plus importantes. La question de travailler sur le libre arbitre a quant à elle émergé des entretiens avec les familles, les personnes avec LCA et les équipes souhaitant nous adresser des patients (notamment des patients incarcérés, en difficulté sociale). L'équipe est souvent confrontée au refus de suivi de la part des personnes, alors même que leurs familles, ou les acteurs sociaux ou judiciaires voient l'ampleur avec laquelle leurs troubles cognitifs et comportementaux restreignent leur capacité à fonctionner en société et à construire leur vie. Cette constatation et le désarroi des familles dont l'être cher refuse les soins (et en particulier si l'ampleur des troubles ne justifie pas une tutelle : cas de figure assez fréquent où l'intelligence est peu touchée alors que les troubles émotionnels et comportementaux sont importants) nous a amenés à guider nos projets par :

- l'importance de proposer un suivi aux familles en souffrance, sans obliger leur proche à être suivi. Ce projet testera donc la faisabilité d'un suivi de familles seules (et non plus uniquement via la personne porteuse de handicap accompagnée), pour les aider à réguler leurs émotions dans ces contextes complexes.

- l'importance de mieux comprendre pourquoi certaines personnes s'engagent dans un accompagnement, une construction de nouveau projet de vie, alors que d'autres restent coincées dans des vies compliquées (prison, addiction, désinsertion, absence de liens sociaux) en refusant les aides proposées, qu'elles soient sociale, psychologique, médicale ou neuropsychologique. C'est ainsi qu'a émergé la question du libre arbitre après lésion cérébrale.

- enfin, même si une personne s'engage activement dans la construction de son projet de vie, nous constatons que le succès des accompagnements semble médié par les réactions émotionnelles et la capacité à réguler ses émotions pour s'engager (ou non) dans les aides, rééducations et compensations proposées. L'équipe manquait d'outils face à la dysrégulation émotionnelle et aux difficultés de comportements : c'est ainsi qu'est née, en 2019, la collaboration avec l'équipe de thérapie comportementale dialectique (TCD) de psychiatrie du CHU de Strasbourg, avec des résultats très prometteurs pour les 14 personnes accompagnées par EMOI TC qui ont pu bénéficier de cette approche[118,119]. La TCD semble être cet élément qui manquait pour permettre aux personnes accompagnées de choisir d'investir les outils/solutions proposées et les aider à s'auto-déterminer dans ce qu'elles souhaitent vraiment.

2 exemples d'accompagnement de jeunes patients (Pierre, 28 ans victime d'un AVC et Jonathan 32 ans, victime de traumatisme crânien sur accident de voiture), aux profils similaires : difficultés cognitives objectives (mnésiques, attentionnelles, exécutives et de cognition sociale) mais modérées, avec comportements impulsifs, agressivité lors de détresse émotionnelle ; abus d'alcool, problèmes avec la justice du fait des troubles du comportement, avec incarcérations, et qui ont dû retourner vivre chez leurs parents depuis la lésion cérébrale.

Pierre, identifie clairement le fait **d'habiter chez ses parents (« c'est pire que la prison »)** comme responsable de **cette vie « si pourrie que je bois un litre de rhum 2x par semaine, comme ça au moins ces 2 soirs là j'oublie »**. Accompagné par EMOI TC (à chaque fois que non incarcéré), une solution naturelle a donc été de (1) lui proposer de l'accompagner vers un logement autonome, qui est refusé par Pierre. **« Non moi un logement comme ça, ça ne me va pas, il me faut une grande maison avec un terrain de 15 ares au moins »**. Puis (2) de travailler sur son abus d'alcool, en lien avec l'addictologie **« Non le jour où je voudrai arrêter de boire, je le ferai moi-même, pas besoin d'aide, et puis les boîtes pharmaceutiques c'est des pourris, je préfère boire du rhum que prendre des médicaments »**. Puis (3) de travailler sa flexibilité mentale, identifiée comme endommagée par la lésion cérébrale **« Mais moi j'ai pas envie d'apprendre à m'adapter, c'est pas de ma faute si cet AVC a ruiné ma vie, c'est pas à moi de m'adapter »**. Enfin (4) de travailler la régulation des émotions : actuellement l'accompagnement vise à promouvoir son engagement dans cette approche (difficile pour le moment).

Jonathan, quant à lui, malgré des *clashes* réguliers avec ses parents et avec l'équipe EMOI TC lors de l'accompagnement, a pu participer au groupe de régulation émotionnelle. Malgré plusieurs « décrochages » et difficultés de comportement dans le groupe, il a investi les compétences qui lui ont permis de se réinsérer et de travailler actuellement en milieu ordinaire.

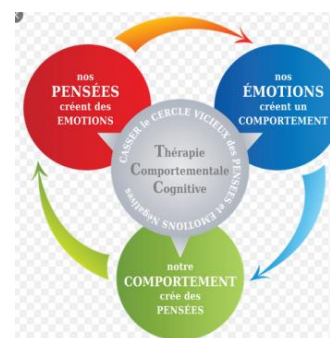
« Bon... c'est un évènement parmi tant d'autres. J'ai encore perdu cette carte bancaire. Et moi je sais qu'avant ... parce que je la perdais régulièrement ces dernières années ... A chaque fois ça me foutait mal quoi ...Ça me foutait vraiment ... J'étais complètement paniqué ... Je savais plus quoi faire ... Et ça me faisait péter des plombs ... Parce que je m'en voulais de perdre, d'avoir perdu cette carte parce que je me suis fait renverser. Maintenant grâce à cette acceptation radicale (une des compétences de tolérance à la détresse) je sais que la carte est perdue certes. Ça c'est un fait, on pourra pas y revenir. En revanche rien ne m'empêche d'aller voir le banquier, de bloquer ma carte. Tout simplement, ça prend un coup de fil. Et une semaine après j'ai une nouvelle carte bancaire. Acceptation radicale. Résolution du problème (2^{ème} compétence apprise). Parfait. Merci le GREMO (nom du groupe de régulation émotionnelle) »

Qu'est-ce qui fait la différence entre ces deux accompagnements et ces évolutions si différentes ? Pourquoi Jonathan s'est-il engagé dans la régulation émotionnelle et la construction d'un projet de vie et l'utilise au quotidien, et pourquoi Pierre reste-t-il coincé, comme lié/non libre d'aller vers la vie ?

2. CONNAISSANCES SCIENTIFIQUES ACTUELLES

La régulation émotionnelle consiste à savoir identifier ses émotions, accepter leurs présences (indépendamment de leur caractère justifiée ou non) et avoir la capacité de choisir en fonction du contexte et des faits les actions à mener avec cette émotion. La dysrégulation émotionnelle, à l'inverse, est définie comme « l'incapacité, même avec de grands efforts et dans des conditions normales, de modifier ou de réguler les signaux et expériences émotionnelles, ainsi que ses actions, réponses verbales et non verbales » [38]. La dysrégulation émotionnelle est un symptôme fréquent dans les troubles psychiatriques [39], neurodéveloppementaux [40], mais également suite à des lésions cérébrales acquises [41].

La dysrégulation des émotions perturbe tous les aspects des réponses émotionnelles d'un individu : physiologique, cognitif, comportemental et interpersonnel et peut donc se traduire par des troubles du comportement, ayant un impact important sur le bien-être et le fonctionnement social des personnes [68] mais également sur leur entourage, contribuant massivement à l'épuisement des aidants. Les émotions peuvent être modulées par des pensées, schémas cognitifs ou des émotions secondaires (ex : culpabilité qui génère ensuite de la tristesse et de la colère) qui viennent amplifier ou diminuer l'intensité de l'émotion et qui génèrent des comportements inadaptés, source de souffrance pour la personne mais également pour son entourage (ex : ci dessous).



Exemples d'émotions pouvant aboutir à des comportements non adaptés à ses valeurs et objectifs de long terme

	Emotion	Cognition	Comportement
Proches/aidants	Primaire : Culpabilité puis (émotions secondaire) honte, tristesse, colère	« je me suis marié pour le meilleur et pour le pire »	Pas de demande d'aide avant burn-out qui nécessite un répit complet/divorce
Personne avec handicap	Primaire : Colère Secondaire : tristesse	« on m'infantilise, je ne peux rien faire seul »	Repli, absence de prise de position
Professionnel de EMS	Jalousie Colère	« on ne m'écoute jamais, c'est toujours Y qui a le dernier mot en équipe »	Opposition aux décisions d'équipe, attitude non cohérente au sein de l'équipe

Alors que la place des émotions et de la régulation émotionnelle est de plus en plus reconnue et au centre de l'attention (ex : film Vice-Versa, analyse des pratiques centrée sur le vécu émotionnel des équipes...), il n'y pas de cadre reproductible utilisé généralement. Lorsque celui-ci existe, il n'est pas le même, selon si on s'adresse à des sujets sains (on parle alors de développer l'intelligence émotionnelle), ou à des patients (on parle de « traitement » de la dysrégulation émotionnelle). De plus, beaucoup d'approches visent à identifier et exprimer ses émotions (ex : groupes de paroles) mais sans donner ensuite de compétences pour savoir comment vivre ces émotions et quoi en faire.

3. REGULATION EMOTIONNELLE POUR TOUS (REPT)

Le projet LA-REPT se propose d'utiliser ces supports de qualité et les bases scientifiques solides de la TCD pour promouvoir la régulation émotionnelle en médico-social, non seulement pour des personnes accompagnées mais l'ensemble des personnes en interaction avec elles, en particulier les familles. Son but n'est pas uniquement de diminuer les troubles du comportement liés à des émotions mal régulées des personnes accompagnées, mais l'apprentissage de compétences pour soi-même, que l'on soit professionnel, famille, bénévole... puisque nous partageons tous le fait de vivre des émotions et d'avoir (à différents degrés et différents moments) des difficultés à les réguler, et de s'influencer émotionnellement les uns les autres. Le projet vise donc à sortir d'une logique de catégorisation patient avec troubles de régulation émotionnelle versus soignants compétents émotionnellement, vers un modèle/postulat de plus ou moins grande compétence émotionnelle de chacun, indépendamment de la présence d'un handicap.

La particularité de la TCD est sa philosophie incarnée et horizontale : au lieu de se placer en savant paternaliste, le thérapeute se place d'égal à égal, et accepte de partager aussi son propre vécu avec la personne accompagnée. D'ailleurs, les thérapeutes TCD ont pour mission première de d'abord pratiquer eux-mêmes les compétences. C'est donc une forme d'accompagnement à la régulation émotionnelle très inclusive et dont l'intégration de la pair aide est aisée (co-animation avec des personnes ayant bien intégré et pratiquant tous les jours les compétences).

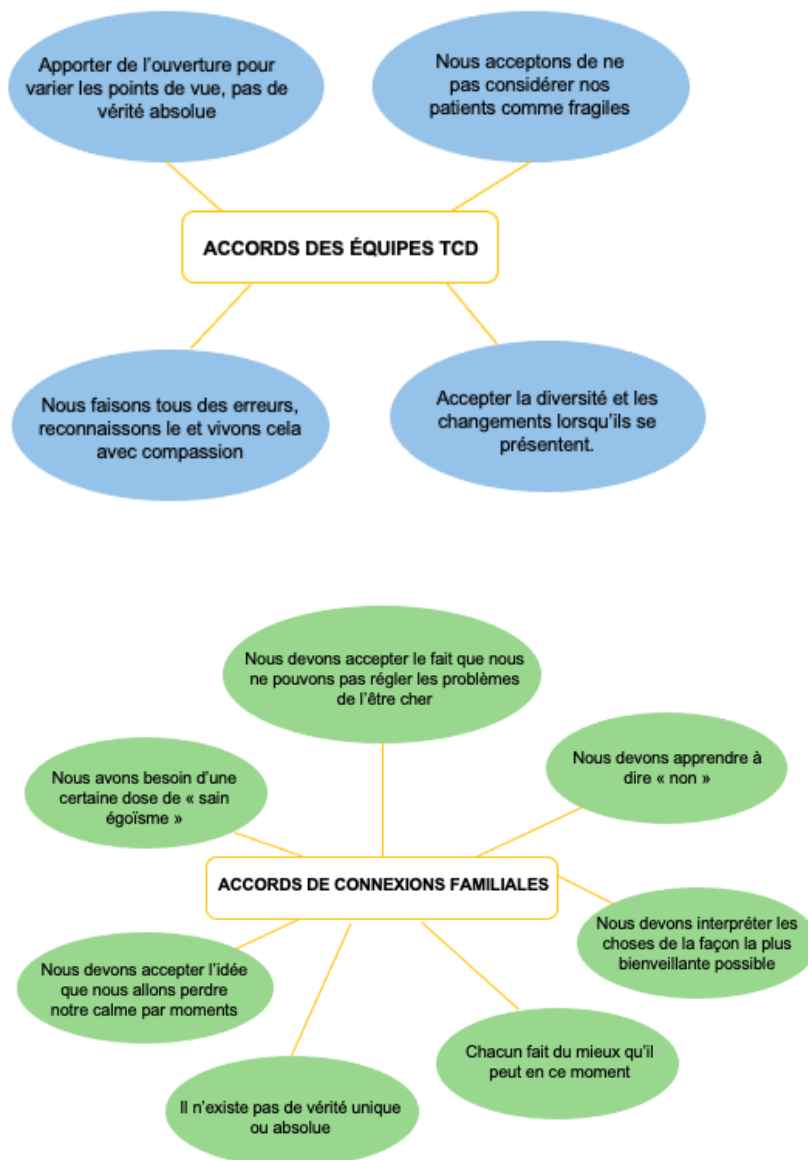
A) LA TCD : UN OUTIL DIALECTIQUE INDISPENSABLE A L'AUTO-DETERMINATION, A METTRE AU CŒUR DU MEDICO-SOCIAL

Alors que tous s'accordent à favoriser l'autodétermination, les moyens d'exercer et favoriser cette autodétermination restent flous. La TCD semble être un outil au service de l'autodétermination. En effet l'autodétermination c'est pouvoir s'exprimer (module TCD d'efficacité interpersonnelle pour formuler une demande, affirmer un refus autrement que par un comportement défensif), pouvoir choisir en fonction de ses valeurs, priorités et objectifs (module TCD « ABC » pour qui permet de réfléchir à ses valeurs et à les transformer en action concrète) en intégrant ses réactions émotionnelles mais sans être déterminé par celles-ci uniquement (module TCD sur la fonction des émotions, agir selon l'émotion ou agir à l'opposé de l'émotion), pouvoir essayer des nouvelles expériences (module TCD flexibilité, être ouvert), pouvoir se tromper et gérer la réaction émotionnelle qui en découle pour soi (module TCD de tolérance à la détresse), pour son entourage mais également la réaction émotionnelle de l'entourage (famille, professionnel) qui ont permis cette autodétermination qui a abouti à un échec/difficulté (ex : culpabilité de l'avoir laissé quitter le domicile familial -incitant également la famille à identifier et réguler ses émotions). Ainsi la régulation émotionnelle semble indispensable tant pour aider les personnes en situation de handicap que pour leur entourage et les professionnels pour favoriser l'autodétermination. Par les compétences, la TCD donne du choix et ainsi plus de contrôle dans sa vie.

La TCD est une approche dialectique, voyant le monde et les interactions non en termes de noir/blanc ou vrai/faux mais comme une synthèse des contraires. **Promouvoir la dialectique dans un environnement médico-social offre un langage et une philosophie plus respectueuse des valeurs de chacun et favorise l'autodétermination.** Dans cette lignée, une manière dialectique de

s'autodéterminer pourrait être vue comme une synthèse : (1) entre décider de façon rationnelle pure versus de façon émotionnelle pure (module TCD pleine conscience) ; (2) entre être naïf (être totalement influencé par les autres, par la situation sans prendre en compte ses expériences passées, ses valeurs) et être fixé (être rigide, accroché aux règles et habitudes fixées sans envisager aucun changement ou autre point de vue) (module TCD « esprit ouvert ») ; (3) entre acceptation de la réalité et motivation au changement : j'accepte radicalement cet instant présent (cette crise, cette vie actuellement si difficile, cette émotion) pour ne pas ajouter de la souffrance liée à la non-acceptation, mais tout en me mettant en mouvement pour acquérir des compétences, pour en sortir, pour m'affirmer dans ce que je veux, me réguler pour atteindre mes objectifs et construire la vie que je souhaite.

Enfin, les postulats de la TCD (accords des thérapeutes TCD, cadre de « connexions familiales – TCD pour les proches) offrent un cadre bienveillant et respectueux, favorisant l'autodétermination de chacun.



B) LA TCD, UN OUTIL FAISABLE DE CHOIX POUR IMPLEMENTER LA REGULATION EMOTIONNELLE

Ainsi la régulation émotionnelle est utile et nécessaire pour tous et la TCD se présente comme un outil de choix pour apprendre des compétences de régulation émotionnelle car : (1) de haut niveau de preuves scientifiques, synthétisant la majorité des autres approches ; (2) ayant montré son efficacité et faisabilité dans un grand nombre d'indications cliniques mais également chez des sujets sains[113] ; (3) dont la faisabilité dans une population de personnes avec LCA a été démontrée au cours d'une étude pilote récente (*in prep*) de notre équipe[118,119] pour les patients avec troubles cognitifs modérés et dont une version simplifiée sera élaborée dans le cadre de ce projet pour les personnes avec troubles plus sévères ; (4) manualisée[22,120], de formation courte[121], avec supports en français, y compris illustrés[23], des rappels enregistrés sur YouTube (chaîne GREMO HUS)[122] ; (5) intégrant déjà la pair-aidance (pour Connexions Familiales)[114] ; (6) avec des postulats favorisant l'autodétermination et la dignité des personnes accompagnées, des familles et des professionnels ; (7) avec des compétences concrètes, à pratiquer écologiquement sur des situations personnelles de la vie de tous les jours ; (8) inclusive, puisque nous partageons tous le fait de vivre des émotions et d'avoir (à différents degrés) des difficultés à les réguler, et de s'influencer les uns les autres émotionnellement dans les interventions dans un modèle transactionnel ; (9) s'appliquant aux individus indépendamment de leur statut de « handicapé » : personnes accompagnées, professionnel médico-social ou proche aidant ; (10) participant à l'« empuissantement » (empowerment) des personnes et des familles en donnant des compétences et non des conseils ou solutions, et les compétences donnant du choix favorisant un environnement de vie capacitant.

4. OBJECTIFS

Objectif principal et critère d'évaluation principal :

Comparer l'évolution de scores **de qualité de vie** (évaluée par questionnaire « Quality Of Life after Brain Injury »)[123] sur une période contrôle de 5 mois sans GREMO (i.e. entre T0 et T1) versus une période de traitement GREMO de 5 mois (i.e. entre T1 et T2) chez les patients présentant une dysrégulation émotionnelle après lésion cérébrale acquise.

Objectifs et critères d'évaluation secondaires :

Comparer l'évolution, sur une période contrôle de 5 mois sans GREMO (i.e. entre T0 et T1) versus une période de traitement GREMO de 5 mois (i.e. entre T1 et T2), des scores de:		
	<u>Objectifs secondaires :</u>	<u>Critères de jugements secondaires</u>
1	Fonctionnement psychique :	
	(a) de dysrégulation émotionnelle	Questionnaire DERS-16
	(b) d'estime de soi	Questionnaire EES-10
	(c) de stress, et symptômes anxieux et dépressifs	Questionnaire DASS-21
	(d) d'adaptation aux conséquences de la lésion cérébrale/ croissance post-	Questionnaire PTGI

	traumatique	
2	Difficultés cognitives et comportementales :	
	(a) de dysfonctionnement exécutif et de l'anosognosie au quotidien	Questionnaires BRIEF-A remplis par le patient et par un proche
	(b) des troubles des comportements	Fiches d'auto-observations remplies par le patient
	(c) de la fonction réflexive	Questionnaire RFQ
3	Vie de famille du patient:	
	(a) de fardeau des aidants	Questionnaire de Zarit, questionnaires DERS 16, SF-36 et DASS-21 de l'aidant
	(b) de fonctionnement familial	Questionnaires GF-FAD (rempli par le patient et par un proche) et FCQ (rempli par un proche)
5	Degré d'atteinte des objectifs (GAS) personnels	Échelle personnalisée Goal Attainment Scaling (GAS)
6	Etudier la persistance de ces effets à 5 mois post thérapie (en comparant l'évolution de scores sur la période de traitement GREMO de 5 mois (i.e. entre T1 et T2) versus la période de maintien de 5 mois (i.e. entre T2 et T3))	Tous les questionnaires et échelles ci-dessus évalués 5 mois après la fin du GREMO (T3)

BRIEF-A : Behavioral Rating Inventory of Executive Function- Adult version

DASS-21 : Depression Anxiety Stress Scale

DERS : Difficulties in Emotions Regulation Scale

EES-10 : Self-Esteem Scale / Echelle d'estime de soi

FCQ : Family Coping Questionnaire / échelle de Coping Familial

GF-FAD : General Functioning-Family Assessment Device

PTGI : Post-traumatic Growth Inventory

RFQ : Reflective Function Questionnaire

Objectifs exploratoires (E)

E1)	Mieux comprendre comment la régulation émotionnelle du patient affecte son entourage familial	Auto-observation pluri-hebdomadaire des émotions du patient et de son proche et de l'utilisation de compétences de régulation émotionnelle, analysé par étude en cas uniques expérimentaux corrélationnels sur les dyades patient proche.
E2)	Relever dans le discours des patients les évolutions (au cours de la période contrôle T0-T1 et au cours de la période du GREMO T1-T2) de l'expression des émotions, et de l'utilisation de compétences TCD et leurs effets sur la relecture de sa vie et la perception de choix (libre arbitre).	Analyse linguistique d'un récit de souvenirs chargés émotionnellement et de situations impliquant le libre arbitre, recueillis par enregistrement audio de <u>patients participant au GREMO</u> , analysé en aveugle par des chercheurs en linguistique entre T0, T1 et T2.
E4)	Explorer l'expérience du libre arbitre des personnes avec dysrégulation émotionnelle après LCA et les modifications de cette expérience après intervention de régulation émotionnelle.	Analyse qualitative par analyse interprétative phénoménologique réalisée par des chercheurs en SHS à partir des enregistrements réalisés pour les marqueurs linguistiques.

5. METHODOLOGIE

- **Etude en 3 phases de durées égales, monocentrique, comparative ouverte** (en simple aveugle pour les critères de jugement relatifs aux marqueurs linguistiques et en ouvert pour tous les autres critères de jugement), avec :
 - traitement contrôle actif multidisciplinaire durant 5 mois (entre T0 et T1)
 - puis intervention GREMO durant 5 mois (qui se déroule de T1 à T2)
 - suivi d'une période de maintien de 5 mois (entre T2 et T3).
- Associé à une méthodologie « **Single Case Experimental Design**»* **individuels** [10,11] **et corrélationnels à l'échelle de dyades patient-proche**[124] - des mesures répétées pluri-hebdomadaires de comportements problématiques seront analysées à l'échelle individuelle par méthodologie SCED afin de prendre en compte la variabilité intra-individuelle (les émotions et les comportements qui en découlent étant par définition fluctuant dans le

temps) et inter-individuelle (réponses probablement hétérogènes selon les patients) et donc évaluer l'efficacité de la TCD à l'échelle individuelle, en plus de la méthodologie de groupe.

- Associé à une **méthodologie qualitative : Interpretative Phenomenological Analysis (IPA)** pour la compréhension du vécu de la dysrégulation émotionnelle et du libre arbitre après lésion cérébrale et après GREMO : **Analyse d'entretiens semi structurés individuels de personnes accompagnées, de leur proches, de professionnels, bénévoles, aidants... par méthode qualitative phénoménologique : l'Interpretative Phenomenological Analysis (IPA)** [125,126], **à partir de guides d'entretiens construits de manière participative.**

L'association d'une méthodologie de **groupe + SCED + qualitative** vise, **dans cette étude exploratoire transdisciplinaire pilote**, à obtenir des connaissances :

- tant sur ce que le GREMO permet d'améliorer, que sur la nature et conséquences de la dysrégulation émotionnelle,
- tant chez les patients avec LCA que chez leurs proches,
- tant à l'échelle individuelle qu'à l'échelle de groupe.

**Le SCED (single-case experimental design) est une méthodologie qui vise à mesurer les effets d'une intervention à l'échelle d'un individu, en utilisant des mesures répétées[10,11], afin de comparer le patient à lui-même au lieu de raisonner à l'échelle de groupe. En effet dans les méthodologies de groupe, même si une intervention A est > B, dans le groupe A il y a des répondeurs, non répondeurs voire des personnes aggravées par l'intervention mais la moyenne masque cet variabilité inter-individuelle. De plus les émotions étant par définition très fluctuantes au cours du temps, le SCED permet également de prendre en compte la variabilité intra-individuelle. Enfin, une analyse en SCED corrélationnel (voir ex) permettra de comparer l'évolution des comportements problématiques et des émotions entre la personne accompagnée et son proche, en fonction de l'utilisation des compétences. Cette évaluation est naturelle à mettre en place car l'un des outils TCD est justement d'observer quotidiennement (de notre expérience : faisable plutôt de façon pluri hebdomadaire) ses émotions, comportements cibles et l'utilisation de compétences de régulation émotionnelle. Ainsi c'est un outil clinique qui pourra ensuite être exploité statistiquement, pour les personnes qui donneront leur accord pour cette partie.*

6. METHODE

A) CRITERES DE JUGEMENT : A LA RECHERCHE DE CRITERES DE JUGEMENT INCLUSIFS

Cette étude visant une population large et très hétérogène (puisque elle se veut justement « pour tous »), plusieurs modalités d'évaluation complémentaires seront proposées, afin de dépister sur quelle composante et évaluer de quelle manière l'intervention semble efficace, dans l'idée de capturer des changements pouvant se traduire différemment pour chacun. Classiquement les études évaluant l'efficacité de la TCD utilisent 3 types de critères de jugement [127]: des mesures objectives du comportement (ex : nombre de tentatives de suicide/passages aux urgences en psychiatrie), des auto-observations du comportement et des auto-questionnaires validés (de régulation émotionnelle, anxiété, dépression, utilisation de stratégies, utilisation des compétences...). Toutes ces modalités se heurtent aux problèmes des troubles cognitifs, métacognitifs (conscience des difficultés) et langagiers des personnes accompagnées (cf. tableau ci-dessous). Une des solutions pour tester uniquement l'efficacité de la TCD serait d'exclure les personnes n'arrivant pas à s'auto-évaluer de façon fiable, mais ce qui serait contraire à l'objectif d'inclusivité du projet. C'est ainsi qu'est née la collaboration avec l'UR LiLPA (équipe N° 4 de linguistique) qui vise à valider des marqueurs linguistiques de régulation émotionnelle sur les enregistrements de personnes accompagnées décrivant des situations émotionnellement difficiles. Cette évaluation se veut plus objective que les questionnaires et auto-observations.

Limites des critères de jugement et solutions potentielles		
Critère de jugement utilisé	Limites	Réduction de ces limites
1a. Auto-questionnaires	-problèmes de la conscience de ses difficultés (anosognosie), -difficultés pour comprendre les questionnaires par troubles de mémoire de travail, attentionnels et langagiers -défaut d'accès aux souvenirs explorés par les questionnaires par dysfonction mnésique ou exécutive	Choix des questionnaires les plus courts, compréhensibles et validés pour des patients avec lésions cérébrales (de 25 questionnaires testés depuis 2,5 ans dans le service, 8 retenus)
1b. Hétéro-questionnaires	-pas toujours d'aidant/proche pouvant le remplir -influencé par le niveau émotionnel et l'épuisement du proche aidant (évaluation parfois non objective) -certaines personnes ne souhaitent pas que leur proche les « évalue »	Ajout d'une évaluation du proche aidant par la personne accompagnée pour réduire l'inégalité et la catégorisation sain/malade, partant du principe que nous sommes tous, à différents moments, plus ou moins dysrégulés émotionnellement.
2. Auto observation des comportements problématiques	-problèmes de la conscience de la survenue d'un comportement problématique (anosognosie), -manque de conscience de son émotion -problèmes mnésiques si l'observation n'est faite qu'en fin de journée	Technique du Momentary Assessment : pour les personnes avec difficultés mnésiques importantes, envoi aléatoire de notifications pour noter son émotion à cet instant précis sur le téléphone
3. Marqueurs	-mesure exploratoire, non validée	La collaboration avec un large groupe de

linguistiques de régulation émotionnelle	-accès au souvenir (avoir encodé et savoir récupérer un souvenir chargé émotionnellement en mémoire)	linguistes pour permettre d'explorer différents types de marqueurs, puis d'analyser les récits des participants <u>en aveugle</u> du moment de l'enregistrement (avant ou après GREMO) Les professionnels accompagnant la personne pourront l'aiguillier sur tel ou tel épisode dont ils ont eu connaissance ou dont ils ont été témoins, de manière à contourner le biais d'accès au souvenir
--	--	---

L'ensemble des critères de jugement seront appliqués et aux personnes accompagnées et aux familles (indépendamment de qui participe au GREMO), dans l'objectif de **capturer le bénéfice de la régulation pour la personne participant elle-même, mais également pour son entourage familial, selon le modèle transactionnel**. Par conséquent, 3 différents cas de figure se présenteront :

- (1) quand la personne accompagnée et un membre de sa famille participent au groupe de régulation émotionnelle,
- (2) quand un membre de la famille participe au groupe de régulation émotionnelle (Connexions Familiales) mais leur être cher ayant une lésion cérébrale ne participe pas (refus, indisponibilité, impossibilité du fait de difficultés cognitives trop importantes ;
- (3) quand seule la personne accompagnée participe (ex : si elle refuse que sa famille bénéficie d'un programme similaire, si famille non disponible mais disposée à remplir les questionnaires).

Les participants n'ayant pas de proches/famille pouvant remplir les évaluations seront quand même inclus, la priorité du dispositif étant également aux personnes isolées.

QUESTIONNAIRES VALIDES

- a) Auto et hétéroévaluations de la personne (qu'il s'agisse d'une personne avec LCA ou d'un de ses proches)

Le critère principal est le questionnaire **QOLIBRI** (Quality of Life after Brain Injury) [76,128], validé en langue française [123], qui évalue la qualité de vie après lésion cérébrale : initialement validé dans le traumatisme crânien, sa validité a ensuite été démontrée dans d'autres types de lésions cérébrales (e.g. AVC [129] ; rupture d'anévrisme [130] ; anoxies cérébrales [131]...). C'est une échelle de référence pour évaluer la qualité de vie après lésion cérébrale acquise, et elle est régulièrement utilisée pour évaluer le bénéfice d'interventions chez les patients cérébro-lésés – (ex [132–135]).

Le questionnaire de qualité de vie **SF-36** évalue la santé physique et mentale d'un individu sur 8 dimensions de la santé : activités physiques, activités sociales, résistance morale, physique et émotionnelle pour accomplir les tâches quotidiennes, douleur physique, santé mentale générale, vitalité, perception de l'état de santé en général. C'est un questionnaire bien établi et valide [136] qui a été validé en français [137]. Il sera administré aux familles.

L'Echelle des Difficultés de Régulation des Emotions [75], version française du Difficulties in Emotions Regulation Scale (**DERs**) [138], est un auto-questionnaire évaluant : le manque de conscience émotionnelle, le manque de clarté émotionnelle, le manque d'acceptation émotionnelle, les difficultés à contrôler les comportements impulsifs, les difficultés à s'engager dans des

comportements orientés vers un but en présence d'émotions négatives et l'accès limité à des stratégies de régulation des émotions. Plusieurs études portant sur des populations de personnes cérébro-lésées ont déjà utilisé ce questionnaire [139]· [140]· [141]· [142]·

L'échelle **DASS-21** (Depression Anxiety Stress Scale), validée en français, comprend 21 items évaluant l'intensité de la détresse psychologique à l'aide de trois indicateurs : la dépression, l'anxiété, le stress (Henry & Crawford, 2005). Plusieurs études portant sur des populations de personnes cérébro-lésées ont utilisé ce questionnaire (Bradbury et al, 2008; Arundine et al, 2012) et son utilisation a été recommandée dans le cadre du traumatisme crânien (Rendall et al, 2017).

L'inventaire d'évaluation comportementale des fonctions exécutives, traduction du Behavior Rating Inventory of Executive Function-Adult Version (**BRIEF-A**)[143] mesure les différentes facettes du fonctionnement exécutif du point de vue de la personne évaluée et de ses proches. Son utilisation a été indiquée suite à des traumatismes crâniens, AVC, tumeurs cérébrales...[144]

Le questionnaire **EES-10** [145] , traduction française du Rosenberg Self-Esteem Scale [146], est un auto-questionnaire de référence pour évaluer l'estime de soi. Il a été utilisé dans plusieurs études portant sur des populations de personnes cérébro-lésées [147,148]

Le **Questionnaire de Fonction Réflexive**[149], version française du Reflective Function Questionnaire [150], est un auto-questionnaire qui évalue la capacité à comprendre ses propres actions et celles des autres en termes d'états mentaux cognitifs et affectifs.

L'inventaire de croissance post-traumatique, version française du « Post-traumatic Growth Inventory » [151,152] (CPTI) est un auto-questionnaire en 21 items qui évalue les changements psychologiques positifs qui apparaissent à la suite d'une exposition à un traumatisme majeur (l'appréciation de la vie, les relations aux autres, le développement d'une force personnelle, les nouvelles possibilités, le développement d'une certaine spiritualité). Plusieurs études portant sur le concept de croissance post-traumatique chez des patients traumatisés crâniens ont utilisé cet inventaire [153,154].

b) questionnaire de fonctionnement et coping familial

Le questionnaire de coping familial, traduction du **Family Coping Questionnaire (FCQ)**, validée en langue française[155], évalue les manières de faire face aux dysfonctionnements caractéristiques de la pathologie de son proche. Cette échelle n'a pas encore été utilisée avec des familles de personnes cérébro-lésées.

L'échelle de **fonctionnement familial général** du Family Assessment Device (FAD) est un auto-questionnaire qui vise à évaluer la perception que les membres de la famille ont du fonctionnement familial [156]. La validation française du FAD [157] a montré que la sous-échelle du fonctionnement général du FAD est le meilleur indicateur général du fonctionnement familial [157].

c) questionnaire de fardeau

L'Échelle de Zarit (ou Échelle du fardeau des aidants) [158], version française du Burden Interview [159] est un auto-questionnaire de 22 items, version révisée par l'auteur à partir des 29 items de la publication originale, évaluant la charge ressentie par le proche aidant.

MESURES REPETÉES PAR AUTO-EVALUATION PLURI-HEBDOMADAIRE DES COMPORTEMENTS CIBLES, DES EMOTIONS, DE L'UTILISATION DE STRATEGIES

La TCD prévoit une auto-observation quotidienne si possible, ou à minima 3 fois par semaine, par le patient, des comportements qu'il souhaite diminuer, de sa détresse émotionnelle et de sa joie, et de l'utilisation des compétences

Les données de ces fiches seront exploitées cliniquement, tel que préconisé par la TCD, pour suivre l'évolution de chaque patient au cours du temps (diminution des troubles du comportement, augmentation de l'utilisation des compétences)

Les données seront également exploitées comme mesures répétées (dans l'hypothèse d'une diminution progressive des comportements problématiques au fur et à mesure du GREMO) par méthodologie SCED [10].

FICHE D'AUTO OBSERVATION QUOTIDIENNE

Semaine : du Au

Nom :

Les comportements correspondent à ce que vous avez fait. Les Émotions correspondent à ce que vous avez ressenti au cours de la journée.
Remarque : Les consignes en italique sont facultatives.

Entourez le jour de début	Score le plus élevé du jour		Comportements à diminuer				A utilisé les compétences *	Facultatif Événement(s) spécifique(s) de la journée
	Détresse émotionnelle	Joie	Emotion(s) observée(s)					
LUN								
MAR								
MER								
JEU								
VEN								
SAM								
DIM								
Changements marquants de la semaine (facultatif) :							* compétences utilisées :	
Tâches à domicile assignées cette semaine :							0 = N'y a pas pensé, ni utilisé 1 = Y a pensé, n'a pas utilisé, n'avait pas envie 2 = Y a pensé, n'a pas utilisé, avait envie 3 = A essayé mais n'y est pas parvenu 4 = A essayé, a réussi, mais elles n'ont pas aidé 5 = A essayé, a réussi, elles ont aidé 6 = Les a utilisées automatiquement, elles n'ont pas aidé 7 = Les a utilisées automatiquement, elles ont aidé	
Fiche pratique à domicile p. ... Exemple fiche pratique à domicile p. ... Éléments théoriques p. ...								

!!! PENSEZ à compléter la fiche chaque jour ! Stratégie décidée pour penser à la remplir :

		Cochez le jour où la compétence a été pratiquée						
		Lundi	Mardi	Mercredi	Jeudi	Vendredi	Samedi	Dimanche
Plaine Conscience	Conscience éclairée							
	QUOI							
	Observer : se rendre compte							
	Décrire : mettre des mots							
	Participer : être pleinement dans l'expérience							
COMMENT	Sans jugement							
	Centré sur une seule chose à la fois							
	Efficacement : se focaliser sur ce qui fonctionne							
Régulation Émotionnelle	Esprit ouvert							
	Vérifier les faits							
	Agir à l'opposé							
	Résoudre les problèmes							
	Accumuler des émotions positives							
	Bâtir votre expertise							
	Chercher à anticiper pour faire face							
Efficacité Interpersonnelle	Prendre soin de son corps							
	DEAR (objectif) Décrire, Exprimer, Affirmer, Renforcer							
	MAN Maintenir sa conscience, Assuré, Négocier							
	AVEC (renforcer la relation) : Altruiste, Validant, Empathique, Chaleureux							
	VRAI (respect de soi) : Valeurs, Respect de soi, Arrêter les excuses, Intègre							
	Pleine conscience des autres							
	Pratique de la validation							
Tolérance à la Détresse	Pratique du pardon							
	Compétence STOP							
	Compétences TER : Température ; Exercice Intense ; Respiration/Relaxation							
	La distraction EVASION : Encombrer l'esprit, Verrouiller les pensées, Activités, Sensations, Inverser l'émotion, Ouverture aux autres, Nuancer							
	Apaisement de soi avec les 5 sens							
	Amélioration du moment AMELIOR : Adresser une prière, Mettre du sens, Encouragement de soi, Loisirs/vacances, Imagerie, Orientation sur le présent, Relaxation							
	Réorienter l'esprit vers l'acceptation							
	Bonne volonté							
	Demi sourire et mains volontaires							

ANALYSE DES MARQUEURS LINGUISTIQUES ET DE COHERENCE LORS D'UN RECIT AUTOBIOGRAPHIQUE DE SITUATIONS CHARGEES EMOTIONNELLEMENT

Les personnes ayant une lésion cérébrale seront enregistrées au cours de la narration de souvenirs chargés émotionnellement : 5 mois avant GREMO, immédiatement avant GREMO, à l'issue de 5 mois de GREMO. Le discours sera analysé, en aveugle du groupe d'appartenance du patient, et en aveugle du moment de passation.

Deux chercheurs indépendants des évaluateurs aveugles analyseront les discours au fil de l'eau par série, afin d'identifier les marqueurs les plus pertinents et discriminants et les ajuster pour les groupes suivants. D'autres chercheurs, aveugles, analyseront tous les enregistrements sur les critères ainsi retenus.

Des exemples de marqueurs candidats sont basés sur les éléments suivants (issus d'une concertation et travail pilote sur quelques patients en 2020, la liste complète des marqueurs linguistiques peut être trouvée dans les annexes électroniques) : (1) marqueurs de prise de conscience de ses séquelles post lésion cérébrale : modalités épistémiques (cf. je sais, j'ai conscience, etc.), commentaires sur son propre discours (cf. métalangage, marqueurs du dire, ex. *"je ne veux pas dire..."*) ; (2) baisse d'alexithymie avec plus de richesse de verbalisation d'émotions, émotions plus précises : lexique employé, précision lexicale, présence ou non de marqueurs d'approximation, marqueurs prosodiques de l'émotion ; (3) discours plus centré sur le présent avec baisse des ruminations : analyse des temps verbaux et des compléments temporels, mise en évidence des éventuels thèmes récurrents, degré de contrôle (registre de langue, interjections, etc.) ; (4) longueur des phrases : fluence, verbale (vitesse d'élocution, si inintelligible, si accélération, nombre de syllabes par seconde), phrases plus longues et/ou plus complexes syntaxiquement quand moins d'activation émotionnelle, en cas de baisse de l'impulsivité, et repérage des scories (réduplication, faux départs, répétitions, troncations, etc.) ; (5) description non-jugeante des pensées et des émotions : voir si l'on observe une absence de modalités déontiques, épistémiques, aléthiques ; analyse des temps verbaux ; (6) lexique de l'émotion négative et positive (colère, angoisse, stress, joie, etc., recherche des noms, adjectifs, verbes et tournures syntaxiques, étiquetage en polarité négative, positive et neutre, ainsi qu'en degré, comptage et classification des occurrences).

METHODE QUALITATIVE : INTERPRETATIVE PHENOMENOLOGICAL ANALYSIS (IPA)

Les personnes accompagnées, et les familles seront interrogées avant et après l'intervention pour explorer leur vécu du libre arbitre, de leur dysrégulation émotionnelle, des conséquences de la lésion cérébrale et leurs expériences de comment leur proche ou eux-mêmes se sont engagés (ou pas) vers une autodétermination/ vers une construction de projet de vie malgré les difficultés. L'analyse des entretiens semi structurés sera réalisée à l'aide d'une méthode qualitative phénoménologique : l'Interpretative Phenomenological Analysis (IPA) [125]. L'IPA permet de procéder à une analyse approfondie de la perception subjective du sujet et du sens donné aux expériences vécues. Afin d'augmenter la validité de l'analyse qualitative, deux chercheurs vont analyser de façon indépendante toutes les données des entretiens. Les sous-thèmes et thèmes émergeant de ce double codage seront ensuite discutés au cours de réunions répétées avec les autres membres de l'équipe de recherche et de réunions participatives. La pluridisciplinarité de l'équipe 5 (SHS), vise

aussi à confronter les théories de ces disciplines (philosophie, théologie, sociologie), ayant une vision et définition différente du libre arbitre à la réalité de ce qui vivent des patients dont la lésion cérébrale peut restreindre la liberté telle qu'elle est habituellement définie (ex : comportements non maîtrisés, difficulté de flexibilité, dysrégulation émotionnelle). Le lien avec la dysrégulation émotionnelle et avec le déficit des fonctions exécutives (e.g. difficultés à initier une action qui correspond à ce que je veux réellement (explorés par les questionnaires BRIEF et EPHP), seront également explorées.

Résumé des critères de jugements utilisés				
Critère de jugement	Auto et hétéro questionnaires	Analyse des marqueurs linguistiques	Fiche auto-observation pluri hebdomadaire	Analyse phénoménologique interprétative
5 mois pré GREMO		Récit à contenu émotionnel des 5 derniers mois		
Avant GREMO	x	Récit à contenu émotionnel des 5 derniers mois	3 semaines avant le début de l'intervention	Questions sur le vécu de la dysrégulation émotionnelle et du libre arbitre
Pendant intervention GREMO			x	
Immédiatement après GREMO	x	Récit à contenu émotionnel des 5 derniers mois		Questions sur l'effet du GREMO sur le vécu du libre arbitre et de la dysrégulation émotionnelle
5 mois post GREMO	x			
<i>Pour Qi ?</i>	<i>Tous</i>	<i>Personnes avec lésions cérébrales</i>	<i>Tous</i>	<i>Tous mais en sélectionnant dans les récits les parties ayant attiré aux 3 questions de recherche qualitative : Libre arbitre et régulation émotionnelle</i>

B) INTERVENTION

Description de l'intervention GREMO : Intervention commune à tous	
-groupe d'apprentissage de compétences TCD -pratique à domicile, c'est-à-dire application personnelle guidée des compétences apprises dans sa vie quotidienne -remplissage, si possible de façon quotidienne, ou à minima 3 fois par semaine, d'une fiche d'auto-observation, pour apprendre à observer et reconnaître ses émotions, noter les comportements que l'on souhaite réduire, cocher l'utilisation des compétences apprises. -groupe WhatsApp de communication dans le groupe -lien vers des vidéos de révision des compétences sur la chaine GREMO HUS	
Parties spécifiques pour les personnes accompagnées suite à une LCA	Parties spécifiques pour les familles dont un proche a une LCA (que la personne soit accompagnée par un EMS ou non)
Séance individuelle <u>systématique</u> entre les groupes pour s'assurer de la compréhension des compétences, pour soutenir les pratiques à domicile et le remplissage des fiches d'auto-observation	Suivi psychologique individuel des proches, à la carte, en fonction des besoins exprimés et de la disponibilité des familles, mais <u>non</u> systématique.
Nombre de séances (22 à 25), issues de la TCD classique (pleine conscience, régulation émotionnelle, efficacité interpersonnelle, tolérance à la détresse) et avec les adaptations liées au profil cognitif des personnes avec LCA (ajouts des compétences de la version « radicalement ouvert » de la TCD -flexibilité, esprit ouvert, pardon)	Nombre de séances (et compétences) plus réduit (8 -10), et contenu construit de manière participative, en se basant : -sur les échanges avec les familles concernant leurs besoins -sur les compétences déjà constitutives de « Connexions Familiales » (c'est-à-dire régulation émotionnelle, validation, pleine conscience, exprimer un refus/une demande, acceptation radicale, gestion de problèmes) -sur les compétences identifiées dans la TCD comme utiles également aux familles : tolérance à la détresse, dialectique, réduire la vulnérabilité à l'esprit émotionnel, accumuler les émotions positives, anticiper pour faire face -sur les compétences TCD « radicalement ouvert » : pardonner
Une personne accompagnée est considérée avoir participé au GREMO si elle a assisté à au moins 2 modules (= 4 à 5 séances par module).	Un proche est considéré avoir participé au GREMO s'il a assisté à au moins 6 séances.
NB : les séances où le participant est absent peuvent être rattrapées soit en individuel et sur YouTube	
Intervention contrôle pendant la période de Baseline 5 mois pré-GREMO	
Accompagnement multidisciplinaire médico-social habituel, ne ciblant pas spécifiquement la régulation émotionnelle	Information des familles de ressources possibles pour les proches familles (groupes de paroles, soutien associatif, séjour répit, aides sociales, MDPH...) au cours d'une séance d'information, avec distribution de supports.

C) PRINCIPAUX CRITERES D'INCLUSION

Critères d'inclusion personnes accompagnées	Critères d'inclusion pour les familles
- Personnes accompagnées par EMOI TC ou une structure de l'AFTC ou en liste d'attente pour être accompagnées dans l'une de ces structures (dont le critère d'admission est lésion cérébrale acquise, quelle que soit son type ou gravité, et un âge de 18 à 65 ans) - A plus de 18 mois de la lésion (notre expérience nous montre que les 18 premiers mois la personne est en général trop « sidérée » et trop impliquée dans la rééducation pour profiter du GREMO) - Secondaire ou aggravée par une lésion cérébrale acquise (les patients présentant un trouble de personnalité ou pathologie antérieure à la lésion cérébrale ne seront pas exclus) - Responsable d'une souffrance importante pour soi ou pour l'entourage (trouble du comportement, accès de colère, agressivité, acte implication légale ou anxiété avec comportement d'évitement...), limitant la construction d'un projet de vie (critère de prise en charge des patients dans le service où est réalisée l'étude)	- Proches, famille, aidants d'une personne ayant une lésion cérébrale - Souhaitant participer et s'engager dans le contenu du GREMO (cf. tableau ci-dessous) - Sujet affilié à un régime de protection sociale d'assurance maladie - Sujet apte à comprendre les objectifs et les risques liés à la recherche et à donner un consentement éclairé daté et signé
Critères de non-inclusion spécifiques personnes accompagnées	Critères de non-inclusion spécifiques pour les familles
- Défaut majeur d'abstraction, introspection, ou anosognosie empêchant une réflexion autour des difficultés de régulation émotionnelle - Absence complète de gêne exprimée par le patient - Troubles cognitifs très sévères, aphasie ou déficience intellectuelle ne permettant pas la compréhension des supports, des échanges de groupe et questionnaires - Age inférieur à 18 ans - Pathologie cérébrale dégénérative associée - Lésion cérébrale d'origine cancéreuse, d'évolution incertaine NB : - Les patients sous tutelle et curatelle ne seront pas exclus, car la nécessité de mesure de protection est fréquente en cas de séquelle de lésion cérébrale et il s'agit d'une population souvent très touchée par la dysrégulation émotionnelle et en besoin d'intervention efficace. - Les privées de liberté par une décision judiciaire ou administrative ne seront pas exclus s'ils sont disponibles en journée (ex : sorties avec bracelet, incarcérations de nuit...). Etant donné que dans le traumatisme crânien il y a beaucoup d'implications médico-légales en raison des troubles du comportement et de la dysrégulation émotionnelle, il semblerait non éthique de ne pas inclure ces patients dont la dysrégulation émotionnelle et les troubles du comportement les	- Age inférieur à 18 ans - Lésion cérébrale

ont justement amenés à être sous protection légale ou privés de liberté.	
Critères de non-inclusion communs	
• Maîtrise de la langue française insuffisante pour participer aux échanges de groupe • Etat psychotique non stabilisée (non inclusion temporaire, jusqu'à stabilisation) • Personne déjà en traitement par une autre TCC de 3eme génération incluant un travail de régulation émotionnelle durant sa participation à l'étude	

D) NOMBRE DE SUJETS A INCLURE ET FAISABILITE DU RECRUTEMENT

GREMO pour personnes avec lésions cérébrales : Nombre de personnes à inclure =45

Des données préliminaires [118,119] (cf. section III, 4 D) nous permettent d'estimer que le delta de l'évolution du score Quolibri moyen sur 5 mois de prise en charge à EMOI TC entre la phase contrôle (évolution du Quolibri sur 6 mois à EMOI TC sans intervention de régulation émotionnelle) et la phase de traitement (évolution du Quolibri sur 6 mois comprenant un GREMO) est d'environ 7 points. L'écart-type des différences de score vaut environ 9. Dans ces conditions, recruter 37 patients permet une puissance de 90% ($\alpha = 0.05$) dans le cadre de comparaison de la phase active vs la phase de contrôle.

En se basant sur notre expérience de 1 à 2 patients par groupe de 9 patients ne ramenant pas les questionnaires ou interrompant la thérapie, et en associant des perdus de vue, et les incertitudes des données préliminaires, nous souhaitons **inclure 45 patients** (soit 5 groupes de 9 patients), dans l'objectif d'arriver à au moins 37 patients avec données avant et après intervention, sur 2.5 ans. Les patients seront recrutés via EMOI TC (file active = 250, 70- 80 nouvelles personnes /an, 20 à 25 patients identifiés chaque année comme gênés dans la construction d'un projet de vie par difficultés de régulation émotionnelle dont 80% semblent remplir les critères d'inclusion) et via l'AFTC.

GREMO-famille pour proches : Nombre de personnes à inclure = 30

En parallèle, les groupes familles seront inclus, pour lesquels nous n'avons pas de données préliminaires pour justifier la taille d'échantillon, mais dont le recrutement sera aisé car : (1) peu de critères de non-inclusion, (2) large bassin via les EMS EMOI TC et AFTC qui gèrent la quasi-totalité de l'offre médico-sociale de patients cérébrolésés vivant en milieu ordinaire (et notamment dans les familles) et le caractère participatif qui sera rendu public à l'association France AVC également; (3) format REPT plus court ; (4) modalités adaptables (présentiel/visio, en soirée/en journée/ en WE) ; (5) des possibilités de groupes TCD de plus grande taille selon l'expérience de « Connexion Familiale » en psychiatrie, (6) peu de perdu de vue prévus. Un échantillon de 30 personnes est visé, pour cette étude pilote.

7. JUSTIFICATION DE LA COMPOSITION DES EQUIPES ET MODALITES CONCRETES DE TRAVAIL ENTRE LES EQUIPES ET LEUR COORDINATION

Le point fort du projet est son interdisciplinarité, dont une partie s'est construite progressivement avant le projet : (1) étude pilote TCD entre CHU psychiatrie (équipe n°2) – EMS EMOI TC (équipe n°1) pour personnes avec lésions cérébrales; (2) travail préliminaire de préparation de la partie marqueurs linguistiques sur des enregistrements pilotes de patients en 2020 entre UR LILPA (équipe

n°4) et INSERM 1114 (équipe n°2) ; (3) rapprochement EMS EMOI TC (équipe n°1) et AFTC (équipe n°3) pour garantir une offre complète médico-sociale à la carte avec passage décroisé entre les 2 structures : habitats partagés, GEM, accueil de jour, SAMSAH, accompagnement professionnel, soutien psychologique des aidants, et dont l'interdisciplinarité augmentera encore avec inclusion d'équipes de SHS diversifiées (philosophie, théologie, sociologie) (équipe n°5). Concrètement :

-réunions communes (EMOI TC et psychiatrie) des thérapeutes TCD qui ont déjà lieu chaque lundi permettant l'échange d'expérience, la pratique de la régulation émotionnelle par les thérapeutes, la gestion de crises avec les participants, l'adaptation des supports (écrits et YouTube) aux besoins apparaissant.

-réunions mensuelles des chercheurs en TCD déjà en place, impliquant les laboratoires INSERM 1114, le laboratoire LPC, le service de psychiatrie du CHU.

-Collaboration avec le LiLPA depuis mai 2020, avec demi-journées de travail trimestrielles autour des marqueurs linguistiques, et lien via les étudiants orthophonistes (4 à 8 étudiants effectuant un stage recherche de 120h chacun dans les équipes EMOI TC et UR LiLPA).

Un lien fort sera également les co-directions de mémoires entre linguistes, MPR, psychiatres, psychologues et philosophes impliqués dans le projet. EMOI TC (unité d'appartenance du porteur du projet) est un lieu de stage recherche et formation, et le coordonnateur étant maître de conférence, des liens très étroits sont donc en place avec les formations en orthophonie, psychologie TCC, neuropsychologie et MPR. Par conséquent de nombreux étudiants sont candidats pour intégrer le projet, et seront indispensables au vu de la charge de travail notamment dans la retranscription des discours en IPA. Des étudiants en sciences humaines viendront compléter l'équipe pour des mémoires de SHS appliqués.

8. ORGANISATION DU PROJET ET DIMENSION PARTICIPATIVE

Dès les premiers groupes d'entraînement aux compétences des familles, les échanges en groupe permettront de : lister les besoins non couverts dans le contenu du groupe ; de faire émerger des questionnements des familles sur la liberté de choix, le libre arbitre et l'autodétermination qui seront transmis au fil de l'eau aux chercheurs en SHS, et qui serviront à adapter les guides d'entretiens IPA. Les personnes accompagnées et des familles seront impliquées dans l'animation des groupes (pair aidance).

Les patients, des familles et des professionnels seront associés à l'interprétation des données qualitatives de l'IPA sur le libre arbitre pour faire émerger des nouveaux outils d'engagement et auto-détermination et créer des documents vulgarisés pour les familles et personnes avec LCA.

V) DISCUSSION GLOBALE DE L'HDR

1. REFLEXION SUR LA METHODOLOGIE DU PROJET LA-REPT

A) ORIGINALITE ET PERTINENCE DU PROJET:

L'originalité du sujet est :

1. Son décroisement de pathologies psychiatriques versus neurologiques et collaboration psychiatre – rééducation/MPR : Bien souvent il y a un cloisonnement entre manifestations dites neurologiques (ou lésionnelles) et manifestations psychiatriques (qu'elles soient liées à des complications, des comorbidités antérieures, une coexistence de plusieurs diagnostics ...). Donc plutôt que de partir de groupes homogènes neurologiquement (par ailleurs non faisable en réalité vu l'hétérogénéité lésionnelle en cas de traumatisme crânien), ici nous nous appuyons sur la logique des psychiatres et les mécanismes d'action de la TCD dont les publications semblent actuellement montrer l'efficacité « transdiagnostique », c'est-à-dire indépendamment de la pathologie (dépression, borderline, TDAH...) et indépendamment du mécanisme de la dysrégulation émotionnelle (développementale, acquise, traumatique, au cours de la construction de la personnalité...), du moment qu'il y a une dysrégulation émotionnelle source de souffrance ou de blocage dans la construction d'un projet de vie.
2. L'évaluation des bénéfices sur la vie réelle des patients, notamment en termes de qualité de vie, croissance post-traumatique et d'atteinte d'objectifs personnalisés qui sont chers aux patients (par Goal Attainment Scaling), et non des marqueurs déconnectés de leur vie quotidienne/ non écologiques. Actuellement, les émotions sont surtout étudiées par des marqueurs physiologiques (réactions électrodermales, IRMf, ERP) alors que les interventions de régulation émotionnelle comme la TCD n'ont pas pour but premier de diminuer les émotions douloureuses mais de favoriser des comportements plus fonctionnels, même en l'absence de modification de l'intensité émotionnelle. L'objectif n'est pas de diminuer les émotions douloureuses, mais aider les patients à construire une vie qui a du sens pour eux, en présence même d'émotions douloureuses / intenses.
3. Sa pluridisciplinarité et collaboration avec l'UR LILPA -linguistique : l'auto-évaluation émotionnelle habituellement utilisée dans les études de TCC et TCD pouvant être impactée par les troubles cognitifs et un insight trop faible/anosognosie des patients, l'analyse de marqueurs émotionnels linguistiques analysant un récit de souvenirs chargés émotionnellement fournirait des marqueurs plus objectifs d'amélioration fonctionnelle.
4. Une méthodologie qui évite le biais des exclusions non aléatoires et favorise l'inclusion de patients marginaux, imprévisibles, pas toujours compliants (proportions importantes de patients dont les troubles du comportement les désinsèrent du monde professionnel, de leur famille, conduit à des incarcérations à répétition, et des ruptures de soins multiples). En effet, l'absence de randomisation mais l'utilisation de mesures répétées avant intervention permettra à tout patient désirant s'investir dans l'intervention d'en bénéficier et d'être inclus

dans les analyses et d'éviter ainsi le biais des exclusions non aléatoires, trop souvent sous-estimé dans les études s'attachant à des populations difficiles.

5. Une réponse potentielle à l'absence de prise en charge validée : En cas de LCA, la prise en charge des difficultés émotionnelles est mal codifiée et il y a une réticence à appliquer des traitements comme la TCD du fait des troubles cognitifs. Notre expérience de file active de 250 patients annuels permet des adaptations liées aux troubles mnésiques et attentionnels, riches de l'expérience de l'équipe, et des usagers de notre service (dimension participative) et de la littérature.

B) ARGUMENTATION CONTRE UNE METHODOLOGIE D'ESSAI RANDOMISEE CONTROLEE.

Les arguments contre une randomisation sont liés :

- À la population de patients cérébro-lésés associant dysrégulation émotionnelle, troubles du comportement et troubles cognitifs : il s'agit de patients difficiles à engager dans un projet thérapeutique, en rupture fréquente de suivis, du fait de décompensations psychiatriques, incarcérations.

-Au contexte de vie des patients impactés par la lésion cérébrale, faisant que leur quotidien est imprévisible en terme d'organisation sur une année (essai de scolarisation puis rupture, essai d'emploi puis licenciement...) faisant que même engagés et hors rupture de projet de soins, il leur est difficile de déterminer quand ils pourront être disponibles (physiquement, géographiquement, cognitivement) pour une intervention aussi prenante que le GREMO.

-Au format de la thérapie, efficace que si le patient pratique tous les jours, avec une nécessité de réviser les compétences, se les approprier, appeler le thérapeute en cas de besoin, qui chez des patients fatigables (constante après lésion cérébrale), nécessite de se dégager du temps (non compatible avec un travail à temps plein de notre expérience)

En cas de randomisation, le problème méthodologique majeur serait lié aux exclusions non aléatoires : seuls des patients très disponibles (donc pas en cours d'études, pas en cours d'emploi projeté dans l'année) pourraient être inclus pour être randomisés au GREMO d'emblée ou au dans 5 mois. Ceux ayant un projet professionnel ou scolaire, ne peuvent pas s'engager à attendre 5 mois puis investir 5 mois pour le GREMO, puis seulement après répondre à une offre d'emploi. Donc ils risqueraient d'interrompre l'étude en cas de nouvel emploi ou nouvelle formation. La population incluse (ou finissant l'étude) serait biaisée vers les « moins actifs » qui ont « tout leur temps » pour faire le GREMO n'importe quand dans l'année. D'autre part, les patients les plus désinsérés, aux incarcérations imprévisibles risqueraient d'être systématiquement exclus.

De plus, il semble prématuré de réaliser une étude clinique contrôlée randomisée car trop d'inconnues subsistent : faisabilité et pertinence des critères de jugement (notamment marqueurs linguistiques), nécessité d'adaptations au fur et à mesure du programme aux troubles cognitifs, fidélité au traitement instable tant que le programme est en phase d'optimisation des adaptations. D'autre part il n'est pas éthique de ne pas proposer de groupe GREMO aux patients en ayant

l'indication et la disponibilité, car il n'existe pas d'approches en pratique courante visant à améliorer la régulation émotionnelle alors que c'est une source de détresse majeure après lésion cérébrale pour le patient et pour son entourage. Si on ne peut pas préciser aux patients d'emblée à quel moment de l'année ils doivent se libérer le temps nécessaire pour participer au GREMO moins de patients seront inclus, retenus et les patients finissant l'étude ne seraient pas représentatifs de la population des patients cérébrolésés ayant besoin de l'intervention.

L'effet de séquence semble peu probable en raison de la chronicité des patients, de la vérification de la stabilité à 5 mois, et du fait qu'ils ont déjà eu une prise en charge jugée optimale depuis plusieurs années.

C) DISCUSSION DES CRITERES D'INCLUSION

POINT DE VUE NEUROLOGIQUE VERSUS POINT DE VUE PSYCHIATRIQUE

Une critique récurrente du projet LA-REPT, que ce soit au moment de sa soumission au conseil scientifique des Hôpitaux Universitaires de Strasbourg, des auditions du GIRCI Est dans le cadre des appels à projet jeune chercheur, du comité de protection des personnes, ou de la soutenance de thèses, réside dans ce que les reviewers définissent comme une « hétérogénéité étiologique trop importante dans les critères d'inclusion ». Il a été suggéré, notamment par des neurologues, de se limiter à des lésions frontales ou à une seule étiologie de lésion cérébrale.

D'un point de vue lésionnel et même localisationniste, c'est une remarque très pertinente puisque les dysfonctionnements comportementaux et des problématiques émotionnelle en rapport avec la lésion, seront différentes chez les patients avec des lésions frontales par rapport à ceux patients ayant eu par exemple un accident vasculaire cérébral sylvien.

Cependant, la dysrégulation émotionnelle après lésion cérébrale est multifactorielle. L'aspect lésionnel n'est probablement pas majoritaire dans la genèse et maintien des difficultés émotionnelles, du moins chez les patients ayant un accès à l'analyse de leur comportement problématique.

Le service EMOI TC est pionnier dans le décroisement entre pathologies psychiatriques et neurologiques, avec comme principe de traiter les difficultés des patients indépendamment de l'origine de leurs difficultés :

- lésionnelle (suite à la lésion cérébrale),
- préexistante décompensées par la lésion cérébrale (ex : trouble de la personnalité préexistante),
- complication de lésion cérébrale (ex : dépression)
- double diagnostique concomitant (ex : abus de substances actif qui a causé le TC et en aggrave le devenir)

La majorité des patients traités dans le service n'ont pas uniquement une lésion cérébrale. Les personnes avec troubles de personnalité préexistants à la LCA et celles avec abus de substances

sont dans le service celles pour qui les suivis sont les plus longs, les plus difficiles et où la construction d'un projet de vie est la plus problématique.

Ce sont les troubles en vie quotidienne, responsables de souffrance, et persistants 18 mois après la lésion, qui sont le critère d'inclusion et non une localisation cérébrale lésionnelle. Uniformiser les groupes du point de vue neurologique serait à l'encontre même de la philosophie et du mécanisme d'action de la TCD dont les publications semblent actuellement montrer l'efficacité «transdiagnostique ».

Ainsi les profils de patients inclus dans les groupes précédents comportent par exemple :

- un patient traumatisé crânien avec lésion orbito-frontale sans comorbidité
- une patiente avec une anoxie cérébrale gênée surtout par une rigidité mentale et une absence de reconnaissance d'émotion
- un patient avec un AVC cérébelleux compliqué de dépression
- un patient ayant eu un traumatisme crânien il y a 30 ans, avec une décompensation psychique au premier plan apathique à distance, suite au décès de ses parents
- une patiente avec rupture d'anévrisme, gênée au premier plan par des idées suicidaires qui étaient déjà présentes avant la lésion
- un patient avec un traumatisme crânien sévère, survenant sur une personnalité anti-sociale (avec séjours réguliers en prison)
- un patient traumatisé crânien survenant sur un TDAH sévère avec importante impulsivité pré-lésionnelle
- un patient avec un traumatisme crânien léger sans lésion à l'imagerie ayant au premier plan une symptomatologie fonctionnelle et CNEP
- un patient avec trauma crânien compliqué au premier plan de sinistrose dans le cadre d'un accident de travail
- une patiente ayant une encéphalite, avec troubles fonctionnels au premier plan

Ces patients sont le reflet de la réalité de la population de personnes cérébro-lésées qui ont besoin d'un accompagnement pour reconstruire un projet de vie. Les critères habituels d'inclusion/non inclusion, basés sur une uniformité lésionnelle mais ne prenant pas en compte la part majeure liée aux facteurs psychiques et psychiatriques, courent le risque (1) de passer à côté de la complexité des besoins de ces patients ; (2) de fournir des résultats non extrapolables aux « vrais » patients, lorsque les critères de non inclusion (notamment ceux en rapport avec une pathologie psychiatrique) sont trop nombreux, et excluent les personnes les plus marginales.

PROMOUVOIR L'ENGAGEMENT ET L'INCLUSION DES PLUS MARGINAUX

La plus grande difficulté rencontrée dans l'accompagnement à un projet de vie est la difficulté de certains patients à s'engager vers la construction d'un projet de vie quel qu'il soit. Cette problématique est particulièrement présente chez les personnes ayant un trouble de personnalité préexistante, les personnes dont l'évolution se complique d'une dépression, de consommation de substances, d'actes à implication médico-légale. L'accompagnement de ces patients est souvent chaotique, les changements lents et ponctués de ruptures de soins. La collaboration avec les services de SMPR (Service Médico-Psychiatrique Régional) des maisons d'arrêt, les services de psychiatrie, et les services sociaux est primordiale.

Les critères d'inclusion classique comprennent souvent un item de générique de « souhait de participer à l'étude », « accord pour suivre la thérapie », « motivation pour l'intervention ». **L'un des axes de recherche que je souhaite prioriser (et développé dans le projet LA-REPT) est de ne pas exclure les personnes au suivi chaotique et à la motivation aléatoire des études.** Ceci n'est pas sans problème méthodologique.

Autant les patients ciblés dans cette étude sont en phase chronique et donc relativement stables neurologiquement, autant il s'agit de patients instables comme sujets d'étude, avec de nombreux changements faisant que leur avenir et disponibilité sont incertains sur les mois à venir : essais de formation, embauche et licenciement, nouvel essai d'emploi, incarcération, rupture de couple, problèmes de logement...



Les données seront analysées selon des sous-groupes définis en avance afin de proposer des critères prédictifs de bonne réponse au traitement mais également afin de donner une idée de la probabilité de succès de traitement ou du moins de potentiel bénéfice même modeste chez des patients qui seraient, habituellement exclus des études du fait de leur faible assiduité, motivation fragile, vies imprévisibles, engagement insuffisant et faibles capacités d'entrer dans une démarche psychothérapeutique. En particulier, pour chaque groupe de 8-9 patients nous souhaitons laisser une à 2 place à des patients marginaux, imprévisibles (notamment ceux alternant le suivi dans notre service avec de périodes d'incarcération).

Catégorisation des patients sur le CRF en vue d'analyse en sous-groupes (cotation faite en équipe multidisciplinaire connaissant le patient)

DIFFICULTÉS ANTICIPÉES DE L'INTERVENTION

♦ Assiduité aux rendez-vous :

- ☐ Aléatoire
- ☐ Assurée (approximativement 3 rendez-vous sur 4)

♦ Capacités d'introspection/ métacognitives/ à se remettre en question :

- ☐ Peu constatées actuellement
- ☐ Possibles mais limitées
- ☐ Certaines car déjà constatées

♦ Cadre de vie imprévisible (avenir inconnu en termes de logement, incarcération, difficultés financières majeures...) :

- ☐ Cadre de vie et emploi du temps totalement imprévisibles sur les 15 mois à venir

- ☐ Projet de vie en évolution faisant que les 15 mois à venir sont imprévisibles mais non insécuritaires
- ☐ Cadre de vie et emploi du temps à priori prévisibles sur les 15 mois à venir
- ♦ Disponibilité de temps :
 - ☐ Emploi ou activité à plus de 80%
 - ☐ Temps partiel permettant d'aménager des temps dédiés au GREMO
 - ☐ Patient s'investissant quasi exclusivement dans le GREMO
- ♦ Motivation à changer son fonctionnement psychique et engagement :
 - ☐ Engagement laborieux et fragile
 - ☐ Motivation et engagement présents mais fluctuants
 - ☐ Motivation certaine et engagement semblant solides

À TOUS LES PATIENTS POUR QUI CETTE RECHERCHE N'EST TOUJOURS PAS PERTINENTE

Les patients pouvant s'inscrire dans le projet LA REPT, dans les prises en charge psychologiques qui permettent une croissance post-traumatique, et qui ont la capacité de réfléchir à leur fonctionnement sont plus nombreux qu'on ne le pense, notamment à distance de la lésion cérébrale. La recherche qualitative nous donne des résultats étonnants quant à la possibilité de réfléchir au sens de la vie même chez des patients avec une anosognosie importante et qui semblent hermétiques aux différentes prises en charge psychologiques, cognitives et de réinsertion.

L'impression clinique de notre équipe est que le moment où on a le plus de choses à apporter à un patient avec une lésion cérébrale pour l'aider à reconstruire son projet de vie se situe plutôt au-delà de 3 ans post lésion : lorsque l'état neurologique est stable, les éventuelles complications psychiques hélas enclenchées, les procédés d'indemnisation, de mise en invalidité clos. **C'est souvent à ce moment-là que les patients rentrent dans une remise en question qui peut, chez certains coïncider avec une sortie progressive d'une anosognosie. Il est indispensable que plus de moyens soient consacrés à cette phase, notamment en termes d'accès aux interventions psychologiques et cognitives spécifique .**

Cependant les prises en charge des patients avec des séquelles sévères, notamment en termes d'apathie, de déficience intellectuelle, de troubles du comportement extrêmement sévères continue à me faire poser la question de ne pas exclure ces patients de la recherche sur l'optimisation de l'accompagnement du projet de vie. Actuellement la piste la plus faisable et pertinente semble déjà d'accompagner les proches pour éviter leur épuisement qui a un impact ensuite sur le patient (cf. section III 7. Une recherche de plus long terme serait d'adapter éventuellement la TCD de Brown[70,71,77] – une version simplifiée, en pictogrammes, de la thérapie comportementale dialectique, qui est appliquée sur une durée de plusieurs années chez des patients incarcérés pour les crimes notamment de pédophilie dans le cadre de déficience intellectuelle.

D) CRITERES DE JUGEMENT : SUR QUOI LA TCD EST-ELLE EFFICACE FINALEMENT ?

Une autre critique importante du projet est la multiplicité des critères de jugement secondaire. Cependant le but de cette étude n'est pour l'instant de démontrer l'efficacité de la thérapie comportementale dialectique dans la lésion cérébrale mais plutôt de mieux comprendre sur quels paramètres elle permet une amélioration chez les patients.

Classiquement elle est supposée améliorer la régulation émotionnelle et grâce à cette régulation émotionnelle éventuellement la qualité de vie. Cependant dans l'étude pilote les patients progressaient également sur l'estime de soi. Avec les modules de TCD ciblant plus particulièrement la flexibilité et la résolution de problèmes, il était indispensable d'évaluer en vie quotidienne son efficacité sur le comportement et fonctionnement exécutif, même si on n'est pas dans une PEC neuropsychologique classique.

Cependant l'originalité du projet réside aussi dans le fait de dépister les effets de la thérapie pour l'entourage, avec comme postulat qu'une meilleure régulation émotionnelle de la part du patient pourrait diminuer le fardeau des aidants, d'où les questionnaires de fardeau, de régulation émotionnelle, de coping et stress, anxiété et dépression des proches.

La partie SCED quant à elle permet de rendre compte de changements au niveau comportement problématique de manière personnalisée, et « en temps réel », afin de contourner le problème des évaluations uniques post thérapies d'un processus, qui est souvent très fluctuant. Enfin, les SCED corrélationnels à l'échelle de dyades patient proche, a pour but de capturer les influences réciproques des émotions d'un couple, et leur modifications grâce à l'utilisation de compétences de régulation et enfin les conséquences sur les troubles du comportement.

Le projet LA-REPT est venu initialement de constatations cliniques et de données quantitatives pilotes mais ensuite également de données qualitatives. Les entretiens des patients interrogés sur ce que le GREMO leur a apporté est venu interroger la pertinence des critères de jugement choisis initialement, à savoir les questionnaires de qualité de vie et de dysrégulation émotionnelle. Les patients ayant répondu au GREMO (« répondu » autant au sens clinique de réponse à un thérapeutique qu'au sens de répondre en travaillant, révisant, appliquant, généralisant les compétences GREMO à sa vie quotidienne de façon répétée), décrivent des bénéfices non capturés par l'échelle de qualité de vie et de régulation émotionnelle. Le GREMO semble ainsi pour certains un véritable outil de croissance post traumatique, voir une porte d'accès à une « spiritualité », à quelque chose qui dépasse les patients. Les critères de jugement de LA-REPT souhaitaient donc intégrer ces dimensions. **La méthodologie qualitative est à ce titre un trésor incroyable, car elle amène à revoir la pertinence des critères de jugement, non à la lumière de leur validité dans la population et qualité métrologiques (ce qui est généralement fait), mais à la lumière de ce que vivent les patients et non de ce que les cliniciens perçoivent indirectement de leur vécu.** Ici, ce sont les entretiens préliminaires de la partie qualitative de la recherche, qui m'ont amenée à rechercher la littérature sur la croissance post-traumatique et permis d'inclure ces dimensions dans les critères de jugement. Les retours des patients sont d'ailleurs cohérents avec la littérature suggérant que plus une personne est en capacité d'exprimer ses émotions[160], et plus les niveaux de dépression et d'anxiété sont bas [161], plus la croissance post traumatique pourra se mettre en place. L'intervention pourrait donc contribuer à améliorer la CPT.

2. DE LA QUALITE DE VIE OU PLUS DE SENS A SA VIE ?

Le grand combat de la MPR a été de changer le regard sur l'objectif des interventions, à savoir de passer d'une logique de simple réduction des déficiences vers une logique d'améliorer l'activité et surtout la participation, avec comme but ultime d'améliorer la qualité de vie. Le modèle de la CIF [162], enseigné et promu a pu à ce titre valoriser les approches fonctionnelles par rapport aux approches restauratives.

Même si la CIF représente une grande avancée, certains auteurs [163] ont proposé que la CIF n'assume pas encore assez la réalité de la diversité fonctionnelle de tous les êtres humains et qu'elle a uniquement déplacé le problème de la diversité fonctionnelle de la personne à l'environnement, en remplaçant les mots négatifs tel que handicap vers des mots plus positifs tel que restriction d'activité. Ainsi d'autres modèles ont été proposés, tel le « Constructive Functional Diversity » modèle de Patston [163].

"A more radical approach is needed: we must demolish the false dividing line between 'normal' and 'disabled' [meaning impaired] and attack the whole concept of normality. We have to recognize that disablement [impairment] is not merely the state of a small minority of people. It is the normal condition of humanity. "

Basée sur le modèle de Patston, l'objectif de la MPR pourrait être reformulé comme le fait d'améliorer la synergie entre les valeurs importantes pour la personne et sa capacité à tendre vers ces valeurs.

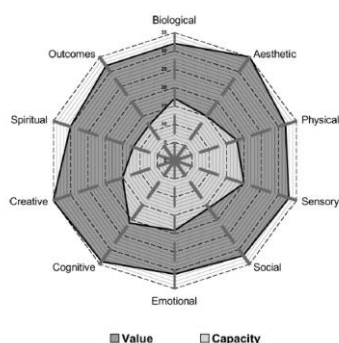


Figure 3. Low functional synergy.

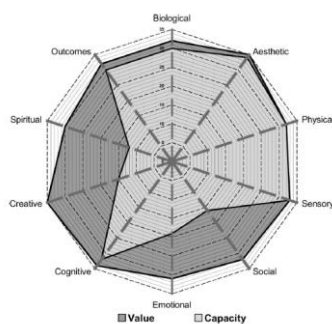


Figure 4. Unbalanced functional synergy.

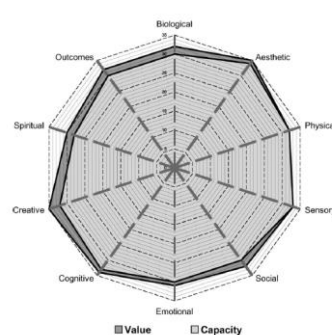


Figure 5. High functional synergy.

Les approches TCC de 3eme génération, telle l'ACT ou la TCD, fait justement un but premier d'aider les patients à avancer vers leurs valeurs, indépendamment d'une amélioration de leurs capacités au lieu d'attendre une amélioration de leurs capacités pour avancer vers leurs valeurs. C'est une approche que se développe en MPR, dans la lésion cérébrale, mais également la douleur chronique, et qui gagnerait à être mieux connue en France.

La Qualité de vie est évaluée en termes de satisfaction/gêne, mais les phrases restent formulées par rapport à une « norme », avec comme objectif implicite dans les études l'utilisant comme critère de jugement principal, de diminuer la gêne et augmenter la satisfaction pour faire parvenir le patient à un état le plus proche possible de la norme (ou d'avant la lésion cérébrale). Cette approche pourrait

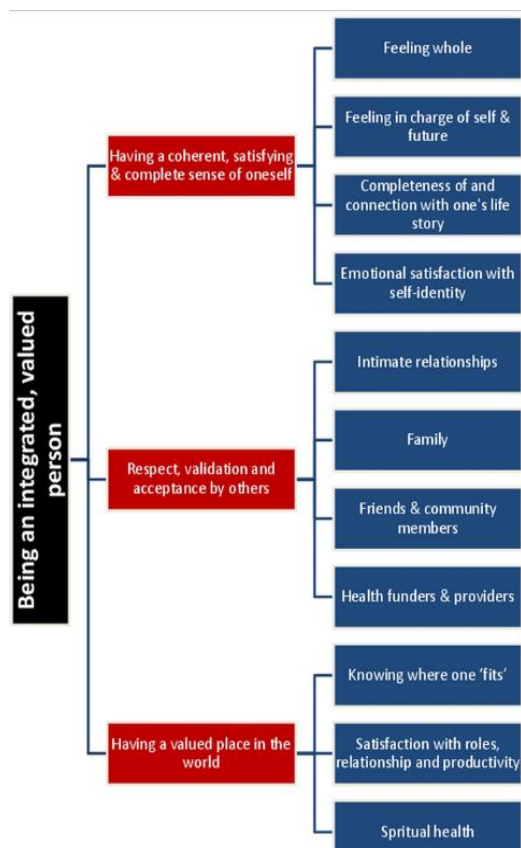
peut-être être nuancée. Le critère principal de LA -REPT est la qualité de vie, du fait de la reconnaissance et robustesse du critère de jugement. Cependant la TCD, telle qu'élaborée par Marsha Linehan, n'a pas pour but d'améliorer la qualité de vie mais d'amener les personnes vers une vie « qui vaut la peine d'être vécue », indépendamment de sa qualité en termes de satisfaction et gêne, qui peuvent rester inchangées/ peu changées, même chez les patients « répondeurs ». Ainsi la MPR, et notamment les prises en charge à distance de l'acquisition de la lésion cérébrale (et de tout handicap), pourraient s'intéresser davantage à la croissance post traumatique, à la transcendance, à la diminution de la dissonance entre valeurs qu'un patient souhaite vivre et sa vie post lésion cérébrale. **Le tableau ci-dessous présente les items des questionnaires qualité de vie, et de croissance post traumatique pour illustrer cette différence de « but » dans les PEC.**

QUESTIONNAIRE DE QUALITE DE VIE DE REFERENCE DANS LA LESION CEREBRALE QUOLIBRI[76]	QUESTIONNAIRE DE CROISSANCE POST TRAUMATIQUE[93]
Êtes-vous satisfait(e) de votre capacité à vous concentrer, par exemple en lisant ou pour suivre le fil d'une conversation? Êtes-vous satisfait(e) de votre capacité à vous exprimer et à comprendre les autres, lors d'une conversation? Êtes-vous satisfait(e) de votre capacité à vous rappeler les questions de tous les jours, par exemple les endroits où vous avez mis vos affaires? Êtes-vous satisfait(e) de votre capacité à trouver des solutions aux problèmes pratiques du quotidien, par exemple ce que vous devez faire si vous perdez vos clés? Êtes-vous satisfait(e) de votre capacité à prendre des décisions? Êtes-vous satisfait(e) de votre capacité à vous orienter, pour trouver votre chemin? Êtes-vous satisfait(e) de la rapidité de votre pensée? Êtes-vous satisfait(e) de votre niveau d'énergie? Êtes-vous satisfait(e) de votre niveau de motivation à faire les choses? Êtes-vous satisfait(e) de l'estime que vous avez de vous-même, de votre valeur à vos yeux? Êtes-vous satisfait(e) de votre apparence extérieure? Êtes-vous satisfait(e) de ce que vous avez réalisé ou accompli depuis votre traumatisme crânien? Êtes-vous satisfait(e) de la façon dont vous vous percevez vous-même? Êtes-vous satisfait(e) de la façon dont vous voyez votre avenir? Êtes-vous satisfait(e) de votre niveau d'indépendance par rapport aux autres? Êtes-vous satisfait(e) de votre capacité à vous déplacer à l'extérieur? Êtes-vous satisfait(e) de votre capacité à réaliser les tâches domestiques, par exemple cuisiner ou faire des réparations? Êtes-vous satisfait(e) de votre capacité à gérer votre budget personnel? Êtes-vous satisfait(e) de votre participation au travail ou en formation (scolarité)? Êtes-vous satisfait(e) de votre capacité à participer à des activités de loisirs, par exemple sports, hobby, fêtes? Êtes-vous satisfait(e) de la manière dont vous prenez en charge	J'ai changé de priorités dans la vie J'apprécie plus ma vie à sa vraie valeur Je me suis intéressé(e) à de nouvelles choses J'ai acquis plus de confiance en moi J'ai développé une certaine spiritualité Je vois mieux que je peux compter sur les autres en cas de problème J'ai donné une nouvelle direction à ma vie Je me sens plus proche des autres Je suis plus enclin(e) à exprimer mes émotions Je suis davantage capable de gérer des situations difficiles Je fais de ma vie quelque chose de meilleur J'accepte mieux la façon dont les choses se passent J'apprécie davantage chaque jour de ma vie De nouvelles opportunités sont apparues qui ne seraient pas apparues autrement J'ai plus de compassion pour les autres J'investis plus mes relations aux autres J'essaie davantage de changer les choses qui ont besoin d'être changées J'ai une foi religieuse plus grande J'ai découvert que je suis plus fort(e) que ce que je pensais J'ai vraiment compris à quel point les gens pouvaient être formidables J'accepte mieux le fait d'avoir besoin des autres

votre propre vie?¹ Êtes-vous satisfait(e) de votre capacité à éprouver de l'affection envers les autres, par exemple votre partenaire, famille, amis? Êtes-vous satisfait(e) de vos relations avec les membres de votre famille? Êtes-vous satisfait(e) de vos relations avec vos amis? Êtes-vous satisfait(e) de la relation que vous avez avec votre partenaire ou du fait de ne pas avoir un partenaire? Êtes-vous satisfait(e) de votre vie sexuelle? Êtes-vous satisfait(e) de l'attitude et du regard des autres envers vous? Êtes-vous gêné(e) par un sentiment de solitude, même lorsque vous vous trouvez en présence d'autres personnes ? Êtes-vous gêné(e) par un sentiment d'ennui ? Êtes-vous gêné(e) par un sentiment d'anxiété ? Êtes-vous gêné(e) par un sentiment de tristesse ou de dépression ? Êtes-vous gêné(e) par un sentiment de colère ou d'agressivité ? Êtes-vous gêné(e) par la lenteur et/ou la maladresse de vos mouvements? Êtes-vous gêné(e) en dehors du traumatisme crânien par les suites d'autres blessures, que vous avez subies au moment de l'accident? Êtes-vous gêné(e) par la douleur, y compris les maux de tête? Êtes-vous gêné(e) par des difficultés à voir ou entendre? Globalement, êtes-vous gêné(e) par les suites de votre traumatisme crânien?	
--	--

Il est également intéressant de noter comme les items du QUOLBRI, questionnaire de référence de qualité de vie après LCA, ne prend pas en compte certaines préoccupations retrouvées comme clefs auprès des patients dans la construction d'un projet de vie.

Thèmes retrouvés comme clefs dans la reconstruction d'une identité après traumatisme crânien[96] :



Ainsi, bien que le critère de jugement principal du projet LA-REPT soit la qualité de vie, **il sera intéressant de voir si la croissance post traumatique ne s'améliore pas plus que la qualité de vie**, et surtout d'explorer qualitativement les effets du GREMO sur la construction du projet de vie.

3. CONCLUSION

A) MES REVES POUR LA MPR DE DEMAIN ET MES PROJETS POUR Y TENDRE

L'HDR est l'occasion de relire les projets passés pour éclairer dans lesquels s'engager dans le futur. Voilà ce que seront j'espère, mes priorités pour la recherche et ma pratique clinique futures:

-**Toujours plus de coopération entre MPR neurologique et psychiatrie** ; de décroisement, et l'arrêt de catégorisation des patients comme « c'est neuro »/ « c'est psy » mais unification des PEC basées sur les besoins et objectifs du patient.

-Toujours plus d'**interdisciplinarité**, pour enrichir chercheurs et étudiants dans leurs réflexions à la lumière de ce qu'amènent les autres disciplines.

-Moins de murs entre clinique et recherche, objectif où les SCED joueront peut-être un rôle important.

-**Sortir de la recherche à double vitesse** : promouvoir un cadre institutionnel et réglementaire où et étudiants et cliniciens et chercheurs puissent solliciter un CPP ; promouvoir des mémoires et thèses utiles et publiables, afin que le travail des étudiants, et le temps investi par leurs directeurs, contribue à faire avancer la recherche clinique.

-Favoriser la **recherche participative et les méthodologies qualitatives**, pour poser les questions les plus pertinentes pour les patients, les premiers concernés par nos recherches : être au service de ce qui est important pour les patients, pas que pour les chercheurs passionnés de savoir et pas que pour cliniciens centrés sur leur diagnostic.

-Une **MPR inclusive dans ses thèmes de recherche**, qui s'intéresse et cherche des pistes pour les patients « qui ne rentrent pas dans les cases », ne sont « pas motivés », qui semblent impossibles à engager.

-**Moins de cloisonnement entre rééducation cognitive et psychologie TCC**, pour notamment éviter la création chronophage de programmes de régulation émotionnelle, et cognition sociale issues des connaissances neuropsychologiques, alors que la littérature TCC a 30 ans d'avance sur beaucoup de ces concepts, en utilisant uniquement un autre langage.

-Un accent sur les **émotions comme préalable à toutes les prises en charge cognitives**

-Rattraper l'immense retard **d'investissement des TCC en MPR** et promouvoir les prises en charge psychologiques basées sur les preuves. Le congrès EMPR de 2023 sur les TCC en rééducation pourra peut-être aider à cet avancement.

-Explorer le concept et mécanismes de la **croissance post-traumatique** et ses composants au lieu de se focaliser sur la qualité de vie et participation uniquement.

-Développer la recherche sur les interventions en phase chronique de lésion cérébrale, et **un meilleur investissement du champ médico-social par la MPR universitaire.**

B) RECHERCHE ET ACTIVITE UNIVERSITAIRE EN MEDICO-SOCIAL ?

La position de MCU-PH en médico-social est passionnante mais complexe à tenir. La large file active suivie à EMOI TC (250 patients + familles) avec des suivis de 2 à 7 ans, offre un potentiel de recrutement pour les recherches important et une réflexion sur les problématique des patients facilitée par les suivis longs. Cependant conduire des recherche en médico-social présente la difficulté de trouver des thèmes de recherche pertinents aux yeux des patients suivis et motivant pour les problématiques rencontrées par équipes.

Le laboratoire INSERM 1114 auquel j'ai la chance d'appartenir offre un potentiel immense d'outils et collaborations neuroscientifiques tant en terme de thématiques (en particulier sur les thématique du laboratoire sur l'attention, l'apathie et la mémoire autobiographique) que en terme d'outils (EEG en particulier). Ces approches sont nécessaires pour éviter que la recherche dans le médico-social ne soit justement « que » médico-sociales. Les neurosciences permettent d'explorer les mécanismes d'interventions ciblant l'apathie, la fatigabilité ou l'inflexibilité mentale (parmi les problématiques des patients cérébrolésés les plus handicapantes en phase chronique). Elles peuvent aussi permettre la modélisation de phénomènes explorés par les sciences humaines et sociales, tel le libre arbitre (voir par exemple le réseau [Neurophilosophy of Free Will \(neurophil-freewill.org\)](http://neurophil-freewill.org)).

Cependant, avant d'engager les équipe et les patients dans ce type d'approches, il semble indispensable que ceux-ci en voient l'intérêt et la faisabilité et en particulier, que les recherches en neurosciences ne soient pas perçues comme déconnectées (1) des questionnement cliniques des équipes ; (2) des préoccupations principales de familles et patients ; (3) de la réalité du vécu de la lésion cérébrale.

Les neurosciences guident la clinique, la thérapeutique, nos connaissance des phénomènes rencontrés chez les patients, et ont révolutionnés tant la MPR que la psychiatrie. En même temps, une autre approche possible, peut-être complémentaire, serait que la recherche participative, les théories des sciences humaines et sociales, les données qualitatives du vécu des patients, les résultats de cas uniques étudiés par SCED, permettent à recherche clinique, mais également aux neurosciences, de poser les questions les plus pertinentes aux yeux des patients. C'est en tout cas l'approche qui semble actuellement la plus acceptable pour implémenter la recherche en médico-social et créer progressivement des ponts entre clinique et recherche.

C) LA THERAPIE COMPORTEMENTALE DIALECTIQUE

Le fait que mes collègues du laboratoire Inserm m'aient fait découvrir la thérapie comportementale dialectique a été le fondement des projets de recherches que je mène ou souhaite mener actuellement. Il ne s'agit pas seulement d'une thérapie rigoureuse, validée, et ayant fait l'objet d'une

recherche abondante et de grande qualité dans la littérature internationale[74,164] et qui semble efficace sur la difficulté de régulation émotionnelle chez le patient avec lésion cérébrale.

C'est aussi une thérapie qui m'a amenée à reconsidérer complètement ma pratique de médecin MPR, ma propre manière cognitive de fonctionner en équipe et personnellement :

-l'accent sur la dialectique, de trouver la synthèse entre des points de vue opposés, qui ont tous une part de vérité,

-son principe de se placer d'égal à égal avec les patients, et son **postulat que les patients ne sont pas des personnes fragiles** mais qu'on peut et qu'on doit être parfaitement transparent avec eux, leur apprendre des compétences et non les écouter et « rassurer », ce qui peut être invalidant,

-son accent sur les techniques et le **temps nécessaire pour engager un patient dans une thérapie**,

-sa grande résonance avec la thématique **d'objectifs personnalisés** par des fiches d'auto-observation permettant d'observer si on avance vers les objectifs qu'on s'est fixés,

-sa philosophie de **donner du choix**, et donner un éventail de compétences plutôt que de dire aux patients ce qu'il doivent faire pour aller mieux (je profite de cette conclusion pour une dédicace spéciale à un patient de EMOI TC, Arthur, qui appelle le manuel GREMO, le « catalogue » - terme, qui insiste sur le choix donné aux personnes d'utiliser ou non telle ou telle compétence dans telle ou telle situation). Il s'agit d'un outil qui peut sans doute promouvoir le **libre arbitre**, et les résultats qualitatifs de LA-REPT seraient un premier pas vers des études sur ce thème.

-son **approche écologique**, qui se focalise sur la pratique de compétences en vie quotidienne, et avec des outils ingénieux et pragmatiques (notamment coaching téléphonique et par sms d'utilisation de compétences pendant les crises que traverse le patient dans la vie de tous les jours)[165]

-son accent sur les **émotions comme préalable à toute activité dirigée vers un but** : la compétence de TCD « résolution de problèmes » est un excellent exemple de partir des émotions pour travailler ensuite la flexibilité et la planification du point de vue exécutif.

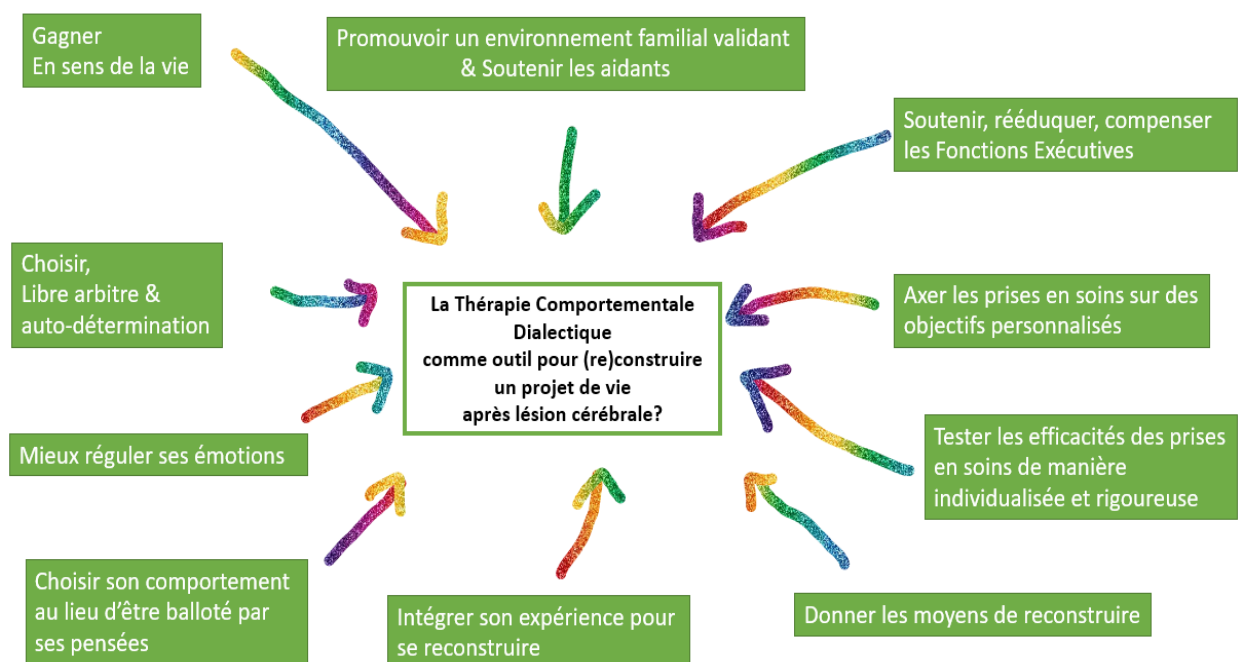
-son format de groupe qui dépasse largement les groupes de paroles où les personnes expriment uniquement leur vécu, pour aller vers des groupes où les personnes s'enrichissent mutuellement dans leur apprentissage de compétences et leur croissance, tout en partageant leur vécu de façon personnelle et constructive,

-son accent sur le **non jugement et la validation**, deux compétences simples qui peuvent dramatiquement changer le niveau d'activation émotionnelle[113,116] de la personne, de son entourage, et d'équipes entières[166]

-son accent sur l'instant présent, la pleine conscience[167] au lieu de uniquement analyser son histoire comme dans d'autres prises en charge psychologiques,

-enfin ce changement de paradigme de ne pas essayer à tout prix de gagner en qualité de vie mais de construire une vie qui vaut la peine d'être vécue, qui est un objectif beaucoup plus réaliste et qui amène plus la notion de **sens de la vie**.

Au total, pour revenir au début de cette HDR, au-delà d'aider les patients à réguler leurs émotions, la TCD semble donner un cadre pertinent pour aider les patients à reconstruire un projet de vie après lésion cérébrale. Elle semble réunir, en une thérapie validée, traduite en français, manualisée, avec supports écrits, youtube, et formation relativement courte et simple, une grande partie des composants abordés dans cette HDR. J'espère que la recherche future que nous mènerons à EMOI TC, de manière participative et transdisciplinaire permettra progressivement d'en donner les preuves, tant sur l'efficacité que sur la faisabilité pour les professionnels, et l'« acceptabilité » (mais espérons le plutôt enthousiasme et investissement) pour les patients et familles.



BIBLIOGRAPHIE

- [1] Crowe LM, Catroppa C, Babl FE, Anderson V. Intellectual, behavioral, and social outcomes of accidental traumatic brain injury in early childhood. *Pediatrics* 2012;129:e262-268. <https://doi.org/10.1542/peds.2011-0438>.
- [2] Crowe LM, Catroppa C, Babl FE, Rosenfeld JV, Anderson V. Timing of Traumatic Brain Injury in Childhood and Intellectual Outcome. *J Pediatr Psychol* 2012;37:745–54. <https://doi.org/10.1093/jpepsy/jss070>.
- [3] Crowe LM, Catroppa C, Babl FE, Anderson V. Executive function outcomes of children with traumatic brain injury sustained before three years. *Child Neuropsychol* 2013;19:113–26. <https://doi.org/10.1080/09297049.2011.651079>.
- [4] Krasny-Pacini A, Daudey É, François P-O, Vidal C, Vautravers P, Bagot E. Utilisation du Goal Attainment Scaling en rééducation cognitive et applicabilité à la rééducation de l'aphasie n.d.
- [5] Krasny-Pacini A, Evans J, Sohlberg MM, Chevignard M. Proposed Criteria for Appraising Goal Attainment Scales Used as Outcome Measures in Rehabilitation Research. *Arch Phys Med Rehabil* 2016;97:157–70. <https://doi.org/10.1016/j.apmr.2015.08.424>.
- [6] Krasny-Pacini A, Hiebel J, Pauly F, Godon S, Chevignard M. Goal Attainment Scaling in rehabilitation: A literature-based update. *Ann Phys Rehabil Med* 2013;56:212–30. <https://doi.org/10.1016/j.rehab.2013.02.002>.
- [7] Estival S, Krasny-Pacini A, Laurier V, Maugard C, Thuilleaux D, Postal V. Cognitive Training Targeting Planning Dysfunction in Adults with Prader-Willi Syndrome: Brief Report of a Study Protocol. *Dev Neurorehabilitation* 2019;22:569–75. <https://doi.org/10.1080/17518423.2019.1642414>.
- [8] Lebrault H, Chavanne C, Abada G, Latinovic B, Varillon S, Bertrand A-F, et al. Exploring the use of the Cognitive Orientation to daily Occupational Performance approach (CO-OP) with children with executive functions deficits after severe acquired brain injury: A single case experimental design study. *Ann Phys Rehabil Med* 2021;64:101535. <https://doi.org/10.1016/j.rehab.2021.101535>.
- [9] Krasny-Pacini A, Pauly F, Hiebel J, Godon S, Isner-Horobeti M-E, Chevignard M. Feasibility of a shorter Goal Attainment Scaling method for a pediatric spasticity clinic - The 3-milestones GAS. *Ann Phys Rehabil Med* 2017;60:249–57. <https://doi.org/10.1016/j.rehab.2017.01.005>.
- [10] Krasny-Pacini A, Evans J. Single-case experimental designs (SCEDs) to assess intervention effectiveness in rehabilitation: A practical guide. *Ann Phys Rehabil Med* 2017. <https://doi.org/10.1016/j.rehab.2017.12.002>.
- [11] Graham JE, Karmarkar AM, Ottenbacher KJ. Small Sample Research Designs for Evidence-Based Rehabilitation: Issues and Methods. *Arch Phys Med Rehabil* 2012;93:S111–6. <https://doi.org/10.1016/j.apmr.2011.12.017>.
- [12] HAS. Méthodologie pour le développement clinique des dispositifs médicaux n.d.
- [13] Guyatt GH, Heyting A, Jaeschke R, Keller J, Adachi JD, Roberts RS. N of 1 randomized trials for investigating new drugs. *Control Clin Trials* 1990;11:88–100.
- [14] Traité de neuropsychologie de l'enfant. 2e édition. Louvain-la-Neuve: De Boeck Supérieur; 2020.
- [15] Rééducation cognitive chez l'enfant. Boeck Supér 2021. <https://www.deboecksuperieur.com/ouvrage/9782353274406-reeducation-cognitive-chez-l-enfant> (accessed July 12, 2021).

- [16] Vibrac C, Avias A, François P-O, Isner-Horobeti M-E, Krasny-Pacini A. Charlie Chaplin and gesture training in severe aphasia: A controlled double-blind single-case experimental design. *Ann Phys Rehabil Med* 2021;64:101356. <https://doi.org/10.1016/j.rehab.2019.12.010>.
- [17] Gafurov BS, Levin JR. ExPRT (Excel Package of Randomisation Tests): Statistical Analyses of Single-Case intervention Data. 2017.
- [18] Kratochwill TR, Hitchcock JH, Horner RH, Levin JR, Odom SL, Rindskopf DM, et al. Single-Case Intervention Research Design Standards. *Remedial Spec Educ* 2013;34:26–38. <https://doi.org/10.1177/0741932512452794>.
- [19] Kravitz R, Nb G, Hc K, RI K, Eb L, Wd P, et al. Design and Implementation of N-of-1 Trials: A User's Guide. AHRQ Publ No 1314-EHC122-EF Rockv MD Agency Healthc Res Qual Febr 2014 WwwweffectivehealthcareahrqgovN- 1-Trialscfm n.d.
- [20] Ylvisaker M. Intervention and Support: Individuals with Self-Regulatory (Executive Function) Impairment n.d.
- [21] Ylvisaker M, McPherson K, Kayes N, Pellett E. Metaphoric identity mapping: facilitating goal setting and engagement in rehabilitation after traumatic brain injury. *Neuropsychol Rehabil* 2008;18:713–41. <https://doi.org/10.1080/09602010802201832>.
- [22] Linehan MM. DBT® Skills Training Manual. 2nd ed. New York: Guilford Press; 2015.
- [23] Bemmouna D, Weiner L, Weibel S, Kuppelin M. Manuel GREMO- Groupe de Régulation EMOTIONnelle 2021.
- [24] Knight E, Norman A, Simpson GK. Living with suicidality following traumatic brain injury: a qualitative study. *Brain Inj* 2020;34:1010–9. <https://doi.org/10.1080/02699052.2020.1763463>.
- [25] Watkins ER, Roberts H. Reflecting on rumination: Consequences, causes, mechanisms and treatment of rumination. *Behav Res Ther* 2020;127:103573. <https://doi.org/10.1016/j.brat.2020.103573>.
- [26] Spikman JM, Boelen DHE, Pijnenborg GHM, Timmerman ME, van der Naalt J, Fasotti L. Who benefits from treatment for executive dysfunction after brain injury? Negative effects of emotion recognition deficits. *Neuropsychol Rehabil* 2013;23:824–45. <https://doi.org/10.1080/09602011.2013.826138>.
- [27] Rath JF, Hradil AL, Litke DR, Diller L. Clinical applications of problem-solving research in neuropsychological rehabilitation: Addressing the subjective experience of cognitive deficits in outpatients with acquired brain injury. *Rehabil Psychol* 2011;56:320–8. <https://doi.org/10.1037/a0025817>.
- [28] Rath JF, Simon D, Langenbahn DM, Sherr RL, Diller L. Group treatment of problem-solving deficits in outpatients with traumatic brain injury: A randomised outcome study. *Neuropsychol Rehabil* 2003;13:461–88. <https://doi.org/10.1080/09602010343000039>.
- [29] Whiting D, Deane F, McLeod H, Ciarrochi J, Simpson G. Can acceptance and commitment therapy facilitate psychological adjustment after a severe traumatic brain injury? A pilot randomized controlled trial. *Neuropsychol Rehabil* 2019;1–24. <https://doi.org/10.1080/09602011.2019.1583582>.
- [30] Kangas M, McDonald S. Is it time to act? The potential of acceptance and commitment therapy for psychological problems following acquired brain injury. *Neuropsychol Rehabil* 2011;21:250–76. <https://doi.org/10.1080/09602011.2010.540920>.
- [31] Full article: Is it time to act? The potential of acceptance and commitment therapy for psychological problems following acquired brain injury n.d.

- <https://www.tandfonline.com/doi/full/10.1080/09602011.2010.540920> (accessed December 6, 2021).
- [32] V D, enbosch. Hexaflex La fusion cognitive VS la défusion cognitive. Form Thérapie ACT 2012. <http://act-therapie.com/hexaflex-la-fusion-cognitive-vs-la-defusion-cognitive/> (accessed December 7, 2021).
 - [33] Lynch TR, Cheavens J. Dialectical Behavior Therapy for Depression with Comorbid Personality Disorder: An Extension of Standard Dialectical Behavior Therapy with a Special Emphasis on the Treatment of Older Adults. In: Dimeff LA, Koerner K, Linehan MM, editors. *Dialect. Behav. Ther. Clin. Pract. Appl. Disord. Settings*. 1st edition, New York: Guilford Press; 2007.
 - [34] SOFMER- HAS. Troubles du Comportement chez les Traumatisés Crâniens : Quelles options thérapeutiques ? Recommandations 2015. https://www.sofmer.com/download/sofmer/sofmer_tc_Recommandations.pdf (accessed January 17, 2018).
 - [35] Bartoli F, Pompili M, Lillia N, Crocamo C, Salemi G, Clerici M, et al. Rates and correlates of suicidal ideation among stroke survivors: a meta-analysis. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 2017;88:498–504. <https://doi.org/10.1136/jnnp-2017-315660>.
 - [36] Godefroy O, Brigitte A, Philippe A, Mira D-HC, Olivier G, Didier LG, et al. [Frontal dysexecutive syndromes]. *Rev Neurol (Paris)* 2004;160:899–909.
 - [37] Godefroy O, Jeannerod M, Allain P, Le Gall D. [Frontal lobe, executive functions and cognitive control]. *Rev Neurol (Paris)* 2008;164 Suppl 3:S119-127. [https://doi.org/10.1016/S0035-3787\(08\)73302-2](https://doi.org/10.1016/S0035-3787(08)73302-2).
 - [38] Linehan MM. *Dialectical Behavior Therapy in Clinical Practice: Applications across Disorders and Settings*. 1st edition. New York: Guilford Press; 2007.
 - [39] Marwaha S, Price C, Scott J, Weich S, Cairns A, Dale J, et al. Affective instability in those with and without mental disorders: A case control study. *J Affect Disord* 2018;241:492–8. <https://doi.org/10.1016/j.jad.2018.08.046>.
 - [40] Mazefsky CA, Herrington J, Siegel M, Scarpa A, Maddox BB, Scahill L, et al. The role of emotion regulation in autism spectrum disorder. *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry* 2013;52:679–88. <https://doi.org/10.1016/j.jaac.2013.05.006>.
 - [41] Westerhof-Evers HJ, Visser-Keizer AC, Fasotti L, Schönherr MC, Vink M, van der Naalt J, et al. Effectiveness of a Treatment for Impairments in Social Cognition and Emotion Regulation (T-ScEmo) After Traumatic Brain Injury: A Randomized Controlled Trial. *J Head Trauma Rehabil* 2017;32:296–307. <https://doi.org/10.1097/HTR.0000000000000332>.
 - [42] May M, Milders M, Downey B, Whyte M, Higgins V, Wojcik Z, et al. Social Behavior and Impairments in Social Cognition Following Traumatic Brain Injury. *J Int Neuropsychol Soc JINS* 2017;23:400–11. <https://doi.org/10.1017/S1355617717000182>.
 - [43] Rosenberg H, McDonald S, Rosenberg J, Frederick Westbrook R. Amused, flirting or simply baffled? Is recognition of all emotions affected by traumatic brain injury? *J Neuropsychol* 2018;12:145–64. <https://doi.org/10.1111/jnp.12109>.
 - [44] Bosco FM, Gabbatore I, Angeleri R, Zettin M, Parola A. Do executive function and theory of mind predict pragmatic abilities following traumatic brain injury? An analysis of sincere, deceitful and ironic communicative acts. *J Commun Disord* 2018;75:102–17. <https://doi.org/10.1016/j.jcomdis.2018.05.002>.
 - [45] Wood RL, Doughty C. Alexithymia and avoidance coping following traumatic brain injury. *J Head Trauma Rehabil* 2013;28:98–105. <https://doi.org/10.1097/HTR.0b013e3182426029>.

- [46] Cassel A, McDonald S, Kelly M, Togher L. Learning from the minds of others: A review of social cognition treatments and their relevance to traumatic brain injury. *Neuropsychol Rehabil* 2019;29:22–55. <https://doi.org/10.1080/09602011.2016.1257435>.
- [47] Rosenberg H, Dethier M, Kessels RPC, Westbrook RF, McDonald S. Emotion perception after moderate-severe traumatic brain injury: The valence effect and the role of working memory, processing speed, and nonverbal reasoning. *Neuropsychology* 2015;29:509–21. <https://doi.org/10.1037/neu0000171>.
- [48] McDonald S, Fisher A, Flanagan S, Honan CA. Impaired perception of sincerity after severe traumatic brain injury. *J Neuropsychol* 2017;11:291–304. <https://doi.org/10.1111/jnp.12086>.
- [49] Thompson SC, Sobolew-Shubin A, Galbraith ME, Schwankovsky L, Cruzen D. Maintaining perceptions of control: Finding perceived control in low-control circumstances. *J Pers Soc Psychol* 1993;64:293–304. <https://doi.org/10.1037/0022-3514.64.2.293>.
- [50] Bolger N, DeLongis A. Effects of Daily Stress on Negative Mood n.d.:11.
- [51] van der Horn HJ, Liemburg EJ, Aleman A, Spikman JM, van der Naalt J. Brain Networks Subservicing Emotion Regulation and Adaptation after Mild Traumatic Brain Injury. *J Neurotrauma* 2016;33:1–9. <https://doi.org/10.1089/neu.2015.3905>.
- [52] van der Horn HJ, Out ML, de Koning ME, Mayer AR, Spikman JM, Sommer IE, et al. An integrated perspective linking physiological and psychological consequences of mild traumatic brain injury. *J Neurol* 2019. <https://doi.org/10.1007/s00415-019-09335-8>.
- [53] Katsifaraki M, Wood RL. The impact of alexithymia on burnout amongst relatives of people who suffer from traumatic brain injury. *Brain Inj* 2014;28:1389–95. <https://doi.org/10.3109/02699052.2014.919538>.
- [54] Calkins SD. Origins and Outcomes of Individual Differences in Emotion Regulation. *Monogr Soc Res Child Dev* 1994;59:53–72. <https://doi.org/10.2307/1166138>.
- [55] Moore GA. Parent Conflict Predicts Infants' Vagal Regulation in Social Interaction. *Dev Psychopathol* 2010;22:23–33. <https://doi.org/10.1017/S095457940999023X>.
- [56] Nolen-Hoeksema S. The Role of Rumination in Depressive Disorders and Mixed Anxiety/Depressive Symptoms n.d.:8.
- [57] Sheese BE, Voelker P, Posner MI, Rothbart MK. Genetic variation influences on the early development of reactive emotions and their regulation by attention. *Cognit Neuropsychiatry* 2009;14:332–55. <https://doi.org/10.1080/13546800902844064>.
- [58] Larsen RJ. Affect Intensity and Reactions to Daily Life Events n.d.:12.
- [59] Mazaux JM, North P, Bilz L, Muller F, Belio C, Joseph PA. Rééducation: L'approche holistique dans la prise en charge des syndromes dysexécutifs. *J Réadapt Médicale Prat Form En Médecine Phys Réadapt* 2006;26:29–33. [https://doi.org/10.1016/S0242-648X\(06\)70172-4](https://doi.org/10.1016/S0242-648X(06)70172-4).
- [60] Cantor J, Ashman T, Dams-O'Connor K, Dijkers MP, Gordon W, Spielman L, et al. Evaluation of the short-term executive plus intervention for executive dysfunction after traumatic brain injury: a randomized controlled trial with minimization. *Arch Phys Med Rehabil* 2014;95:1-9.e3. <https://doi.org/10.1016/j.apmr.2013.08.005>.
- [61] Westerhof-Evers HJ, Visser-Keizer AC, Fasotti L, Spikman JM. Social cognition and emotion regulation: a multifaceted treatment (T-ScEmo) for patients with traumatic brain injury. *Clin Rehabil* 2019;33:820–33. <https://doi.org/10.1177/0269215519829803>.

- [62] Cattelani R, Zettin M, Zoccolotti P. Rehabilitation treatments for adults with behavioral and psychosocial disorders following acquired brain injury: a systematic review. *Neuropsychol Rev* 2010;20:52–85. <https://doi.org/10.1007/s11065-009-9125-y>.
- [63] Ownsworth T, Gracey F. *Cognitive Behavioural Therapy for People with Brain Injury*. Routledge Handbooks Online; 2017. <https://doi.org/10.4324/9781315629537.ch37>.
- [64] Cullen B, Pownall J, Cummings J, Baylan S, Broomfield N, Haig C, et al. Positive Psychotherapy in ABI Rehab (PoPsTAR): A pilot randomised controlled trial. *Neuropsychol Rehabil* 2018;28:17–33. <https://doi.org/10.1080/09602011.2015.1131722>.
- [65] Karagiorgou O, Evans JJ, Cullen B. Post-traumatic growth in adult survivors of brain injury: a qualitative study of participants completing a pilot trial of brief positive psychotherapy. *Disabil Rehabil* 2018;40:655–9. <https://doi.org/10.1080/09638288.2016.1274337>.
- [66] Ashworth F, Evans JJ, McLeod H. *Third Wave Cognitive and Behavioural Therapies*. Routledge Handbooks Online; 2017. <https://doi.org/10.4324/9781315629537.ch38>.
- [67] Coyle TN, Brill CD, Aunon FM, Peterson AP, Gasser ML, Kuehn KS, et al. Beginning to envision a life worth living: An introduction to pretreatment sessions in dialectical behavior therapy. *Psychotherapy* 2019;56:21–7. <https://doi.org/10.1037/pst0000205>.
- [68] Neacsiu AD, Eberle JW, Kramer R, Wiesmann T, Linehan MM. Dialectical behavior therapy skills for transdiagnostic emotion dysregulation: a pilot randomized controlled trial. *Behav Res Ther* 2014;59:40–51. <https://doi.org/10.1016/j.brat.2014.05.005>.
- [69] Axelrod SR. *Dialectical Behaviour Therapy for Substance Use Disorders*. *Oxf Handb Dialect Behav Ther* 2018. <https://doi.org/10.1093/oxfordhb/9780198758723.013.16>.
- [70] Brown JF. Improving Accessibility to Dialectical Behaviour Therapy for Individuals with Cognitive Challenges. *Oxf Handb Dialect Behav Ther* 2018. <https://doi.org/10.1093/oxfordhb/9780198758723.013.24>.
- [71] Brown JF, Brown MZ, Dibiasio P. Treating Individuals With Intellectual Disabilities and Challenging Behaviors With Adapted Dialectical Behavior Therapy. *J Ment Health Res Intellect Disabil* 2013;6:280–303. <https://doi.org/10.1080/19315864.2012.700684>.
- [72] Harned MS, Schmidt SC. Integrating Post-Traumatic Stress Disorder Treatment into Dialectical Behaviour Therapy. *Oxf Handb Dialect Behav Ther* 2018. <https://doi.org/10.1093/oxfordhb/9780198758723.013.17>.
- [73] Niedtfeld I, Bohus M. Understanding the Bio in the Biosocial Theory of BPD. *Oxf Handb Dialect Behav Ther* 2018. <https://doi.org/10.1093/oxfordhb/9780198758723.013.46>.
- [74] Binks CA, Fenton M, McCarthy L, Lee T, Adams CE, Duggan C. Psychological therapies for people with borderline personality disorder. *Cochrane Database Syst Rev* 2006;CD005652. <https://doi.org/10.1002/14651858.CD005652>.
- [75] Dan-Glauser ES, Scherer KR. The Difficulties in Emotion Regulation Scale (DERS): Factor Structure and Consistency of a French Translation. *Swiss J Psychol* 2013;72:5–11. <https://doi.org/10.1024/1421-0185/a000093>.
- [76] von Steinbüchel N, Wilson L, Gibbons H, Hawthorne G, Höfer S, Schmidt S, et al. Quality of Life after Brain Injury (QOLIBRI): scale validity and correlates of quality of life. *J Neurotrauma* 2010;27:1157–65. <https://doi.org/10.1089/neu.2009.1077>.
- [77] Brown JF. *The Emotion Regulation Skills System for Cognitively Challenged Clients: A DBT®-Informed Approach*. 1er édition. New York: Guilford Press; 2016.

- [78] Walter H. *Neurophilosophy of Free Will: From Libertarian Illusions to a Concept of Natural Autonomy*. MIT Press; 2009.
- [79] Pickard H. Psychopathology and the Ability to Do Otherwise. *Philos Phenomenol Res* 2015;90:135–63. <https://doi.org/10.1111/phpr.12025>.
- [80] Meynen G. Free will and mental disorder: Exploring the relationship. *Theor Med Bioeth* 2010;31:429–43. <https://doi.org/10.1007/s11017-010-9158-5>.
- [81] Frankfurt HG. Freedom of the Will and the Concept of a Person. *J Philos* 1971;68:5–20. <https://doi.org/10.2307/2024717>.
- [82] Bergson H. *Matie?re et me?moire: essai sur la relation du corps a? l'esprit*. Chicoutimi: J.-M. Tremblay; 2003. <https://doi.org/10.1522/cla.beh.mat>.
- [83] Sripada C. Self-expression: a deep self theory of moral responsibility. *Philos Stud* 2016;173:1203–32. <https://doi.org/10.1007/s11098-015-0527-9>.
- [84] Tedeschi RG, Calhoun LG. TARGET ARTICLE: "Posttraumatic Growth: Conceptual Foundations and Empirical Evidence." *Psychol Inq* 2004;15:1–18. https://doi.org/10.1207/s15327965pli1501_01.
- [85] Magne H, Jaafari N, Voyer M. La croissance post-traumatique : un concept méconnu de la psychiatrie française. *L'Encéphale* 2021;47:143–50. <https://doi.org/10.1016/j.encep.2020.05.021>.
- [86] Bonanno GA. Loss, trauma, and human resilience: have we underestimated the human capacity to thrive after extremely aversive events? *Am Psychol* 2004;59:20–8. <https://doi.org/10.1037/0003-066X.59.1.20>.
- [87] Levine SZ, Laufer A, Stein E, Hamama-Raz Y, Solomon Z. Examining the relationship between resilience and posttraumatic growth. *J Trauma Stress* 2009;22:282–6. <https://doi.org/10.1002/jts.20409>.
- [88] What is resilience? n.d. <https://www.stockholmresilience.org/research/research-news/2015-02-19-what-is-resilience.html> (accessed December 13, 2021).
- [89] Contamin E. *Les 5 cercles de la résilience* 2021. <https://www.editions-larousse.fr/livre/les-5-cercles-de-la-resilience-9782036000537> (accessed December 13, 2021).
- [90] Tedeschi RG, Calhoun LG. The Posttraumatic Growth Inventory: measuring the positive legacy of trauma. *J Trauma Stress* 1996;9:455–71. <https://doi.org/10.1007/BF02103658>.
- [91] Sekely A, Zakzanis KK. The relationship between post-traumatic growth and return to work following mild traumatic brain injury. *Disabil Rehabil* 2019;41:2669–75. <https://doi.org/10.1080/09638288.2018.1476598>.
- [92] Powell T, Gilson R, Collin C. TBI 13 years on: factors associated with post-traumatic growth. *Disabil Rehabil* 2012;34:1461–7. <https://doi.org/10.3109/09638288.2011.644384>.
- [93] Velasco L, Rioux L. "Adaptation et validation en langue française d'une échelle de bien-être spirituel": Correction. *Can J Behav Sci-Rev Can Sci Comport - CAN J BEHAV SCI* 2009;41:240–240. <https://doi.org/10.1037/a0016144>.
- [94] Cauda ER. Spirituality, Religious Diversity, and Social Work Practice. *Soc Casework* 1988;69:238–47. <https://doi.org/10.1177/104438948806900406>.
- [95] Jones KF, Pryor J, Care-Unger C, Simpson GK. Spirituality and its relationship with positive adjustment following traumatic brain injury: a scoping review. *Brain Inj* 2018;32:1612–22. <https://doi.org/10.1080/02699052.2018.1511066>.

- [96] Levack WM, Boland P, Taylor WJ, Siegert RJ, Kayes NM, Fadyl JK, et al. Establishing a person-centred framework of self-identity after traumatic brain injury: a grounded theory study to inform measure development 2014;4:e004630. <https://doi.org/10.1136/bmjopen-2013-004630>.
- [97] Gillespie E. A Qualitative Pilot Study of Spirituality in Long-term Recovery in Acquired Brain Injury. *J Pastor Care Couns JPCC* 2019;73:96–105. <https://doi.org/10.1177/1542305019853588>.
- [98] Nalder E, Hartman L, Hunt A, King G. Traumatic brain injury resiliency model: a conceptual model to guide rehabilitation research and practice. *Disabil Rehabil* 2019;41:2708–17. <https://doi.org/10.1080/09638288.2018.1474495>.
- [99] Jones KF, Pryor J, Care-Unger C, Simpson G. “Spirituality is everybody’s business”: an exploration of the impact of spiritual care training upon the perceptions and practice of rehabilitation professionals. *Disabil Rehabil* 2020:1–10. <https://doi.org/10.1080/09638288.2020.1820586>.
- [100] López J, Serrano MI, Giménez I, Noriega C. Forgiveness Interventions for Older Adults: A Review. *J Clin Med* 2021;10:1866. <https://doi.org/10.3390/jcm10091866>.
- [101] Davis DE, Ho MY, Griffin BJ, Bell C, Hook JN, Van Tongeren DR, et al. Forgiving the self and physical and mental health correlates: a meta-analytic review. *J Couns Psychol* 2015;62:329–35. <https://doi.org/10.1037/cou0000063>.
- [102] Sandage SJ, Long B, Moen R, Jankowski PJ, Worthington EL, Wade NG, et al. Forgiveness in the Treatment of Borderline Personality Disorder: A Quasi-Experimental Study. *J Clin Psychol* 2015;71:625–40. <https://doi.org/10.1002/jclp.22185>.
- [103] Menahem S, Love M. Forgiveness in psychotherapy: the key to healing. *J Clin Psychol* 2013;69:829–35. <https://doi.org/10.1002/jclp.22018>.
- [104] Recine AC. Designing forgiveness interventions: guidance from five meta-analyses. *J Holist Nurs Off J Am Holist Nurses Assoc* 2015;33:161–7. <https://doi.org/10.1177/0898010114560571>.
- [105] Billingsley J, Losin EAR. The Neural Systems of Forgiveness: An Evolutionary Psychological Perspective. *Front Psychol* 2017;8:737. <https://doi.org/10.3389/fpsyg.2017.00737>.
- [106] Fourie MM, Hortensius R, Decety J. Parsing the components of forgiveness: Psychological and neural mechanisms. *Neurosci Biobehav Rev* 2020;112:437–51. <https://doi.org/10.1016/j.neubiorev.2020.02.020>.
- [107] Chen EY, Segal K, Weissman J, Zeffiro TA, Gallop R, Linehan MM, et al. Adapting Dialectical Behavior Therapy For Outpatient Adult Anorexia Nervosa—A Pilot Study. *Int J Eat Disord* 2015;48:123–32. <https://doi.org/10.1002/eat.22360>.
- [108] Grace JJ, Kinsella EL, Muldoon OT, Fortune DG. Post-traumatic growth following acquired brain injury: a systematic review and meta-analysis. *Front Psychol* 2015;6. <https://doi.org/10.3389/fpsyg.2015.01162>.
- [109] Gangstad B, Norman P, Barton J. Cognitive processing and posttraumatic growth after stroke. *Rehabil Psychol* 2009;54:69–75. <https://doi.org/10.1037/a0014639>.
- [110] Étude commanditée par le groupe Humanis en partenariat avec les AFTC. Rapport HUMANIS “Longtemps après l’accident” 2015.
- [111] Hart T, Driver S, Sander A, Pappadis M, Dams-O’Connor K, Bocage C, et al. Traumatic brain injury education for adult patients and families: a scoping review. *Brain Inj* 2018;32:1295–306. <https://doi.org/10.1080/02699052.2018.1493226>.

- [112] Shepherd-Banigan ME, Shapiro A, McDuffie JR, Brancu M, Sperber NR, Van Houtven CH, et al. Interventions That Support or Involve Caregivers or Families of Patients with Traumatic Injury: a Systematic Review. *J Gen Intern Med* 2018;33:1177–86. <https://doi.org/10.1007/s11606-018-4417-7>.
- [113] Fruzzetti AE. Dialectical Behaviour Therapy with Parents, Couples, and Families to Augment Stage 1 Outcomes. *Oxf Handb Dialect Behav Ther* 2018. <https://doi.org/10.1093/oxfordhb/9780198758723.013.19>.
- [114] Clement O, Salamin V, Stocker C. Connexion familiale©: Expériences d’animation d’un programme pour les proches de personnes souffrant d’un trouble de personnalité borderline. [Family Connections©: Leading a program for relatives of individuals suffering from borderline personality disorder.]. *Rev Francoph Clin Comport Cogn* 2016;21:20–33.
- [115] Untas A, Koleck M, Rasclé N, Bruchon-Schweitzer M. Du modèle transactionnel à une approche dyadique en psychologie de la santé. *Psychol Fr* 2012;57:97–110. <https://doi.org/10.1016/j.psfr.2012.03.004>.
- [116] Shenk C, Fruzzetti A. The Impact of Validating and Invalidating Responses on Emotional Reactivity. *J Soc Clin Psychol* 2011;30:163–83. <https://doi.org/10.1521/jscp.2011.30.2.163>.
- [117] Landes SJ. Conducting Effective Behavioural and Solution Analyses. *Oxf Handb Dialect Behav Ther* 2018. <https://doi.org/10.1093/oxfordhb/9780198758723.013.49>.
- [118] Goetsch A. Feasibility of an emotion regulation intervention based on dialectical behavior therapy (DBT) in adults with a chronic acquired brain injury 2020.
- [119] Goetsch A. Faisabilité d’une prise en charge par thérapie comportementale et dialectique de la dysrégulation émotionnelle chez des patients avec lésions cérébrale acquise en phase chronique et de son évaluation par auto-questionnaire. Université de Strasbourg, 2021.
- [120] Linehan M. Manuel d’entraînement aux compétences TCD 2e ed. 2e édition. MEDECINE HYGIEN; 2017.
- [121] Comment traiter les troubles de la régulation émotionnelle : la Thérapie Comportementale Dialectique (TCD ou Dialectical Behavior Therapy - DBT). Form Contin Univ Strasbg n.d. https://sfc.unistra.fr/formations/sante-psychiatrie_-_psychiatrie-adultes_-_comment-traiter-les-troubles-de-la-regulation-emotionnelle-la-therapie-comportementale-dialectique-tcd-ou-dialectical-behavior-therapy-dbt_-_1551/ (accessed May 9, 2021).
- [122] GREMO HUS. Quand utiliser les compétences de la Thérapie Comportementale Dialectique (TCD) ? © GREMO. 2020.
- [123] von Steinbüchel N, Wilson L, Gibbons H, Hawthorne G, Höfer S, Schmidt S, et al. Quality of Life after Brain Injury (QOLIBRI): Scale Validity and Correlates of Quality of Life. *J Neurotrauma* 2010;27:1157–65. <https://doi.org/10.1089/neu.2009.1077>.
- [124] Bringmann LF, Ferrer E, Hamaker EL, Borsboom D, Tuerlinckx F. Modeling Nonstationary Emotion Dynamics in Dyads using a Time-Varying Vector-Autoregressive Model. *Multivar Behav Res* 2018;53:293–314. <https://doi.org/10.1080/00273171.2018.1439722>.
- [125] Larkin M, Eatough V, Osborn M. Interpretative phenomenological analysis and embodied, active, situated cognition. *Theory Psychol* 2011;21:318–37. <https://doi.org/10.1177/0959354310377544>.
- [126] Tong A, Sainsbury P, Craig J. Consolidated criteria for reporting qualitative research (COREQ): a 32-item checklist for interviews and focus groups. *Int J Qual Health Care J Int Soc Qual Health Care* 2007;19:349–57. <https://doi.org/10.1093/intqhc/mzm042>.

- [127] Rizvi SL, Monroe-DeVita M, Dimeff LA. Evaluating your dialectical behavior therapy program. In: Dimeff LA, Koerner K, editors. *Dialect. Behav. Ther. Clin. Pract. Appl. Disord. Settings*. 1st edition, New York: Guilford Press; 2007.
- [128] QOLIBRI – Online home of QOLIBRI n.d. <https://qolibrinet.com/> (accessed December 20, 2020).
- [129] Heiberg G, Pedersen SG, Friberg O, Nielsen JF, Holm HS, Steinbüchel von N, et al. Can the health related quality of life measure QOLIBRI- overall scale (OS) be of use after stroke? A validation study. *BMC Neurol* 2018;18:98. <https://doi.org/10.1186/s12883-018-1101-9>.
- [130] Wong GKC, Lam SW, Ngai K, Wong A, Mok V, Poon WS. Quality of Life after Brain Injury (QOLIBRI) Overall Scale for patients after aneurysmal subarachnoid hemorrhage. *J Clin Neurosci Off J Neurosurg Soc Australas* 2014;21:954–6. <https://doi.org/10.1016/j.jocn.2013.09.010>.
- [131] Mak M, Moulaert VRM, Pijls RW, Verbunt JA. Measuring outcome after cardiac arrest: construct validity of Cerebral Performance Category. *Resuscitation* 2016;100:6–10. <https://doi.org/10.1016/j.resuscitation.2015.12.005>.
- [132] Curcio A, Temperoni G, Tramontano M, De Angelis S, Iosa M, Mommo F, et al. The effects of aquatic therapy during post-acute neurorehabilitation in patients with severe traumatic brain injury: a preliminary randomized controlled trial. *Brain Inj* 2020;34:1630–5. <https://doi.org/10.1080/02699052.2020.1825809>.
- [133] Donnelly KZ, Linnea K, Grant DA, Lichtenstein J. The feasibility and impact of a yoga pilot programme on the quality-of-life of adults with acquired brain injury. *Brain Inj* 2017;31:208–14. <https://doi.org/10.1080/02699052.2016.1225988>.
- [134] Miah IP, Holl DC, Peul WC, Walchenbach R, Kruij N, de Laat K, et al. Dexamethasone therapy versus surgery for chronic subdural haematoma (DECSA trial): study protocol for a randomised controlled trial. *Trials* 2018;19:575. <https://doi.org/10.1186/s13063-018-2945-4>.
- [135] Spikman JM, Boelen DHE, Lamberts KF, Brouwer WH, Fasotti L. Effects of a multifaceted treatment program for executive dysfunction after acquired brain injury on indications of executive functioning in daily life. *J Int Neuropsychol Soc JINS* 2010;16:118–29. <https://doi.org/10.1017/S1355617709991020>.
- [136] Perneger TV, Leplège A, Etter J-F, Rougemont A. Validation of a French-language version of the MOS 36-Item Short Form Health Survey (SF-36) in young healthy adults. *J Clin Epidemiol* 1995;48:1051–60. [https://doi.org/10.1016/0895-4356\(94\)00227-H](https://doi.org/10.1016/0895-4356(94)00227-H).
- [137] Perneger TV, Leplège A, Etter J-F, Rougemont A. Validation of a French-language version of the MOS 36-Item Short Form Health Survey (SF-36) in young healthy adults. *J Clin Epidemiol* 1995;48:1051–60. [https://doi.org/10.1016/0895-4356\(94\)00227-H](https://doi.org/10.1016/0895-4356(94)00227-H).
- [138] Gratz KL, Roemer L. Multidimensional Assessment of Emotion Regulation and Dysregulation: Development, Factor Structure, and Initial Validation of the Difficulties in Emotion Regulation Scale. *J Psychopathol Behav Assess* 2003;14.
- [139] Neumann D, Malec JF, Hammond FM. Reductions in Alexithymia and Emotion Dysregulation After Training Emotional Self-Awareness Following Traumatic Brain Injury: A Phase I Trial. *J Head Trauma Rehabil* 2017;32:286–95. <https://doi.org/10.1097/HTR.0000000000000277>.
- [140] Cantor J, Ashman T, Dams-O'Connor K, Dijkers MP, Gordon W, Spielman L, et al. Evaluation of the Short-Term Executive Plus Intervention for Executive Dysfunction After Traumatic Brain Injury: A Randomized Controlled Trial With Minimization. *Arch Phys Med Rehabil* 2014;95:1–9.e3. <https://doi.org/10.1016/j.apmr.2013.08.005>.

- [141] Tsaousides T, Spielman L, Kajankova M, Guetta G, Gordon W, Dams-O'Connor K. Improving Emotion Regulation Following Web-Based Group Intervention for Individuals With Traumatic Brain Injury: J Head Trauma Rehabil 2017;32:354–65. <https://doi.org/10.1097/HTR.0000000000000345>.
- [142] Shields C, Ownsworth T, O'Donovan A, Fleming J. A transdiagnostic investigation of emotional distress after traumatic brain injury. Neuropsychol Rehabil 2016;26:410–45. <https://doi.org/10.1080/09602011.2015.1037772>.
- [143] Roth RM, Lance CE, Isquith PK, Fischer AS, Giancola PR. Confirmatory Factor Analysis of the Behavior Rating Inventory of Executive Function-Adult Version in Healthy Adults and Application to Attention-Deficit/Hyperactivity Disorder. Arch Clin Neuropsychol 2013;28:425–34. <https://doi.org/10.1093/arclin/act031>.
- [144] Roth RM, Isquith PK, Gioia GA, Roy A, Besnard J, Fournet N, et al. BRIEF-A: inventaire d'évaluation comportementale des fonctions exécutives - version adulte. Paris, France: Éditions Hogrefe France; 2015.
- [145] Vallieres EF, Vallerand RJ. Traduction et Validation Canadienne-Française de L'échelle de L'estime de Soi de Rosenberg. Int J Psychol 1990;25:305–16. <https://doi.org/10.1080/00207599008247865>.
- [146] Petersen W. Society and the Adolescent Self-Image. Morris Rosenberg. Princeton University Press, Princeton, N.J., 1965. xii + 326 pp. \$6.50. Science 1965;148:804–804. <https://doi.org/10.1126/science.148.3671.804>.
- [147] Ponsford J, Kelly A, Couchman G. Self-concept and self-esteem after acquired brain injury: a control group comparison. Brain Inj 2014;28:146–54. <https://doi.org/10.3109/02699052.2013.859733>.
- [148] Carroll E, Coetzer R. Identity, grief and self-awareness after traumatic brain injury. Neuropsychol Rehabil 2011;21:289–305. <https://doi.org/10.1080/09602011.2011.555972>.
- [149] Badoud D, Luyten P, Fonseca-Pedrero E, Eliez S, Fonagy P, Debbané M. The French Version of the Reflective Functioning Questionnaire: Validity Data for Adolescents and Adults and Its Association with Non-Suicidal Self-Injury. PloS One 2015;10:e0145892. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0145892>.
- [150] Fonagy P, Luyten P, Moulton-Perkins A, Lee Y-W, Warren F, Howard S, et al. Development and Validation of a Self-Report Measure of Mentalizing: The Reflective Functioning Questionnaire. PLOS ONE 2016;11:e0158678. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0158678>.
- [151] Tedeschi RG, Calhoun LG. The posttraumatic growth inventory: Measuring the positive legacy of trauma. J Trauma Stress 1996;9:455–71. <https://doi.org/10.1002/jts.2490090305>.
- [152] Lelorain S, Bonnaud-Antignac A, Florin A. Long Term Posttraumatic Growth After Breast Cancer: Prevalence, Predictors and Relationships with Psychological Health. J Clin Psychol Med Settings 2010;17:14–22. <https://doi.org/10.1007/s10880-009-9183-6>.
- [153] Grace JJ, Kinsella EL, Muldoon OT, Fortune DG. Post-traumatic growth following acquired brain injury: a systematic review and meta-analysis. Front Psychol 2015;6. <https://doi.org/10.3389/fpsyg.2015.01162>.
- [154] Powell T, Ekin-Wood A, Collin C. Post-traumatic growth after head injury: A long-term follow-up. Brain Inj 2007;21:31–8. <https://doi.org/10.1080/02699050601106245>.
- [155] Plessis L, Golay P, Wilquin H, Favrod J, Rexhaj S. Internal validity of the French version of the Family Coping Questionnaire (FCQ): A confirmatory factor analysis. Psychiatry Res 2018;269:337. <https://doi.org/10.1016/j.psychres.2018.08.021>.

- [156] Epstein NB, Baldwin LM, Bishop DS. The McMaster Family Assessment Device. *J Marital Fam Ther* 1983;9:171–80. <https://doi.org/10.1111/j.1752-0606.1983.tb01497.x>.
- [157] Speranza M, Guénolé F, Revah-Levy A, Egler P-J, Negadi F, Falissard B, et al. The French Version of the Family Assessment Device. *Can J Psychiatry* 2012;57:570–7. <https://doi.org/10.1177/070674371205700908>.
- [158] Hebert R. Fidelite de la traduction frangaise de trois instruments devaluation des aidants naturels de malades dements n.d.:14.
- [159] Zarit SH, Reever KE, Bach-Peterson J. Relatives of the Impaired Elderly: Correlates of Feelings of Burden. *The Gerontologist* 1980;20:649–55. <https://doi.org/10.1093/geront/20.6.649>.
- [160] Prati G, Pietrantonio L. Optimism, Social Support, and Coping Strategies As Factors Contributing to Posttraumatic Growth: A Meta-Analysis. *J Loss Trauma* 2009;14:364–88. <https://doi.org/10.1080/15325020902724271>.
- [161] Helgeson VS, Reynolds KA, Tomich PL. A Meta-Analytic Review of Benefit Finding and Growth n.d.
- [162] World Health Organization. WHO | International Classification of Functioning, Disability and Health (ICF). WHO 2001. <http://www.who.int/classifications/icf/en/> (accessed December 29, 2015).
- [163] Patston P. Constructive Functional Diversity: A new paradigm beyond disability and impairment. *Disabil Rehabil* 2007;29:1625–33. <https://doi.org/10.1080/09638280701618778>.
- [164] Miga EM, Neacsiu AD, Lungu A, Heard HL, Dimeff LA. Dialectical Behaviour Therapy from 1991–2015. *Oxf Handb Dialect Behav Ther* 2018. <https://doi.org/10.1093/oxfordhb/9780198758723.013.7>.
- [165] Rizvi SL, Roman KM. Generalization Modalities. *Oxf Handb Dialect Behav Ther* 2018. <https://doi.org/10.1093/oxfordhb/9780198758723.013.11>.
- [166] Sayrs JHR. Running an Effective DBT Consultation Team. *Oxf Handb Dialect Behav Ther* 2018. <https://doi.org/10.1093/oxfordhb/9780198758723.013.10>.
- [167] Stanton M, Dunkley C. Teaching Mindfulness Skills in DBT. *Oxf Handb Dialect Behav Ther* 2018. <https://doi.org/10.1093/oxfordhb/9780198758723.013.38>.

1. GUIDE ENTRETIEN LIBRE ARBITRE JUIN 2021

Libre arbitre

Enfin, nous nous intéressons à la notion de liberté intérieure et libre arbitre.

-Qu'est-ce que cette image vous évoque (cartoon avec un petit ange et un petit diable assis sur chaque épaule de quelqu'un qui réfléchit) ? Pouvez-vous me donner des exemples précis ? ou reprendre les exemples que vous m'avez donné tout à l'heure à la lumière de cette image ?



- Quand vous sentez-vous libre et/ou moralement responsable de vos actions ?

- Pourriez-vous me décrire des situations où vos émotions influencent votre comportement sans que vous n'ayez d'action dessus ?

-Est ce que vos émotions sont parfois si fortes que vous n'avez plus aucune possibilité de maîtriser votre comportement ? Pourriez-vous me donner des exemples précis ?

-Décrivez moi des domaines de votre vie vous avez l'impression que votre volonté est liée, comme si vous n'étiez plus vraiment libre ?

-Parlez-moi de votre lésion cérébrale et ses conséquences, en particulier sur votre liberté, votre libre arbitre, votre capacité à faire les bons choix ?

- (en reprenant les exemples que le patient a donné de clash, colère, conflit dans la partie de la recherche « linguistique des émotions ») : est-ce que vous avez fait ce que vous vouliez faire vraiment ou bien vous avez fait mais vous ne vouliez pas faire ça ? était-ce vous qui agissiez ou était-ce plus fort que vous ? avez-vous eu le temps de réfléchir à ce qui était le plus important pour vous ? vous était-il possible sur le moment d'agir autrement ?

- (GREMO uniquement) : Le GREMO a-t-il influencé votre vécu de vous sentir libre ? votre libre arbitre ? votre capacité à faire les bons choix ?

Après chaque question :

Pouvez-vous m'expliquer avec un exemple

-est-ce depuis votre LCA ou est-ce que ça a toujours été ?

2. GUIDE D'ENTRETIEN ISSU DE LA REUNION PARTICIPATIVE DE DECEMBRE 2021

1. Libre arbitre

3 approches, dans l'idée que chaque patient se retrouve dans une au moins :

-questions des choix

-cartoon ange/démon conseillers

-scénario lu de arrêter de fumer

-scénario photo de Zidane

NE PAS DIRE LE MOT LIBRE ARBITRE QUE LES PATIENTS CONFONDENT AVEC LIBERTE

NB Pour chaque question demander des exemples précis

Parlez-moi de votre lésion cérébrale et ses conséquences votre capacité à faire les bons choix ?

Comment prenez-vous vos décisions ?

Et quand il y a beaucoup d'émotions (angoisse, culpabilité, colère) ?

Et quand il y a de l'imprévu ? que vous êtes pris de court ?

Comment prenez-vous en compte les conséquences à long terme ?

Comment prenez-vous en compte vos valeurs dans vos décisions ?

Comment prenez-vous en compte vos objectifs de long terme dans vos décisions ?

Comment vos émotions du moment influencent vos décisions ?

Quels sont freins en prenant une décision ?

Quand vous sentez-vous libre dans vos choix et décisions ?

Est-ce que vous avez l'impression d'être influençable ? de décider en fonction des autres ? Donnez-moi des exemples

Est-ce que vous pensez que vos décisions sont adaptées à vos besoins ?

Est-ce que vos décisions sont adaptés à la réalité ?

Arrivez-vous à prendre le temps qui vous est nécessaire pour que votre décision soit pérenne ?

Décrivez-moi des domaines de votre vie vous avez l'impression que votre volonté est liée, comme si vous n'étiez plus vraiment libre de choisir ?

Qu'est-ce que cette image vous évoque ?

Pouvez-vous me donner des exemples précis ?

Décrivez-moi ce qui se passe en vous à ce moment là



« Parfois les gens ont envie d'arrêter de fumer pour plein de bonnes raisons (ça coûte cher, c'est pas bon pour la santé...), mais continuent quand même de fumer. On peut dire que fumer est une action moins libre car fumer répond à une raison du moment (fumer est agréable), mais ne répond pas à une raison que le fumeur considère plus importante (fumer est mauvais pour la santé, coûteux, etc.).

(si exemple ne prend pas : ou, on peut considérer que la personne qui agit sous le coup de colère répond à certaines raisons (par exemple envie de se faire respecter, décharger sa colère) mais en ignore d'autres (valeur d'être quelqu'un de calme, et qui sait dialoguer au lieu de s'énerver). »

Qu'est-ce que ces 2 situations vous évoquent à vous ? Donnez-moi des exemples.

Demander au patient s'il se souvient de cet épisode de la coupe du monde : Avez-vous des exemples similaires dans votre vie à vous ?



Si le patient a peu évoqué le libre arbitre ou est resté superficiel : Si on reprend les exemples que vous m'avez donné depuis le début de l'entretien :

-(en reprenant /résumant en qq mots les exemples que le patient a donné de clash, colère, conflit) :

Est-ce que vous avez fait ce que vous vouliez faire vraiment ou bien vous avez fait mais vous ne vouliez pas faire ça ?

Était-ce vous qui agissiez ou était-ce plus fort que vous ?

Avez-vous eu le temps de réfléchir à ce qui était le plus important pour vous ?

Vous était-il possible sur le moment d'agir autrement ?

Expliquez-moi ce qui s'est passé en vous à ce moment là

2. Apport GREMO ou traitement contrôle

Qu'est-ce que votre suivi à EMOI TC les 5 derniers mois vous a apporté ?

Comment ça a influencé votre capacité à faire des choix ? à prendre des petites décisions ? des grandes décisions ?

Après chaque question :

- pouvez-vous m'expliquer avec un exemple

-est-ce depuis votre lésion cérébrale ou est-ce que ça a toujours été ?

3. EXTRAITS DU MANUEL GREMO : ADAPTATION EN FRANÇAIS DU MODULE
« PARDON » DE LYNCH ET AL. [33,107]

PARDONNER

PARDON = LACHER PRISE

LES OBJECTIFS DU PARDON

Réduire les souffrances émotionnelles liées au passé

- ✓ Lâcher prise sur les émotions du passé
- ✓ Acceptation radicale des événements passés

Créer un espace pour de nouvelles connexions et expériences

- ✓ Se concentrer sur les événements, les relations et les opportunités actuels
- ✓ Réduire l'attention et la réflexion liées au passé blessant

Reprendre en main votre vie actuelle

- ✓ Retrouver (ou gagner) un sentiment d'autorité et de contrôle sur la vie
- ✓ Faire ce qui doit être fait maintenant, l'efficacité dans le présent

Permettre à d'autres personnes dans votre vie d'**aller de l'avant**

- ✓ Réduire le temps passé à se concentrer sur l'événement
- ✓ Accroître la disponibilité dans les relations actuelles



CE QU'EST LE PARDON ET CE QU'IL N'EST PAS



Le pardon **N'EST PAS** :

1. Dire que quelque chose est "bien, bon, OK, pas blessant".
2. Accepter le blâme pour ce qui s'est passé
3. Blâmer quelqu'un d'autre pour ce qui s'est passé
4. Garder des relations toxiques dans votre vie
5. Répéter quelque chose de nuisible pour vous



Le pardon **EST** :

1. Accepter radicalement les faits
2. Vivre en accord avec vos valeurs
3. Rester concentré sur le présent
4. Apporter un sentiment de sagesse ou de paix dans votre vie

Le pardon n'est pas non plus la réconciliation. La réconciliation est une démarche qui demande deux personnes tandis que le pardon est un chemin et un choix personnel, indépendant de ce que fait ou fera l'autre personne.*

LE PARDON EST UN CHOIX

Le **non-pardon** (*) peut être des sentiments de rancune, ressentiment, condamnation, rancœur ou animosité. Mais également un déni de ce qui s'est passé, la non-acceptation que l'évènement ait eu lieu, l'évitement de penser à la situation, une banalisation des faits.

Ne pas pardonner, s'accrocher à une rancune passée contre quelqu'un, c'est comme boire du poison tous les jours dans l'espoir de punir mon ennemi.

Cela me crée encore plus de souffrance. **Punir un transgresseur me punit à long terme parce que cela me maintient coincé dans le passé** et me fait perdre un temps précieux à m'attarder sur un événement passé qui ne peut être ni refait, ni refait.

Ne pas pardonner c'est comme tourner en rond dans un rond-point en observant toujours sa blessure sur la gauche et sans voir les sorties du rond-point qui sont à droite.

L'esprit ouvert nous permet de porter notre regard sur la droite et voir que l'on a le choix de prendre une sortie.

Le pardon est un choix que moi seul peux faire, c'est en fin de compte MA DECISION.

Personne ne peut être forcé à pardonner, ni à accepter le pardon lorsqu'il est offert. Ne pas décider, c'est quand même faire un choix.

A QUI PARDONNER ?

- ✓ **Pardonnez-VOUS** pour une chose que vous avez faite, une décision que vous avez prise, etc.
- ✓ Pardonnez à **QUELQU'UN D'AUTRE** pour quelque chose qu'il vous a fait ou qu'il a fait à une autre personne.
- ✓ Pardonnez à **L'ENVIRONNEMENT**, à une autorité supérieure, à une entreprise, à un autre pays, à une institution, au corps médical etc.

Pratique à domicile : ÉTAPES VERS LE PARDON (EXEMPLE 1)

1. Y a-t-il quelque chose qui a eu lieu dans le passé (par exemple un événement, une décision, un quelque chose qui vous a blessé) auquel vous pensez encore souvent ?

Avez-vous des sentiments de culpabilité, de colère, de tristesse ?

Lorsque nous devons construire notre maison, notre ami Stan qui faisait en général du travail au noir, nous a proposé de se mettre en association avec un collègue (M Dupont) qui avait une entreprise de construction officielle. Nous avons donné un chèque de 15 000 euros à Stan pour commander les matériaux, qu'il a donné à M. Dupont, qui est parti avec l'argent et a disparu dans la nature : son entreprise de construction s'est avérée factice.

Nom de l'ÉMOTION : Colère

INTENSITÉ (cf. thermomètre) : AVANT : 70

Nom de l'ÉMOTION : Culpabilité

INTENSITÉ (cf. thermomètre) : AVANT : 80

Niveau de pardon (0 = je ne pardonne pas du tout ; 5 = j'ai complètement pardonné) : AVANT : 0

2. Décrivez comment ces sentiments et le fait de s'y accrocher influencent votre vie actuelle.

Je ressasse l'évènement. Je revois en permanence le moment où j'ai donné le chèque, j'analyse la situation et ce qui aurait dû m'alerter. Je passe en revue ce que j'aurais dû faire. Dès que j'y pense je suis tendue, je sens que mes points se ferment. Je n'arrive plus à faire confiance à personne. J'évite de parler à Stan.

3. Déterminez qui ou quoi vous voulez pardonner :

Je voudrais me pardonner, pardonner M. Dupont, Stan, mon père et la justice française.

NB cela peut être :

X Pardonnez-vous pour une chose que vous avez faite, une décision que vous avez prise, etc.

Je voudrais me pardonner d'avoir donné le chèque avant de m'assurer que l'association de Stan avec M. Dupont était formalisée.

X Pardonnez à quelqu'un d'autre pour quelque chose qu'il vous a fait ou qu'il a fait à une autre personne.

Je voudrais pardonner :

-à M. Dupont qui m'a volé 15000 euros

-à Stan qui a fait confiance à M. Dupont

-à mon père qui nous avait convaincu de construire avec Stan et personne d'autre, et qui m'avait convaincu de faire confiance à leur association.

X Pardonnez à l'environnement, à une autorité supérieure, à une entreprise, à un autre pays, à une institution, au corps médical etc.

Je voudrais pardonner :

-à la justice française qui a rejeté notre plainte, en disant que il fallait qu'elle soit soutenue par un avocat (que nous n'avions pas les moyens de payer).

4. Accepter radicalement que l'événement s'est produit.

Notez ce que vous devez radicalement accepter :

J'ai perdu 15000 euros que je ne pourrais pas récupérer. Je me suis fait arnaquer.

5. Décrivez de façon non-jugeante les sentiments que vous éprouvez par rapport à l'événement

a. Quand l'événement s'est produit : *colère contre Stan, panique, peur de ne pas pouvoir construire la maison avec un trou de 15000€ dans le budget initial.*

b. Maintenant : *colère et culpabilité d'avoir fait confiance.*

6. Pensez aux personnes impliquées au moment de l'événement (y compris vous)

a. Quel était votre point de vue à l'époque ? A-t-il changé ?

Stan a fait confiance sans réfléchir, ni vérifier l'honnêteté de son futur associé, il ne nous a pas fait part de ses doutes le jour où on a donné le chèque.

b. Quel était le point de vue des autres personnes impliquées ?

Stan voyait dans cette association et dans le gros contrat de construction de maison une opportunité pour se poser, avoir une stabilité financière. Il avait confiance en M. Dupont qui était quelqu'un de charmant lors de leurs discussions. Stan nous a d'ailleurs dit qu'il n'avait jamais rencontré quelqu'un d'aussi attentionné et bienveillant.

c. Des informations sur la personne à pardonner que vous ne prenez pas en compte ?

Ma maison est construite et j'ai donc atteint mon objectif malgré le trou de budget. Lorsque mon mari et Stan sont allés au domicile de M. Dupont, ils ont rencontré sa femme et ont découvert que M. Dupont était quelqu'un de déséquilibré. J'ai pris conscience que la situation de sa femme était bien pire que la mienne et qu'elle souffrait plus que moi. J'ai pris conscience que 15000€ c'est beaucoup, mais je les gagne en une année alors qu'il y a des personnes dans d'autres pays du monde pour qui cela représente le salaire de toute une vie. Et surtout j'ai un mari aimant et pas un M. Dupont déséquilibré.

7. Lâcher prise – des pistes :

X Pardonnez-vous : Pratiquez des techniques de vérifier les faire (culpabilité justifiée et injustifiée)

X Pardonner aux autres :

Que voudriez-vous obtenir de cette personne ? Que voudriez-vous qu'elle vous dise ? Pouvez-vous l'obtenir d'elle ? Observez les pensées du type « je lui pardonnerai si... »

Si non, lâchez prise sur ce souhait.

Pratiquez l'exercice « l'esprit ouvert a du CŒUR »

X Pardonner l'environnement - Travailler à réduire le jugement et à accroître l'acceptation radicale

Notez ce que vous avez observé :

J'ai observé comme mon niveau de culpabilité n'était pas justifié, j'ai éprouvé de la joie en remarquant que cette situation vient de ma confiance envers mes amis (Stan) qui est une valeur que je veux vivre malgré cet événement. J'ai remarqué que la compassion envers l'épouse de M. Dupont m'aide à diminuer ma colère.

8. Pratique de la méditation bienveillante.

9. Votre niveau émotionnel après la pratique

Nom de l'ÉMOTION : *Colère*

INTENSITÉ (cf. thermomètre) : APRES : 25

Nom de l'ÉMOTION : *Culpabilité*

INTENSITÉ (cf. thermomètre) : APRES : 35

Niveau de pardon (0 = je ne pardonne pas du tout ; 5 = j'ai complètement pardonné) : APRES : 3

EXEMPLES DE PUBLICATIONS

Single-case experimental design studies: Regulatory and ethical framework in research and clinical practice. Agata Krasny-Pacini, Elena Chabran, François Clauss, Marie-Aline Sarda, Charles Pradeau, Marie-Eve Isner, Eric Sauleau. *Revision Submitted to Annals PRM.*

Proposed Criteria for Appraising Goal Attainment Scales Used as Outcome Measures in Rehabilitation Research. Krasny-Pacini A, Evans J, Sohlberg MM, Chevignard M. *Arch Phys Med Rehabil.* (IF 3.286, A) 2016 Jan;97(1):157-70. Epub 2015 Sep 4.

Self-awareness assessment during cognitive rehabilitation in children with acquired brain injury: a feasibility study and proposed model of child anosognosia. Krasny-Pacini A, Limond J, Evans J, Hiebel J, Bendjelida K, Chevignard M. *Disabil Rehabil.* (IF 1.985, B) 2015;37(22):2092-106. Epub 2015 Feb 12

Executive functions following severe childhood traumatic brain injury – the TGE prospective longitudinal study: age at injury vulnerability periods. Agata Krasny-Pacini, Mathilde Chevignard, Sabine Lancien, Sylvie Escolano, Anne Laurent-Vannier, Maria De Agostini, Philippe Meyer. *Ann Phys Rehabil Med.* (IF 3.657, A) 2017 Apr;60(2):74-82.

Charlie Chaplin and gesture training in severe aphasia: a randomized double-blind single-case experimental design. Vibrac C, Avias A, François PO, Isner-Horobeti ME, Krasny-Pacini A. *Ann Phys Rehabil Med.* (IF 3.657, A) 2020 Feb 4. pii: S1877-0657(20)30031-2. doi: 10.1016/j.rehab.2019.12.010. [Epub ahead of print]

Single-case experimental design studies: Regulatory and ethical framework in research and clinical practice

AUTHORS:

Agata Krasny-Pacini ^{1,2,3}, MD, PhD (agatakrasnypacini@gmail.com)

Elena Chabran ^{4,5}, ST, PhD (e.chabran@unistra.fr)

François Clauss ⁶, MD, PhD (francois.clauss@chru-strasbourg.fr)

Marie-Aline Sarda ⁷, Lawyer (sarda.ma@chu-toulouse.fr)

Charles Pradeau ⁸, MD (charles.pradeau@gmail.com)

Marie-Eve Isner ^{8,9}, MD, PhD (marieeve.isner@gmail.com)

Eric Sauleau ^{4,10,11}, MD, PhD (erik.sauleau@chru-strasbourg.fr)

- 1- Pôle de Médecine Physique et de Réadaptation, Institut Universitaire de réadaptation Clemenceau Strasbourg, 10 avenue Achille Baumann, BP 80096, 67402 Illkirch Cedex, France. Hôpitaux Universitaires de Strasbourg, UF 4372
- 2- Unité INSERM 1114 Neuropsychologie Cognitive et Physiopathologie De La Schizophrénie, Département de Psychiatrie, Hôpital Civil de Strasbourg, 1 Place De L'hôpital, 67091 Strasbourg Cedex F-67000 Strasbourg, France
- 3- Université de Strasbourg, faculté de médecine
- 4- Laboratoire ICube UMR 7357, Université de Strasbourg et CNRS Strasbourg, France
- 5- Université de Strasbourg, Faculté de médecine, Centre de formation en orthophonie de Strasbourg
- 6- Président du comité d'éthique de Strasbourg, Université de Strasbourg, Faculté de médecine et d'odontologie, Centre de référence des maladies rares orales et dentaires (O-RARES), UMR INSERM 1260

- 7- Comité de protection des personnes SOOM1 Sud-Ouest et Outre-Mer I », Toulouse, France
- 8- Pôle de Médecine Physique et de Réadaptation, Institut Universitaire de Réadaptation Clemenceau (IURC) Strasbourg, 45 boulevard Clémenceau, F-67082 Strasbourg cedex, France. Hôpitaux Universitaires de Strasbourg, UF 4372
- 9- EA 3072 "Mitochondrie, stress oxydant et protection musculaire", Fédération de Médecine Translationnelle de Strasbourg (FMTS), Université de Strasbourg, France.
- 10- President of the Committee for the protection of persons Est 4, member of the National commission for research involving human subjects (CN-RIPH)
- 11- Santé publique, Hôpitaux universitaire de Strasbourg

Corresponding author : Agata Krasny-Pacini ^{1,2,3}, MD, PhD (agatakrasnypacini@gmail.com)

Single-case experimental design studies: Regulatory and ethical framework in research and clinical practice

Abstract

Single-case experimental designs (SCEDs) are a powerful tool for evaluating the effectiveness of an intervention in a single participant, a small number of participants, or an heterogeneous population. Their use is growing in Physical and Rehabilitation Medicine. However, SCEDs comprise different types of designs and can be used for different purposes, which brings confusion about their ethical, legal and regulatory framework, and calls for clarification. SCEDs are still not well known to the ethics committees and institutional research boards, leading to a high variability in their responses. Further, approaches used in clinical practice to determine the best treatment for a given person (e.g. repeated measures, randomization, blinding) are often automatically categorised as requiring a full “research-type” approval from the ethics committee, when some of them could be considered as evidence-based clinical approaches, rather than generalizable research. Conversely, when

testing an intervention on a single participant, or in a university training context (e.g., in students' master degree theses), adequate validation may be lacking. In this paper, we aim to raise awareness of the principles and legal framework of SCEDs, and to propose a series of position points that could help research/ethics review boards to categorize a SCED as “research” or as “evidence-based clinical care”, based on its design and purpose. Especially we aim at clarifying how the key features of SCED: baseline length and content, repeated measures, randomization, and blinding, impacts SCED categorization. A secondary objective is to provide recommendations for universities and training institutes (particularly allied health discipline ones), to enable their students to conduct person-centred outcomes studies, using SCED methodologies that comply with the current regulatory framework. We hope to provide a basis for reflection adaptable to different countries' legislations.

Keywords: single case, ethics, research regulatory framework, bioethical law, multiple baseline, N of 1 trial.

Introduction

“Single-case experimental designs” (SCED) or “Single-subject Research Design” are a group of methodologies of growing interest in Physical Rehabilitation and Medicine (PRM). In SCEDs, the term “experimental” refers to a rigorous and prospective methodology where each participant is his/her own control, and to the control of potential biases, through repeated measurements of an outcome before, during and after the target intervention, sequential ($\pm$ randomized) introduction of the intervention and specific analysis comparing baselines to intervention phases. The “experimental” design must be able to demonstrate that the participant improves as a result of a specific intervention and not for other reasons (retest effect, spontaneous recovery, developmental effect, time with therapist effect or other placebo effects...).

Readers unfamiliar with these methodologies should refer to the summary article on the use of the different SCEDs in rehabilitation by Graham et al. [1], to the guide to the

implementation of SCEDs in rehabilitation by Krasny-Pacini & Evans [2] or to the article on the use of SCEDs in pediatric rehabilitation by Romeiser, Slaughter & Hickman [3].

Although terminology varies in literature, there are currently two main large type of SCEDs: multiple baseline (MBD) designs (including MBD across participants, MBD across behaviours and MBD across contexts) and N-of 1 trials (and related methodologies such as alternating treatment designs and introduction/withdrawal – ABAB designs)¹. Quasi experimental designs following an AB repeated measures design, are not strictly speaking true SCEDs because they lack the replicated sequential randomized introduction of the independent variable, but will be included, in this position paper. Other types of SCEDs exist such as changing-criterion design which will not be discussed here, given their rarity in PRM and given the controversial issues regarding their level of evidence [1]. Readers can refer to SCRIBE guidelines [5] for description, reporting guidelines and full classification of SCEDs. For a purpose of simplification in this paper, the term “N-of-1 trial” will be used here to refer to designs testing interventions with on/off effects, in which the design entails a withdrawal or switch between interventions. The “MBD” term will refer to designs where an AB design is applied to different contexts, participants or behaviors, and which use is mainly (but not exclusively) appropriate for intervention with lasting effects, especially rehabilitation intervention aiming at restoring a function, learning a new skill or creating brain plasticity.

As a preliminary clarification, note that a confusion is often made between the terms “SCEDs” and “N-of-1 trials”. N-of-1 trials are a very specific type of SCED² (level 1 in terms of Oxford Centre for Evidence-Based Medicine [OCEBM] levels of evidence). N-of-1 trials are multiple cross-over studies in the same participant, evaluating the effect of a multi-cycle,

¹ Note that, in fact, both designs can be embedded, for example if an N-of-1 trial is performed concurrently (i.e. simultaneously) on different subjects (see [4] for an example and Manolov et al. (in press in NR) for conceptualization).

² Note that the “Collaborative Network for N-of-1 Clinical Trials and Single-Case Designs” (<https://www.nof1sced.org/>) implies that N-of-1 trials are not SCEDs, but we argue that introduction/withdrawal (ABAB) designs have been described by Tate et al. [6] as part of SCEDs and that high quality randomized blinded introduction/withdrawal designs are usually equivalent to N-of-1 trials if sufficiently powered.

randomized, double-blind intervention [7]. Note that N-of-1 trials can be used only for treatments with on/off effects in participants with stable conditions (i.e. not in rehabilitation aiming at brain plasticity or acquisition of new compensatory skills that cannot be unlearned, for which MBD are better suited).

Schematically, SCEDs (whether MBD or N-of-1 trials type) can be used in 5 main situations:

- In research, when a group study is not feasible: in low prevalence diseases, in heterogeneous populations;
- In research, even if a group study is feasible, to focus on participant's specific response to treatment rather than focusing on group mean response to treatment;
- In pilot studies, e.g., aiming to investigate parameters such as feasibility, timeframe or fluctuations of the effects of a new intervention;
- In clinical practice, to choose the best treatment for a given person (among several approaches available in current practice) taking into account the uniqueness of each person (i.e., evidence-based person-specific clinical practice);
- In clinical practice and research, when faced with a person with atypical profile or multiple intertwined conditions/disability requiring an intervention (e.g., rehabilitation), but who does not fit into any well-known framework.

From these situations, it is therefore important to note that the "E" for "experimental" in the acronym SCED is not necessarily synonymous with, nor restricted to, "research". While all of these situations can use a SCED, their purpose is fundamentally different, which brings confusion about ethical, legal and regulatory SCED framework and needs clarification because: (1) Approaches used in clinical practice to determine the best treatment for a given person (e.g. repeated measures, randomization, blinding) are often automatically categorised as requiring an ethics committee - type research approval, when some of them could be considered as evidence-based clinical approaches, rather than generalizable research. (2)

SCEDs are still not well known to the ethics committees and institutional research boards, despite an increasing number of such submissions, leading to a high variability in the ethics committee responses. Cen et al.[8], for example, found that when, faced with a N-of-1 trial protocol, 43% of USA institutional review board regarded N-of-1 trials as meeting the definition of research with requirement of institutional review board approval, 22% considered N-of-1 trials as an extension of clinical care without need of institutional review board, 16% were unsure and 16% made their decision on a case-by-case basis. (3) Apart from some literature on regulatory framework for drug N-of-1 trials [9,10], there is currently no clear guidelines or criteria to help Ethics committee reviewers and clinical practitioners determine whether a SCED study, should be categorised as research or as evidence-based clinical care, based on its design and purpose.

Further, a major issue in PRM is teaching students of rehabilitation fields to implement evidence-based interventions. In university allied health discipline studies programs such as speech therapy, physiotherapy, occupational therapy, neuropsychology, clinical theses are increasingly required to be based on research methodology to validate the degree. In reality, however, such student “research” is often poorly designed, lacking power and often does not comply with research legislation. As an alternative, we argue that SCEDs may be a fantastic tool to teach students evidence-based person-centred practice, without intending to produce research data for generalizable knowledge.

The aim of this paper is to raise awareness of the principles and legal framework of SCEDs, and to propose a series of position points that could help research/ethics review boards, to categorize a SCED as research or as evidence-based clinical care, based on its design and purpose. The paper aims at being a basis for reflection internationally, but reglementary application will obviously vary across countries’ legislations.

The secondary objective is to provide insight and recommendations for universities and directors of training institutes (particularly allied health discipline ones), to enable their

students to conduct person-centred outcomes studies, using SCED methodologies that comply with the current regulatory framework. This involves clarifying the intent of students' SCED protocols (to improve the clinical care of individual persons, instead of producing generalizable knowledge), and choosing the most appropriate type of SCED to use.

I- SCEDs: research or evidence-based clinical practice?

SCEDs most known to clinicians and researchers in PRM are those published, which are usually clearly categorizable (and presented) as research (typically, multiple N-of-1 trials, replicated SCEDs of MBD across participants etc.). Those SCEDs are research because of the aim of (1) generalisability of the results through multiple replications of a standardized intervention in a small N group; (2) clear intent of publication; (3) aim of producing knowledge rather than offering optimal care for a single person. For these types of SCED, it is quite clear, that the SCED protocol is research. The small sample size that SCEDs use makes them no different from other research methodologies and therefore they require an authorization by a regulatory authority and no particular exception to be handled by research/ethics review boards.

Conversely, current clinical practice inherently includes therapeutic "trials" which involve "testing" treatments (or changing their parameters) in a person and evaluating the person's responses. (e.g., "Is this drug/device/type of rehabilitation effective or superior to others in the management of this person?). The conclusions of these ordinary "experiments" aimed at improving individual care through a "trial and error" approach are routine care at the service of the person. They are very rarely published, except in the case of exceptional or unusual changes in the persons' condition (e.g. Zolpidem in aphasia [11]), in which case "case reports" formats are often used. From a methodological point of view, the biases inherent to the informal nature of these practices do not allow for reliable inference of the effects of the treatment tested [12].

It is in this context that single case methodologies were developed, with the aim of rigorously formalising the daily practice of doctors and health professionals and obtaining better validated results [9,10]. A literature review by Gabler et al. [13] indicate that N-of 1 trials allow for more effective individual therapeutic decision-making in the long term than informal trials carried out in routine practice. As an example, questionnaires administered in some of the N-of-1 trials cited by the authors [14,15] show that the clinicians involved considered the results to be very reliable, and that these results frequently led to a change in the participant's treatment. In addition, participants also found these trials useful.

From a historical point of view, SCED methodologies, initially rooted in the experimental concepts from the field of behavioral psychology during the late 19th century [16], were pioneered by the behavioural sciences [17], particularly from the 1960s, in disciplines such as clinical psychology [18], special education [19], and rehabilitation [20]. As noted by Hersen [17], this development is reflected in the multiple SCED publications from this period in psychological and behavioural journals (e.g., *Journal of Consulting and Clinical Psychology*, *Behavior Modification*, and *Journal of Applied Behavior Analysis*). The medical/drug N-of-1 trial methodology, generally involving an on/off effect and less suited to rehabilitation interventions, was developed more in the mid-1980s [12].

It is important to note that some rehabilitation disciplines such as speech therapy or cognitive rehabilitation have been built on single-case studies, mostly conducted without prior notification to an ethical body and motivated by the lack of validated treatments, the need to provide care for persons with atypical profiles or with rare disorders, or to follow up persons who are difficult to include in more classic research protocols due to a lack of motivation, associated disorders or fluctuating symptoms [17,21–23]. Such studies, when carried out according to a rigorous and predefined methodology, are of common interest, scientifically relevant and would benefit from being published. Furthermore, the conclusions of such SCED protocols, which have the particularity of being specific to the participants studied,

could pave the way for the reimbursement of certain therapies or medical devices on an individual base, instead of defining an intervention's effectiveness based on group studies that mask inter-individual differences.

However, the publication of these trials is often hampered by the difficulty in categorising SCED methodologies with regard to the current regulatory and ethical framework. One example of situation where the blurring of the categorisation between research and rigorous clinical practice has a frequent impact is the case of academic theses and dissertations in the fields of medicine, psychology, speech therapy and other allied health sciences, where students are asked to assess the effectiveness of a treatment in one or several participants according to a robust scientific method. This pedagogical objective is often confused with the objective of carrying out scientific research. For these dissertations, encouraging the use of certain types of SCED that could be categorizable as rigorous evidence-based clinical practice (rather than research) would satisfy the educational objectives and allow for a simplified ethical validation procedure, while respecting the current legislation.

II- Ethical validation procedures for N-of-1 trials in the international literature

Existing work on the regulatory framework have focus mainly on N-of-1 trials. Several guidelines, viewpoints and practical flowcharts have been published [7,24,25] but these did not address other types of SCED to our knowledge. Most widely used reporting guidelines for SCEDs do not offer clear guideline regarding ethics procedure (apart from the need of informed consent). For example, SCRIBE guidelines state that *"It is virtually a universal requirement that research involving human participants requires review by and approval from an Institutional Ethics Committee. If the SCED was implemented as part of clinical care, ethics approval might not be required, as is the case in N-of-1 trials"*, but SCRIBE guidelines offer no criteria to distinguish between *"research involving human participants"* and *"SCED"*

was implemented as part of clinical care". This is not surprising and is probably corollary of the tendency that drug studies have been more regulated than studies of psychology, cognition, speech therapy, allied health disciplines interventions. Therefore, our suggestions regarding the validation procedures for SCED methodologies in this article are inspired by the regulatory and ethical recommendations already proposed for N-of-1 trials.

Current guidelines in Australia, Canada and the United States encourage a first ethical distinction between different types of N-of-1 trials, based on their intent: trials corresponding to "rigorous clinical practice" at the individual level should be distinguished from "research" N-of-1 trials aimed at producing generalisable results and knowledge [12,24]. A recent literature review published by Mirza et al. [12] suggests that:

- "If the objective is to inform treatment decisions for an individual person, the trial is optimal clinical care and should therefore not require formal ethics approval nor regulatory oversight from agencies monitoring clinical research. When choices from among two or more alternative treatments are being considered, persons should be informed about genuine uncertainties about their relative merits and how treatment should be selected in these circumstances."

- If the primary purpose of N-of-1 trials is to produce generalisable knowledge to inform treatment decisions for future patients, these N-of-1 trials are more properly regarded as research. In these circumstances, compliance with methodological and ethics standards will be expected."

As Mirza et al [12] point out, the Agency for Healthcare Research and Quality and the US Department of Health and Human Services commissioned a **"User's Guide to the Design and Implementation of N-of-1 Trials"** [24] to clarify this distinction. In this guide, Kravitz et al. pose the framework in the question: *"Is the primary purpose of developing the N-of-1 trial to improve the management of a given person? Or is it to improve the management of the population of patients with this type of disease?"*. They then distinguish 5 subtypes of N-of-1

trials, taking into account both the objective of the study and certain methodological aspects (see table 1).

III- Position points

In order to help research/ethics review boards to categorize SCEDs as research or evidence-based rigorous clinical practice, particularities of SCED methodologies must be known to these boards. Only then they can fully grasp if a method is used in order to improve a particular person's care or in order to satisfy SCED research gold standards.

In this section, we propose to explain SCED methodology particularities and propose a series of position points that could help research/ethics review boards to categorize a SCED as “research” or as “evidence-based clinical care”, based on its design and purpose. These position points are based mainly on the principle that if a methodological point (e.g., blinding, randomization, repeated measures, baseline type) does already occur (or should occur) in clinical practice, it therefore cannot be considered as a concept that applies exclusively to research. The methodology for elaborating these position points consisted of (1) analysing existing literature (reported in the previous section) and French laws regarding research (see supplemental data 1); (2) analysing examples of clinical and research SCEDs, mainly from student degree thesis that used SCEDs, but also from published SCEDs, (3) confronting opinions of all the authors of this paper during repeated online meetings during 18 month; (4) reaching an agreement as to categorize them as research or as evidence-based rigorous clinical practice; (5) deriving position points and the criteria in table 2 from these examples; (6) discussing the formulation of the position points and the criteria in table 2. The final position points relate solely to points where full agreement of all authors was reached after discussion and are therefore the “minimum on which all clinicians, researchers, research board and ethics committee members can agree”. While six of the authors are affiliated to the same University, it is important to note, that before this work, they had never worked together. They represented the following perspectives: (1) clinicians familiar/experts

in SCED research and involved in allied health discipline trainings (AKP, EC); (2) physicians involved in PRM research (MEIH, CP), (3) a lawyer specialized in research law and member of an official board authorizing research in France named “CPP” (MAS), (4) a president of a consultative medicine faculty ethics board (FC); (5) a president of another official board authorizing research in France or CPP (ES). A particular focus of the last 3 was ensuring that using SCEDs do not escape adequate research control, while first two categories particularly focused on ensuring that research control does not impede evidence-based rigorous clinical practice, its reporting and teaching and that students may be allowed to develop evidence-based practice skills without being outside regulatory laws. It is interesting to note, that prior to these discussion meetings, the spontaneous opinion of official board authorizing research members was to always consider SCEDs as research, but when provided with concrete clinical examples, and existing literature on N-of-1 framework, they agreed fully with the position points proposed here. Conversely, clinicians tended to consider exaggeratedly most SCEDs as evidence-based clinical care that could be published. All authors reported a significant change of opinion following the discussions.

A) Particularities of SCED methodologies and their impact from an ethical point of view

1) Blinding in SCED

Whether in research or in rigorous clinical practice, blinding the participant and/or the evaluator allows for more reliable conclusions because they are less influenced by social desirability and the effects of waiting for treatment. Blinding allows to extract the effect directly linked to an intervention from the multiplicity of "placebo" effects (e.g. time effect with therapists, novelty effect, etc.). In this sense, blinding in clinical practice should be promoted, particularly when deciding on the acquisition of costly technical aids (e.g. depressurisation system in amputee sleeves), or the long-term implementation of treatments with known side effects (e.g., neuropathic pain relief).

Position Point: The notion of blinding is therefore not a criterion that categorises a study as research.

2) Repeated measurements

In the very definition of SCEDs, the participant is assessed many times on an outcome measure which is generally (and preferably) a measure of objective behaviour (e.g. number of words spoken, intensity of anger outbursts, walking speed, etc.) or a PROM (“patient reported outcome measure” such as a visual analogic scale or self-questionnaire). In SCEDs this repeated outcome measure should be short to administer, without retesting effect, and should reflect the process targeted by the intervention.

This repetition of measures is often judged as not typical of current clinical management, and therefore can easily lead to the categorisation of SCEDs as interventional research.

However, repeated measurements allow a much better clinical understanding of the person’s condition, the understanding of fluctuations, and the external factors that influence performance beyond the introduction of the intervention. In some fields, such as cognitive behavioural therapy, it would not be appropriate to assess the person only once before and after an intervention: repeated (often daily) monitoring or self-observation of problematic behaviours by the persons or their family is an inherent part of the clinical intervention. In most interventions, introducing repeated measures allows the person to track progress, sustain motivation, and readjust treatments in case of unsatisfactory response.

Position Point: The use of repeated measures is therefore not a criterion that categorises a study as research. For a clinical SCED not to fall under the category of research, the repeated measurements must be of definite clinical interest to the person.

3) Randomization in SCED

In SCEDs, Randomization is the process of deciding at random when to start an intervention, or in which order to introduce different interventions. The underlying reason is to ensure that

it is the effects of the introduction of the intervention that are tested, and not the confounding factors, which would be over-represented if the intervention started at a time deemed favourable by the therapist (e.g.: person more motivated, less tired, favourable weather...). It seems that the principle of randomization, even if it is a within-participant randomization often leads the investigator to classify SCED protocols as research, whatever their objectives (clinical or research). However, it can be argued that randomization is profitable to the person outside of research. Randomization should be more often used in clinical care (e.g. when choosing between different orthosis, different technical aid), to enhance treatment optimisation, and to ensure that it is the treatment that is effective and not the person's predisposition at the time of introduction of this treatment.

Position Point: Randomization of the introduction or change of treatment timepoints is not a criterion that categorises a study as research.

4) The baseline principle

The "baseline" phases are "control" periods where a participant does not have the target intervention the SCED aims to evaluate. During such a baseline, the participant is repeatedly measured with the same measures and frequency as the repeated measurements that will take place in the intervention phase. However, the content of this baseline is variable (in the same way that group-level control interventions are variable in the literature). It may include: (1) a period without any intervention (equivalent to a waiting list); (2) a period with a so-called standard intervention, preceding an intervention phase where there will be an additional rehabilitation that will be tested: e.g. (a more ecological application of rehabilitation, a time of mindfulness before the beginning of the rehabilitation session; the addition of an innovative prosthesis component...); (3) a period of intervention useful to the participant but having a different objective from the intervention that will then be tested in the following phase (e.g.: rehabilitation of visuo-spatial working memory in baseline, relevant for the participant's difficulties after his stroke, but unrelated to the intervention phase testing the rehabilitation of his aphasia).

In SCEDs standards, the length of the baseline is determined if possible by randomization. In clinical care, a restriction to this standard is to keep baseline lengths useful for the person. The benefit for the person of a long baseline is a better understanding of their baseline condition, fluctuations, and factors influencing performance prior to the introduction of the intervention being tested. The benefit for a person of a short baseline is the earlier introduction of a potentially more effective treatment if it proves to be superior to what is done in baseline.

The clinical SCEDs where the baseline makes particular sense to the clinician and the participants are MBD across behaviors or goals. Indeed, it is usually neither possible nor optimal to introduce several interventions at the same time for the different goals the participant has. In this randomized MBD across behaviours (see [26,27] for an example), the order in which these different goals are addressed is randomly selected, and the achievement of goals that cannot yet be addressed is measured repeatedly while waiting for their introduction and while working on the other goals. This method makes it possible to differentiate the real effectiveness of a specific treatment versus the progress linked to the simple fact of setting a goal and identifying an area requiring intervention. In some goal-based rehabilitation in occupational therapy, such as COOP [28,29], introducing goals sequentially is mandatory (in COOP the participant learns a step-by-step strategy which is applied sequentially and progressively to the different goals he/she identifies).

Position Point: It is the content of the baseline that categorises a study as research or clinical optimal practice. A SCED study may be considered as optimal clinical practice and not research only if the duration and content of the baseline are in line with the specific person 's assessment and priority goals, i.e. as long as there is no delay in the introduction of an effective intervention that would be prioritised over what is done in baseline.

Waiting list baselines, where there is no intervention, are more controversial: if the waiting is due to the impossibility for the therapist to start an intervention straight away (e.g.: quite frequent cases for community speech therapists who have long waiting times between the assessment and the start of weekly treatment), the waiting list baseline in which the person has only repeated measures PROMs may not be considered as research. On the other hand, if the waiting is related solely to the SCED protocol (e.g. SCED with MBDs across participants that require different baseline lengths for different participants), then SCED falls into the category of research.

5) Inter participant replication and aggregation of single participants' results

Aggregation of results refers to an analysis (usually a statistic, e.g. a randomization test performed on 3 participants randomized to three intervention starting points) testing the intervention effect at group level (even if the “group” is of 3 participants only): for example, aggregating several single participants results from multiple N-of-1 trials to obtain a mean effect for all the participants. In this paper, we oppose it to analysis and statistics done for a single participant (e.g. an overlap indices, a randomization test, or any test statistic using the result of a single participant only).

For N-of-1 trials, alternating treatments and MBD across contexts and across behaviours, all 3 effects are replicated within the same participant (termed intra-participant replication), resulting in personalised, replicated (thus reliable) evidence of intervention effectiveness at the participant level (e.g. sequential application of a metacognitive strategy to three different participant's personalized goals, 3 on/off transition between standard and novel technical aid...). In all these cases, the effects are replicated within the same participant and, for categorization, they may follow the guideline of Kravitz et al. [24], because MBD across behaviours or across context remain an intra-participant replication of effect even if they are not N-of-1 trials.

Conversely, in rehabilitation, a common and very useful type of SCED is the MBD across participants [6,30] which is NOT based on intra-participant replication but on the aggregation of several AB designs belonging to different participants. In MBD across participants, the demonstration of the 3 effects involves (at least) 3 different participants [6,30,31] to which an intervention is applied sequentially in a randomized order. This is to fulfil SCED methodological requirement, that, in order to conclude causality, the effects of an intervention must be replicated 3 times [6,31]. Conclusions of MBD across participants are made at the “group of 3” (or small N) level. It cannot be formally assumed that the treatment is effective for each participant separately (each participant corresponding in fact to a quasi-experimental AB design), as each participant has one transition (A to B) only, and the causal link between the introduction of the intervention and the change in scores cannot be reliably established due to lack on intra-participant replication.

Position point: MBD across participants, due to the mandatory aggregation of results from multiple (at least 3) participants, should be fully reviewed by an ethics authority. Results from single participants of the MBD may be considered as clinical evidence-based practice, if analysed separately, but such reporting would not be considered a MBD, but replicated quasi AB design. This position point is in line with the N-of-1 trial recommendations of the Agency for Healthcare Research and Quality [24], (see table 1, category C,D,E).

B) Proposed categorization of SCEDs

Based on the previous papers of Kravitz et al. [24], Stunnenberg et al. [25] and on these position point, we propose in table 2 a categorization of any type of SCEDs (not N-of-1 only) as research or clinical practice. Note that if a criterion of the second column is fulfilled the SCED will be of research type. Conversely a SCED conducted as research may use the first column criteria as well.

IV - Types of SCED that can be considered as evidence-based clinical practice

Below are 4 examples of purely clinical SCEDs, which we propose to call "evidence-based clinical SCEDs", which we believe should not require an authorization by ethics authority and which should be encouraged among PRM and allied health disciplines students. The only mandatory procedure is then to collect consent to care and if desired by investigators an opinion of ethics committee. These SCEDs could therefore be conducted as part of the person's care and, in case of publication or official reporting (e.g., rehabilitation student's degree thesis), require a simplified validation procedure through local institutional ethics committee (such as those of medical and allied health disciplines schools and labs). Some of these papers include replication across participants (which would be considered research if aggregated), but applied to a single person in routine care, they offer a solid methodological example of person-specific evidence-based care clinicians and students can refer to.

1. Can a rigid ankle-foot orthosis reduce Mr. J's walking pain due to his ankle osteoarthritis (see figure 1)? An ABAB introduction/withdrawal SCED (unblinded N of 1) [32].
2. Does treatment with visual stimulation of the blind field through H'Spire [33] software allow Mr C to make recover from his homonymous lateral hemianopia (see figure 2) [34]? Quasi-AB design, comprising a baseline and 3 different intervention phases.
3. Does an intensive coaching intervention for Mrs G with severe apathy enable her to achieve her goals relating to social interactions, lifestyle and participation in leisure activities (see figure 3)? [27]. MBD through behaviours/goals.
4. What is the most effective approach to the rehabilitation of Mrs B's aphasia (see figure 4)? Alternating treatment between gestural, semantic or multimodal prompting for naming [35]

V - Discussion and Conclusion

At least since the 19th century, the need for ethical validation - whether in care or research-, has been consensually accepted [36,37]. But from the 1960s-1970s (notably through major scandals such as Thalidomide, Tuskegee, etc.), the legislation governing research was strengthened, made more complex, and more cumbersome; to such a point that regulation may hamper the truly "good" conduct of research [38]. Too much or inappropriate "ethical" regulation may discourage clinicians to evaluate their practices and may thus diminish the ethics of care. In-depth reflection is essential to ensure that research legislation does not refrain optimal, evidence-based personalized care, which may require, in some rehabilitation decisions, the use of randomization, blinding, repeated measures and baseline, as stated in the previous section.

Unfortunately, current regulatory and legislative framework, or rather the lack of a clear framework regarding SCEDs, makes clinicians almost "guilty" of testing the interventions they propose to their patients using such rigorous methods (e.g. blinding, randomization, repeated measures...) because they are confused about the border between research and care. This may contribute to extending the gap between research and clinical practice, while both should be integrated into a continuum to serve persons and build an evidence-based culture of rehabilitation, that could perhaps contribute to restoring confidence in the medical/rehabilitation intervention proposed.

Clarifying the boundaries between clinical practice and research in SCEDs, and the corresponding regulatory procedures, is also crucial for health university programmes and training institutes (especially in the allied health disciplines field), whose students are expected to carry out clinical/research projects as part of their degree. Recommendations are needed to ensure ethical control and validation of these student projects, in a way that is compatible with their specific constraints (e.g., by encouraging the use of clinical SCEDs rather than research SCEDs when appropriate).

The main limitation of this paper is the representativeness of the views expressed in these position points. Although authors came from different backgrounds, represented different institutions/aims and had never worked together before, we cannot guarantee that all research institutions, researchers and clinicians would agree on these position points. These position points and table 2 in particular are however a starting point for future discussion. In particular, future research plan include (1) a diffusion of the paper and its supplemental data to research and ethic boards for discussing the possibility to endorse these criteria to guide decisions; (2) a diffusion to the International Collaborative Network for N-of-1 Clinical Trials and Single-Case Designs, for triggering discussion and elaboration of more detailed guidelines. For now, our aim was to propose an accessible paper to readers not necessarily familiar with SCEDs.

In order for Ethics Committees and Institutional Review/Research Boards to take full advantage of the guideline provided here, a detailed understanding of SCED methodology is needed, but unfortunately insufficiently present in many committees/boards. This may present a barrier to the uptake of these recommendations. Training in SCEDs, could be developed for institutional boards. Alternatively, we suggest that researchers and clinicians submitting a SCED for review may use (along with the SCRIBE [5] or CENT[39] reporting guidelines) the table 1 provided here, to justify if their SCED should be considered by a research board (research SCED) or use a simplified procedure for publication (if it is a SCED conducted as evidence-based clinical practice).

PRM professionals, and occupational therapists in particular, have always put a great emphasis on finding the best solution for each person, based on his/her personalized needs, values and life project. While personalized medicine is mainly thought of as “determining which genetic markers have the most clinical significance, limiting the off-target effects of gene-based therapies, and conducting clinical studies to identify genetic variants that are correlated with a drug response” [40,41], PRM has, in SCEDs, a fantastic tool for

encouraging personalized rehabilitation interventions. Promoting person-specific solutions to enhance activity and participation, rather than relying solely on group mean responses, may be an important direction to take. But it is essential that this direction is not hampered by unduly applying research regulatory restrictions to what is, and should be, person-centred rigorous, evidence-based, personalized choice of the best intervention strategy.

Declaration of interests

Authors have no conflict of interest to declare.

Figure 1: Evolution of pain across walking series of 2 minutes walking tests, for Mr. J, suffering from ankle osteoarthritis arthritis, without (A) and with (B) an ankle-foot rigid orthosis.

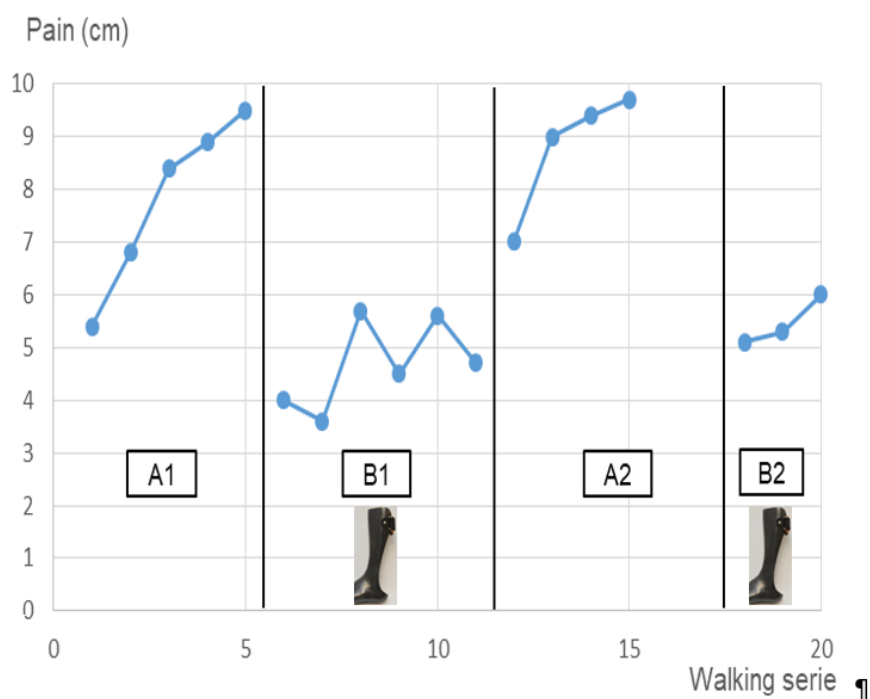


Figure 1: Evolution of pain across walking series of 2 minutes walking tests, for Mr. J, suffering from ankle osteoarthritis arthritis, without (A) and with (B) an ankle-foot rigid orthosis.

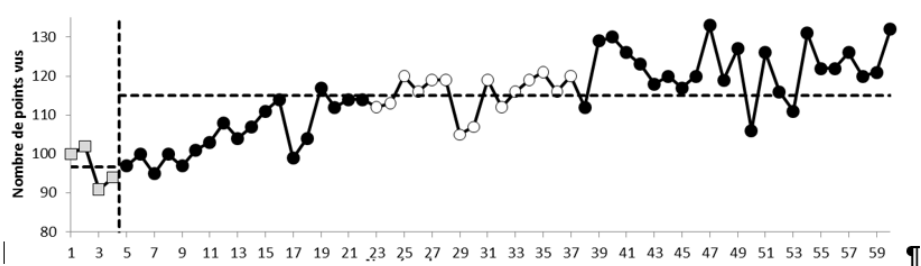


Figure 2: Evolution of the number of points seen by Mr. C in the left visual field on H'Spire evaluation software. Quasi-AB design with baseline (squares) where the patient self-measures his visual field followed by a phase B (black circles) of visual field stimulation, followed by a phase C (empty circles) with compensation exercises, then a new stimulation phase in case of stimulation efficiency (black circles).

Figure 3: Evolution of the frequency of Mrs G's target behaviours and corresponding goals attainment scaling scores regarding 3 participation goals.

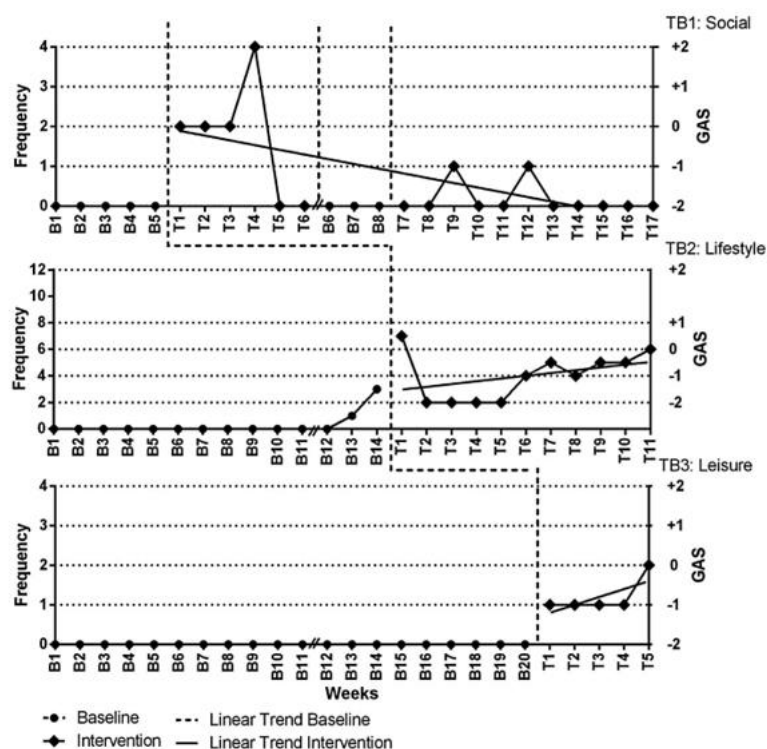


Figure 3: Evolution of the frequency of Mrs G's target behaviours and corresponding goals attainment scaling scores regarding 3 participation goals

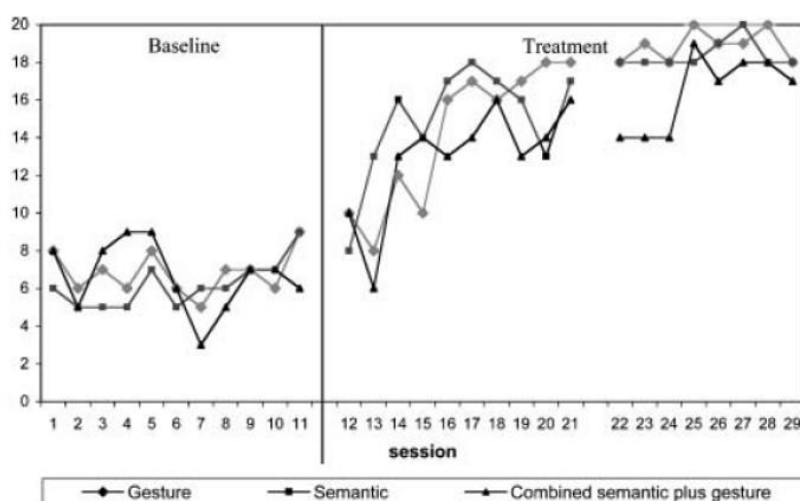


Figure 4: Evolution of the number of correctly named words across 3 rehabilitation modalities

N-of-1 trial type	Purpose	Regulatory validation
<u>Type A</u>	<u>Routine clinical practice</u>	No regulatory validation required
<u>Type B</u>	<u>Clinical Practice Based Learning</u>	No regulatory validation required
<u>Type C</u>	<u>Clinical practice with secondary analyses</u>	Regulatory validation by fast-track procedure, for secondary analyses on anonymised and aggregated data
<u>Type D</u>	<u>Implementation and evaluation of a study system</u>	Fast-track validation by regulatory authorities for secondary analyses on anonymised and aggregated data
<u>Type E</u>	<u>Use of an N-of-1 trial to obtain generalizable results</u>	Full validation by regulatory authorities required

Table 1: The 5 subtypes of N-of-1 trials proposed by Kravitz et al. to decide which regulatory validation is needed

Characteristics	SCED conducted as evidence-based clinical practice	SCED conducted as research
Intent	Optimal individual patient care (direct benefit for the patient)	Generalizable data (population estimates of treatment or intervention effect) May or may not be helpful to participants included in the study

Inclusion criteria	None	Inclusion/non inclusion/per protocol exclusion criteria
Whose needs?	The design of the intervention is based on specific patient's needs	Participant recruitment is based on the study needs
Patient consent	Consent to care	Consent to research
Type of Informed consent	The patient is informed of and accepts the specificities of the SCED, and the aim of the protocol of optimizing his/her care	The participant gives his/her consent to participate in the study protocol, according the current local research legislation.
Type of SCED	Any SCED conducted at the individual level, without aggregation of data across different participants.	Any SCED aiming at aggregating individual participants' data, especially: - Aggregated multiple N-of-1 trials - Replicated SCEDs of MBDs across participants
Intervention (dosage, duration, frequency, route)	Individualized	Standardized
Randomization	Possible, if aiming to ensure that the measured effects are linked to the introduction of the intervention, and not to potential confounding factors	Highly recommended, both to fulfil SCED's quality guidelines and to ensure sufficient power in randomization tests for MBD.
Blinding	Possible, if aiming to distinguish the effect directly linked to the intervention from the multiplicity of "placebo" effects	Highly recommended when possible, with challenges and methods non specific to

		SCEDs
Repeated measurements	Possible, if aiming at a better clinical understanding of the patient's condition, its fluctuations, and the potential external factors that influence performance before the introduction of intervention	The choice and frequency of administration of repeated measurements aims at satisfying condition of randomisation tests and achieving greater study power
Baseline	Baseline duration and content are in line with the patient's assessment, his/her priority objectives, and the feasibility of the clinical intervention	Baseline duration and content mainly based on methodological considerations*, especially randomization.
Choice of Outcome measures	Personalized outcomes (will be part of informed consent) for clinical purposes, based only on patient's intervention goal	Same outcome measures for all participants, primarily based on research purpose (data collection allowing to aggregate results)**
Publication of results	- The SCED does not primarily aim at obtaining publishable results. - However, results can be published (similarly as case reports can be published), but under the term of "clinical SCED" to avoid confusion with an uncontrolled, retrospective case report. - Consent of the patient for publication	The SCED aims at publishing results regarding the intervention being tested and follows same rules as any other research publication.
Validation procedure	- Standards of care as defined by the clinician's professional order or licence	Authorization by regulatory research authorities.

	and current available literature. In case of publication: - Patient's consent for the use of clinical data or data from complementary examinations for medical and publication purposes - Simplified procedure (through local ethics committee) - Local consultative EC required for aggregation of multiple SCED data a <i>posteriori</i> (reuse of previously collected data)	
* the methodological consideration may include participant' response, baseline stability (e.g. in response guided randomization procedures) and not only methodological issues prior to participant inclusion such as baseline length based on randomization-based power calculation [30]". ** Note however that methodologies such as Goal Attainment Scaling (GAS) [42,43] allow to use a single outcome measure for all participants (GAS) for aggregation purposes, while testing the intervention effectiveness on personalized goals (see [26,27] for an example).		

Table 2 : Suggestion of criteria for the categorization of SCEDs as evidence-based clinical practice or research, adapted from the recommendations of the US Agency for Healthcare Research and Quality [24] regarding N-of-1 trials.

Supplemental data:

SCEDs AND FRENCH “JARDÉ LAW”

APPLICATION OF THE POSITION POINTS FROM “SINGLE-CASE EXPERIMENTAL DESIGN STUDIES: REGULATORY AND ETHICAL FRAMEWORK IN RESEARCH AND CLINICAL PRACTICE” BY KRASNY-PACINI ET AL. TO THE CONTEXT OF FRENCH LAW NO. 2012-300 OF 5 MARCH 2012 ON “RESEARCH INVOLVING THE HUMAN PERSON” (KNOWN AS THE JARDÉ LAW), AS AMENDED BY ORDER NO. 2016-800 OF 16 JUNE 2016.

1) A brief review of the regulatory context of research at the international, European and French levels.

Originally, medical research was seen as indissociable from clinical care. However, in 1964, the World Medical Association met in Helsinki to improve the conditions for the acceptability of research on human beings. This meeting gave rise to a fundamental text in the field of ethics of research on human beings: the Declaration of Helsinki [44]. One of the novelties of this text is that it attempted to recover the old requirement of the medical profession's benevolence as an ethical condition for interventions in the field of research. It introduced a distinction between therapeutic and non-therapeutic research: *"in the field of biomedical research, a fundamental distinction must be recognised between medical research with an essentially diagnostic or therapeutic purpose with regard to the patient and, on the other hand, research whose essential purpose is purely scientific and without a direct diagnostic or therapeutic purpose with regard to the research subject"* [45].

In France, this distinction was implemented through the Huriet-Sérusclat [46] law of 1988, which classified studies depending on the presence or absence of direct individual benefit for the participants. The Huriet-Sérusclat law was amended by the law of 9 August 2004 [47] on public health policy, for the imperative reason of transposing the 2001 European directive [48] on clinical trials on medicinal products for human use. This regulation was then amended with the publication of the European Parliament and Council Regulation N-of-16 April 2014 on clinical trials on medicinal products for human use [49].

Specificity in France is that the ethics review boards are divided in two: on the one hand the local consultative ethics committees (ECs) for care and/or research, giving an opinion on the studies submitted to them, and on the other hand the "committees for the protection of persons" (CPPs). The latter are regulatory authorities that authorize or not the studies. They

were created by the bioethics law of 2004 (law No. 2004-800 of 6 August 2004 relative to bioethics) and have their own regulations.

Currently, the Jardé law of 5 March 2012 and its implementing decree 2016-1537 of 16 November 2016 provides a framework for "*research involving the human person*", defined in Article L. 1121-1 of the Public Health Code (amended by the ordinance following the Jardé law) as "*Research organised and carried out on human beings with a view to developing biological or medical knowledge*".

In Jardé law, there are three categories of research involving the human person, depending of the inherent constraints and risks applied to the included individuals

- Category 1: Interventional research involving an intervention on the person not justified by his or her usual care;
- Category 2: Interventional research that involves only minimal risks and constraints, the list of which is set by order of the Minister for Health, following an opinion from the Director General of the National Agency for the Safety of Medicines and Health Products;
- Category 3: Non-interventional research that does not involve any risk or constraint in which all procedures are performed and products are used in the usual way.

All these protocols have for objectives an improvement of the medical knowledge and understanding of biological and physiopathological mechanisms. Common reglementary processes are necessary for the three types of RIPH, with informed consent, CNIL declaration and approval by the French ethical committee CPP (Committee of Persons Protection).

Conversely, in the French typology of clinical research, are considered as non-Jarde Law protocols, observational retrospective research on anonymized medical or biological data,

research on anonymized complementary exams (radiographic, tomographic, MRI exams..) and studies based on questionnaires evaluating for example effectiveness of a medical pedagogic intervention or of a therapeutic education program. Note that evaluation of a specific medical professional practice (EPP : Evaluation of Professional Practice), for example, is considered as a non-Jarde law study and don't require a CPP approval but an local ethical committee agreement.

This classification is complex and often leads to discussion in the CPP and ethical committees, the situation of SCED in this typology is also difficult to determine and requires a good understanding of the ethical and reglementary ethical framework.

According to this regulatory framework, SCED protocols may therefore relate to either:

- Category 1 (research): e.g., drug research in very low prevalence diseases where SCED can be a relevant methodology;
- Category 2 (research): e.g., research to test a novel rehabilitation intervention;
- Category 3 (research): e.g., systematic observation of routine care rehabilitation intervention with repeated measurements, aiming at generalisable results (such as SCED where the intervention being tested is routine care, applied to multiple individuals, with aggregation of results, as in multiple baseline SCED across subjects)
- Non-Jarde Law protocols (e.g.: studies based on questionnaires evaluating for example effectiveness of a medical pedagogic intervention)
- Or purely clinical approaches, not regulated by Jardé law, aiming at a reliable evaluation of the most relevant treatment for a given patient, without the objective (at least initially) of generalising single patient's results to the general population, and which may be categorised as "optimal evidence-based clinical practice" rather than research.

For the sake of clarity we propose in this paper to use the term “ethics review boards” to refer to all types of committees or commissions that “have something to do” with the ethics of care and/or research. This includes in particular local consultative ECs (for care and/or research), CPPs and the French scientific regulatory authority National Agency for Medicines and Health Products Safety (ANSM).

2) The issue of research SCEDs: which category according to French Jardé law?

As stated in the main paper, multiple N-of-1 trials, replicated SCEDs of MBD across subjects and all SCEDs aiming at aggregating patient's data to produce generalizable knowledge are clearly research and therefore they require a complete examination by ethics authorities (in France, CPP). But for such a design, the question often debated, in France at least, is which Jardé law category (see section I) it belongs to i.e. whether this design is “interventional” or not. We propose to use the previous position points regarding baseline length/content and randomization especially, to guide investigator in its decision to categorise his SCED as interventional (type 1 or 2) research or non-interventional research (type 3).

Position Point: SCED randomisation (i.e. randomization of baseline length, randomization of the order in which subjects start the intervention, randomization of phase transition points... etc..) is not a criterion that categorises necessarily a SCED study as interventional research (in Jardé law meaning), as each participants has both conditions administered, and it is only the timepoint of the intervention start that is randomised, which is fundamentally different from group design randomization that decides which intervention a patient will receive.

References

- [1] Graham JE, Karmarkar AM, Ottenbacher KJ. Small Sample Research Designs for Evidence-Based Rehabilitation: Issues and Methods. *Archives of Physical Medicine and Rehabilitation* 2012;93:S111–6. <https://doi.org/10.1016/j.apmr.2011.12.017>.
- [2] Krasny-Pacini A, Evans J. Single-case experimental designs to assess intervention effectiveness in rehabilitation: A practical guide. *Annals of Physical and Rehabilitation Medicine* 2018;61:164–79. <https://doi.org/10.1016/j.rehab.2017.12.002>.
- [3] Romeiser-Logan L, Slaughter R, Hickman R. Single-subject research designs in pediatric rehabilitation: a valuable step towards knowledge translation. *Dev Med Child Neurol* 2017;59:574–80. <https://doi.org/10.1111/dmcn.13405>.
- [4] Nikles J, Tate RL, Mitchell G, Perdices M, McGree JM, Freeman C, et al. Personalised treatments for acute whiplash injuries: A pilot study of nested N-of-1 trials in a multiple baseline single-case experimental design. *Contemporary Clinical Trials Communications* 2019;16:100480. <https://doi.org/10.1016/j.conctc.2019.100480>.
- [5] Tate RL, Perdices M, Rosenkoetter U, McDonald S, Togher L, Shadish W, et al. The Single-Case Reporting Guideline In BEhavioural Interventions (SCRIBE) 2016: Explanation and elaboration. *Archives of Scientific Psychology* 2016;4:10–31. <https://doi.org/10.1037/arc0000027>.
- [6] Tate RL, Perdices M, Rosenkoetter U, Wakim D, Godbee K, Togher L, et al. Revision of a method quality rating scale for single-case experimental designs and n-of-1 trials: the 15-item Risk of Bias in N-of-1 Trials (RoBiNT) Scale. *Neuropsychol Rehabil* 2013;23:619–38. <https://doi.org/10.1080/09602011.2013.824383>.
- [7] Nikles J, Mitchell G, editors. *The Essential Guide to N-of-1 Trials in Health*. Dordrecht: Springer Netherlands; 2015. <https://doi.org/10.1007/978-94-017-7200-6>.
- [8] Cen R, Hussain A, Pak KJ, Mitchell G, Nikles J, Gaudreau S, et al. Do N-of-1 Trials Need IRB Review? *Journal of Empirical Research on Human Research Ethics* 2016;11:250–5. <https://doi.org/10.1177/1556264616662560>.
- [9] Guyatt G, Sackett D, Adachi J, Roberts R, Chong J, Rosenbloom D, et al. A clinician's guide for conducting randomized trials in individual patients. *CMAJ* 1988;139:497–503.
- [10] Stunnenberg BC, Woertman W, Raaphorst J, Statland JM, Griggs RC, Timmermans J, et al. Combined N-of-1 trials to investigate mexiletine in non-dystrophic myotonia using a Bayesian approach; study rationale and protocol. *BMC Neurol* 2015;15. <https://doi.org/10.1186/s12883-015-0294-4>.
- [11] Cohen L, Chaaban B, Habert M-O. Transient Improvement of Aphasia with Zolpidem. *New England Journal of Medicine* 2004;350:949–50. <https://doi.org/10.1056/NEJM200402263500922>.
- [12] Mirza RD, Punja S, Vohra S, Guyatt G. The history and development of N-of-1 trials. *J R Soc Med* 2017;110:330–40. <https://doi.org/10.1177/0141076817721131>.
- [13] Gabler NB, Duan N, Vohra S, Kravitz RL. N-of-1 trials in the medical literature: a systematic review. *Med Care* 2011;49:761–8. <https://doi.org/10.1097/MLR.0b013e318215d90d>.
- [14] Guyatt GH, Keller JL, Jaeschke R, Rosenbloom D, Adachi JD, Newhouse MT. The n-of-1 Randomized Controlled Trial: Clinical Usefulness. *Annals of Internal Medicine* 1990;112:293–9. <https://doi.org/10.7326/0003-4819-112-4-293>.
- [15] Larson EB, Ellsworth AJ, Oas J. Randomized Clinical Trials in Single Patients During a 2-Year Period. *JAMA* 1993;270:2708–12. <https://doi.org/10.1001/jama.1993.03510220064035>.
- [16] Hurtado-Parrado C, López-López W. Single-Case Research Methods: History and Suitability for a Psychological Science in Need of Alternatives. *Integr Psych Behav* 2015;49:323–49. <https://doi.org/10.1007/s12124-014-9290-2>.
- [17] Hersen M. Single-Case Experimental Designs. In: Bellack AS, Hersen M, Kazdin AE, editors. *International Handbook of Behavior Modification and Therapy: Second Edition*,

- Boston, MA: Springer US; 1990, p. 175–210. https://doi.org/10.1007/978-1-4613-0523-1_9.
- [18] Hayes SC. Single case experimental design and empirical clinical practice. *Journal of Consulting and Clinical Psychology* 1981;49:193–211. <https://doi.org/10.1037/0022-006X.49.2.193>.
 - [19] Risley TR, Wolf MM. Strategies for analysing behavioral change over time. *Life-span developmental psychology: Methodological issues*, New York: Academic Press; 1972.
 - [20] Martin JE, Epstein LH. Evaluating Treatment Effectiveness in Cerebral Palsy: Single-Subject Designs. *Physical Therapy* 1976;56:285–94. <https://doi.org/10.1093/ptj/56.3.285>.
 - [21] Dodd B. Re-Evaluating Evidence for Best Practice in Paediatric Speech-Language Pathology. *FPL* 2021;73:63–74. <https://doi.org/10.1159/000505265>.
 - [22] Horner RH, Carr EG, Halle J, McGee G, Odom S, Wolery M. The Use of Single-Subject Research to Identify Evidence-Based Practice in Special Education. *Exceptional Children* 2005;71:165–79. <https://doi.org/10.1177/001440290507100203>.
 - [23] Vance M, Clegg J. Use of single case study research in child speech, language and communication interventions. *Child Language Teaching and Therapy* 2012;28:255–8. <https://doi.org/10.1177/0265659012457766>.
 - [24] Kravitz RL, Duan N, the DECIde Methods Center N-of-1 Guidance Panel. Design and implementation of N-of-1 trials: a user's guide. AHRQ Publication No 13(14)-EHC122-EF Rockville, MD: Agency for Healthcare Research and Quality 2014.
 - [25] Stunnenberg BC, Deinum J, Nijenhuis T, Huysmans F, van der Wilt GJ, van Engelen BGM, et al. N-of-1 Trials: Evidence-Based Clinical Care or Medical Research that Requires IRB Approval? A Practical Flowchart Based on an Ethical Framework. *Healthcare* 2020;8:49. <https://doi.org/10.3390/healthcare8010049>.
 - [26] Boman I-L, Bartfai A, Borell L, Tham K, Hemmingsson H. Support in everyday activities with a home-based electronic memory aid for persons with memory impairments. *Disability & Rehabilitation: Assistive Technology* 2010;5:339–50. <https://doi.org/10.3109/17483100903131777>.
 - [27] Tate RL, Wakim D, Sigmundsdottir L, Longley W. Evaluating an intervention to increase meaningful activity after severe traumatic brain injury: A single-case experimental design with direct inter-subject and systematic replications. *Neuropsychol Rehabil* 2018;1–32. <https://doi.org/10.1080/09602011.2018.1488746>.
 - [28] Dawson DR, McEwen SE, Polatajko HJ. Cognitive Orientation to Daily Occupational Performance in Occupational Therapy: Using the CO-OP Approach to Enable Participation Across the Lifespan. AOTA Press, The American Occupational Therapy Association, Incorporated; 2017.
 - [29] Polatajko HJ, Mandich AD, Miller LT, Macnab JJ. Cognitive orientation to daily occupational performance (CO-OP): part II--the evidence. *Phys Occup Ther Pediatr* 2001;20:83–106.
 - [30] Levin JR, Ferron JM, Gafurov BS. Comparison of randomization-test procedures for single-case multiple-baseline designs. *Developmental Neurorehabilitation* 2016;0:1–21. <https://doi.org/10.1080/17518423.2016.1197708>.
 - [31] Kratochwill TR, Hitchcock JH, Horner RH, Levin JR, Odom SL, Rindskopf DM, et al. Single-Case Intervention Research Design Standards. *Remedial and Special Education* 2013;34:26–38. <https://doi.org/10.1177/0741932512452794>.
 - [32] BOKOBZA, Guillaume. Une étude expérimentale en cas unique pour rechercher l'efficacité d'une orthèse suro-pédieuse rigide dans l'arthrose de cheville. Thesis for the degree of MD. Université de Lorraine, 2018.
 - [33] Weill-Chounlamountry A. H'SPIRES. H'SPIRE; n.d.
 - [34] Quiniou H, Weill-Chounlamountry A. Evaluation of the effects of a rehabilitation and compensatory intervention for visual field deficit after brain injury using a randomized single case experimental method. 2020;Strasbourg University.

- [35] Rose M, Sussmilch G. The effects of semantic and gesture treatments on verb retrieval and verb use in aphasia. *Aphasiology* 2008;22:691–706. <https://doi.org/10.1080/02687030701800800>.
- [36] Merton R. The normative structure of science. Storer NW; 1942.
- [37] World Medical Association. Declaration of Helsinki (2004 revision). 1964.
- [38] Carvallo S. L'éthique de la recherche entre réglementation et réflexivité. *Revue d'anthropologie des connaissances* 2019;13.
- [39] Vohra S, Shamseer L, Sampson M, Bukutu C, Schmid CH, Tate R, et al. CONSORT extension for reporting N-of-1 trials (CENT) 2015 Statement. *BMJ* 2015;350:h1738–h1738. <https://doi.org/10.1136/bmj.h1738>.
- [40] Duan N, Kravitz RL, Schmid CH. Single-patient (n-of-1) trials: a pragmatic clinical decision methodology for patient-centered comparative effectiveness research. *J Clin Epidemiol* 2013;66:S21-28. <https://doi.org/10.1016/j.jclinepi.2013.04.006>.
- [41] Hamburg MA, Collins FS. The Path to Personalized Medicine. *New England Journal of Medicine* 2010;363:301–4. <https://doi.org/10.1056/NEJMp1006304>.
- [42] Turner-Stokes L. Goal attainment scaling (GAS) in rehabilitation: a practical guide. *Clin Rehabil* 2009;23:362–70. <https://doi.org/10.1177/0269215508101742>.
- [43] Krasny-Pacini A, Evans J, Sohlberg MM, Chevignard M. Proposed Criteria for Appraising Goal Attainment Scales Used as Outcome Measures in Rehabilitation Research. *Archives of Physical Medicine and Rehabilitation* 2016;97:157–70. <https://doi.org/10.1016/j.apmr.2015.08.424>.
- [44] WMA Declaration of Helsinki - ethical principles for medical research involving human subjects n.d.
- [45] Lemaire F. La recherche avec bénéfice individuel direct existe-t-elle ? *Med Sci (Paris)* 2004;20:244–7. <https://doi.org/10.1051/medsci/2004202244>.
- [46] Law No. 88-1138 of 20 December 1988 on the protection of persons who undergo biomedical research, known as the Huriet Law or Huriet-Sérusclat Law n.d.
- [47] Law n° 2004-806 of 9 August 2004 on public health policy n.d.
- [48] Directive 2001/20/EC of the european parliament and of the council of 4 April 2001 on the approximation of the laws, regulations and administrative provisions of the Member States relating to the implementation of good clinical practice in the conduct of clinical trials on medicinal products for human use n.d.
- [49] Regulation (EU) No 536/2014 of the european parliament and of the council of 16 April 2014 on clinical trials on medicinal products for human use and repealing Directive 2001/20/EC n.d.

SPECIAL COMMUNICATION

Proposed Criteria for Appraising Goal Attainment Scales Used as Outcome Measures in Rehabilitation Research



Agata Krasny-Pacini, MD,^{a,b,c} Jonathan Evans, PhD,^d McKay Moore Sohlberg, PhD,^e Mathilde Chevignard, PhD^{b,f}

From the ^aOutreach Department for Patients With Acquired Brain Injury, University Rehabilitation Institute Clemenceau Strasbourg, Strasbourg, France; ^bSorbonne Universités, Université Pierre et Marie Curie Paris 06 CNRS, INSERM, laboratoire d'imagerie biomédicale, Paris, France; ^cPediatric Orthopedics Department, Hautepierre Hospital, Strasbourg University Hospitals, Strasbourg, France; ^dInstitute of Health and Wellbeing, University of Glasgow, The Academic Center, Gartnavel Royal Hospital, Glasgow, United Kingdom; ^eCommunication Disorders and Sciences, University of Oregon, Eugene, OR; and ^fRehabilitation Department for Children with Acquired Brain Injury, Saint Maurice Hospitals, Saint Maurice, France.

Abstract

Goal Attainment Scaling (GAS) is a method for writing personalized evaluation scales to quantify progress toward defined rehabilitation goals. In the published literature, GAS methodology is used with different levels of rigor, ranging from precisely written GAS scales that ensure minimal bias and explicitly describe 5 levels of goal attainment to subjective ratings of goal attainment by adjectives (eg, worse/better than expected), which are transformed into a T score, wrongly giving the reader the impression of a truly standardized, interval scale. A drawback of GAS methodology is that it is highly dependent on the ability of the GAS setting team/person to generate valid, reliable, and meaningful scales; therefore, reliability and validity of GAS scales are idiosyncratic to each study. The aims of this article were to (1) increase awareness of potential sources of bias in GAS processes; (2) propose GAS quality appraisal criteria, allowing judgment of the quality of GAS methodology in individual rehabilitation studies; and (3) propose directions to improve GAS implementation to increase its reliability and validity as a research measurement tool. Our proposed quality appraisal criteria are based on critical appraisal of GAS literature and published GAS validity studies that have demonstrated that precision, validity, and reliability can be obtained when using GAS as an outcome measure in clinical trials. We recommend that authors using GAS report accurately how GAS methodology was used based on these criteria.

Archives of Physical Medicine and Rehabilitation 2016;97:157-70

© 2016 by the American Congress of Rehabilitation Medicine

Goal Attainment Scaling (GAS)¹ is a method for writing personalized evaluation scales to quantify progress toward defined goals (both practical guidelines²⁻⁵ and literature reviews on GAS are available in the literature⁶⁻¹⁰). GAS produces an individualized, criterion-referenced measure of a client's goal achievement. Scores can be aggregated to quantify the extent to which a group of clients who are receiving the same type of intervention achieve their personalized rehabilitation goals. One GAS scale is written

for each identified rehabilitation goal, with an emphasis on the client's participation in goal selection when possible. Success of the intervention is then quantified on an ordinal scale, typically ranging from -2 (or -3) to 2.

GAS has therefore 2 intertwined components: (1) GAS methodology is a person-centered approach in rehabilitation that emphasizes collaborative goal setting with the establishment of goals and levels of progress that are meaningful to the client; and (2) GAS is an outcome measure that can be used both in clinical work and research to assess the effectiveness of an intervention based on personally relevant goals. This article focuses on the use of GAS as an outcome measure specifically for rehabilitation efficacy research. The reader is referred elsewhere to reviews of

Supported in part by the French Society of Physical Medicine and Rehabilitation-Allergan prize.

Disclosures: none.

the literature on the clinical aspects of collaborative goal setting.¹⁰⁻¹²

Writing personalized scales through GAS methodology is useful in measuring rehabilitation outcomes, and use of GAS methodology is expanding in research settings, especially in areas where standard scales do not adequately capture a study participant's progress or when a standardized assessment does not exist to measure the construct. GAS methodology offers benefit in the provision of individualized, dependent variables, a critical characteristic for measuring rehabilitation effects. GAS allows use of the same 5-point scale method for all clients and therefore aggregation of results independent of goal type. Further, the goal of rehabilitation is to improve clients' activity and participation in natural contexts, but very few measures are designed to ecologically assess performance. By contrast, GAS allows the transformation of goals related to the *International Classification of Functioning, Disability and Health* (ICF) activity domains into participation goals in defined contexts where the activities occur.^{13,14} Feasibility of GAS has been shown across a variety of rehabilitation fields.¹⁵⁻¹⁹ GAS scales are sensitive to change when testing an intervention in rehabilitation.^{15,16,20-23} GAS characteristics in terms of safety, utility, and responsiveness are therefore encouraging.

However, in the published literature, GAS methodology is used with different levels of rigor, ranging from precisely written GAS scales that ensure minimal bias and explicitly describe 5 levels of goal attainment to subjective ratings of goal attainment by adjectives (eg, worse/better than expected), which are transformed into a T score, wrongly giving the reader the impression of a truly standardized, interval scale. Although the less rigorous form of GAS methodology can be convenient, useful, fast, and practical to use in clinical practice, there is growing concern for its use as an outcome measure in clinical trials^{24,25} and mixed findings as to the reliability^{24,26} and validity of GAS as an outcome measure.²⁵

The aims of this article are to (1) increase awareness of potential sources of bias in GAS processes; (2) propose GAS quality appraisal criteria, allowing judgment of the quality of GAS methodology in individual rehabilitation studies; and (3) propose directions to improve GAS implementation to increase its reliability and validity as a research measurement tool. This article is not addressing use of GAS in clinical setting out-with research.

Methods

A literature search using the PubMed database was conducted to ensure that our critical appraisal of the research was inclusive. The keywords *goal attainment scaling* AND *rehabilitation* OR *therapy* were used to identify articles published between 1990 and 2014. The search returned 179 articles. Twelve articles were excluded because an abstract was not available or because the article was not written in English. A title and abstract review was conducted to identify those articles that evaluated GAS methodology as an outcome measure. Included articles were literature reviews on

GAS, GAS clinical guidelines, articles relating to GAS validity and reliability, and articles relating to training in GAS. We purposefully included articles referring to fields outside physical medicine and rehabilitation that face the same challenges in evaluating treatment efficacy as rehabilitation (especially cognitive interventions from the field of psychiatry and developmental disorders). Articles were excluded if they assessed only GAS feasibility or sensitivity to change/responsiveness, without references to its validity and reliability as an outcome measure. This yielded 36 relevant full-text articles that were reviewed to identify bias in GAS and generate the quality appraisal criteria.

Results

Potential sources of bias in GAS processes and published recommendations for constructing goal attainment scales

Usual criticisms of how GAS methodology has been used include: (1) unknown clinimetric qualities of GAS scales used in a given study because of their idiosyncratic nature²⁵; (2) subjective scoring, especially if not all levels of the scale are formulated or if descriptions are not precise enough; (3) risk of choosing goals that are not clinically relevant or too easy/too difficult to attain²⁷ and therefore do not represent a meaningful or realistic change in function; (4) ordinal (rather than interval) nature of GAS scales²⁸ and the lack of equidistance between GAS levels which cannot be controlled for²⁴; and (5) the use of a T score that uses subjective values, especially a subjective weighting of GAS scores and a ρ coefficient assumed to be 0.3, which has not been confirmed in the literature.^{6,9,28}

A major drawback of GAS methodology is that it is highly dependent on the ability of the GAS setting team/person to generate valid, reliable, and meaningful scales. It has even been proposed that GAS is more a measure of how adequately a therapist can foresee outcome than an outcome measure itself.^{6,29-32} A group of clients may show progress on their GAS scale because of a measurement error, on a GAS scale that is not reliable because of poor interrater reliability (IRR), of too easy goals, of unequal distances between GAS levels, or of use of subjective criteria for goal attainment. This issue has been raised by Ruble et al^{27(p3)}:

"If GAS scores are higher in the experimental conditions...one could argue that the targeted outcomes as scaled using GAS were less difficult and easier for [clients] in the experimental group to achieve compared to the control group; that skills were written in more measureable terms and thus easier to be observed and coded in the experimental groups; or that the intervals between each scaled description were unequal and favored the experimental group."

Because these potential biases can threaten reliability of results obtained through GAS, Kiresuk et al^{1,33} recommended the review of GAS scales by an independent third party, and they even suggested that clients should be evaluated on 2 different sets of GAS scales developed by 2 independent research groups¹ (ie, treatment success should be independent of how the goals were formulated)^{1,34} to minimize bias. Although few publications address this demanding recommendation,^{35,36} it seems crucial that authors using GAS as a research outcome measure provide the reader with information on how the scales were generated and verified (and/or compared between groups on items that may impact on GAS scoring as suggested by Ruble²⁷) to provide information on

List of abbreviations:

GAS Goal Attainment Scaling

ICF International Classification of Functioning, Disability and Health

IRR interrater reliability

reliability and validity. Some authors have found encouraging values of GAS reliability and validity^{15,22,25,35,37} (see also the recent systematic review by Vu and Law⁸). However, the validity and reliability of GAS set by one team (especially an experienced one) does not presume that other GAS scales set by other teams, in other rehabilitation contexts, are valid and reliable.²⁷ GAS clinimetric qualities depend mainly on how experienced the team is in GAS writing. Grant and Ponsford¹² reported the problems encountered when GAS was used by inexperienced teams, without an independent experienced judge checking the scales.

A series of criteria for writing GAS has been proposed^{1,2,35,38}: (1) each GAS level must be described accurately enough to allow a person who was not involved in the GAS writing process to easily classify the client at one of the GAS levels described,¹ with no blank levels³⁹ (levels not precisely described, which content is inferred from adjacent levels); (2) each scale must represent a single dimension of change¹²; (3) the levels must be measurable and therefore defined in terms of observable behaviors^{6,9,40}; (4) the scales must correspond to goals that are important/meaningful to the client; (5) all the levels must be realistic and attainable (in particular, the +2 level must not correspond to an unexpected or miraculous goal attainment level)¹; (6) the time scale within which goals must be attained and scales must be scored should be defined in advance; and (7) the interlevel differences in difficulty must all be the same,^{41,42} (ie, it must be as difficult to progress from -2 to -1 as from -1 to 0 or from 0 to 1 and so forth) and there should be no overlapping and no gap between the levels.³⁹ Part of these criteria are reflected in the “SMART” acronym,³⁸ ie, a goal should be Specific, Measurable, Achievable, Relevant and Time-specific. Although all authors acknowledge the need for GAS to be “SMART,” few report precautions taken to ensure GAS scales are actually “SMART,” and virtually none assess GAS quality when using it as an outcome measure.

Some authors proposed additional recommendations for GAS when it is used in research: (1) including a training program^{15,25,43,44}; (2) establishing all goals before randomization^{45,46} or blinding the goal setter to the patient's treatment/control status⁴⁷; (3) testing of IRR for initial and post-intervention GAS rating^{43,46}; (4) GAS scoring by a blind examiner⁴⁶ who is independent from the team that set the goals^{42,46,48,49} and independent from the therapist providing the intervention^{43,44}; (5) the use of control goals that are not targeted by the intervention⁶; (6) evaluation of the patients on 2 different GAS scales developed by independent therapists (ie, treatment success must be independent of how the goals were formulated)^{1,35,36}; and (7) goal setting by a group (rather than a single therapist or the patient alone) to avoid overly simple or unrealistic goals.³⁴ To our knowledge, the impact of those recommendations on GAS validity and reliability has not yet been studied, and few studies follow these guidelines. Their utility and applicability will be discussed in the discussion section of this article.

Proposed criteria for appraising goal attainment scales

Because GAS is a relevant and responsive outcome measure in rehabilitation research, but used with great variability that weakens the confidence in the results of trials that use this methodology, there is an urgent need for standards relating to GAS use in rehabilitation efficacy research. Our aim was therefore

to propose GAS quality appraisal criteria, that would allow judgment of the quality of GAS methodology in individual rehabilitation studies, that could be used as guidelines to reduce bias and strengthen GAS validity and reliability.

Based on our review of the literature, items for the quality appraisal were included if they met one of the following: (1) historically or traditionally recognized quality criteria (eg, the “SMART” [specific, measurable, attainable, relevant, time-specific] criteria, rules for writing GAS scales by Kiresuk^{1,33}); (2) criteria used by teams who obtained and published a good level of IRR of their GAS data; (3) criteria used in rehabilitation trials to compare GAS quality across experimental groups; and (4) items judged consensually by all authors of this article as potential key candidates for increasing GAS validity and reliability (even in the absence of literature showing their impact on GAS clinimetric quality). Disagreements between authors on included items are developed in the discussion section.

In selecting criteria, the publications of 2 teams were particularly useful. In the methodology of Steenbeek et al,^{23,35,48} 8 GAS characteristics can be identified to ensure the construction of reliable scales: (1) all 5 levels of the GAS are precisely described; (2) GAS scales use objective and observable measures based on performance; (3) context of measurement is precisely described, and factors that might influence performance are controlled for; (4) initial level is systematically verified after scale is set; (5) an independent, blind assessor scores GAS after intervention; (6) GAS data analysis respects the ordinal nature of GAS, using only raw scores and nonparametric statistics; (7) IRR of GAS used in each study is reported; and (8) teams are specifically trained to write reliable GAS scales (refer to Steenbeek et al⁴¹ for an example of training).

Ruble²⁷ describe criteria for using GAS as a main outcome measure in a randomized controlled trial. They suggest the following 3 key questions to ensure comparability of GAS in different experimental groups:

“(a) are the goal and the associated benchmarks relative to each goal described in measurable terms that are comparable between groups (measurability criteria); (b) is the distance between each of the benchmarks for each scale of equal intervals and comparable between groups (equidistance criteria); and (c) is the level of difficulty between the baseline or starting levels of performance and the targeted outcome goal comparable between groups” (difficulty criteria)?^{27(p3)}

In a recent controlled trial,⁵⁰ all GAS scales were compared across the 2 experimental groups on these criteria using a 3-point Likert scale, showing the feasibility of comparing GAS scales across groups in randomized controlled trials.

We propose 17 GAS quality criteria and these are presented in table 1. They are broadly grouped into criteria that relate to the content validity of scales (4 items), reliability of scale construction (4 items), reliability of scale rating (5 items), and additional items relating to training, examiner bias, statistical analysis, and provision of a sample scale (4 items). If GAS is used in a controlled trial, we propose that GAS scales should not only be checked but also compared between groups, similarly to the methodology proposed by Ruble²⁷ for relevant items. For large trials, we propose that at least 20% of GAS scales be checked/compared.

GAS validity

GAS should be used when standardized assessment does not exist to measure the construct. Content validity of GAS scales is

Table 1 GAS methodology quality appraisal for rehabilitation efficacy studies

Quality Appraisal Items	Item Description	Examples of Reported Criteria, Extracted From Rehabilitation Effectiveness Studies and/or Published Methods That Satisfy Criteria	Potential for Bias Arising From Failure to Report Criteria and/or Utility of Reporting the Criterion
Content validity			
Collaborative goal setting	The client/family is included in goal selection when possible and appropriate. If goals are therapist chosen, they rely on a comprehensive assessment (and when possible, a client/family interview), identifying key target domains for intervention.	"GAS was used to assess functional and participation changes from both a parent and therapist perspective." ^{51(p824)} "Using a semi-structured interview...3 performance goals were identified at baseline by parents and child with the research physical therapist. The same 3 goals were then structured for GAS through semi-structured interview and by collaboration between research therapist, parent and child." ^{52(p6)}	Collaborative goal setting allows evaluation of intervention efficacy for personally meaningful goals, rather than generic goals, and is a core component of GAS methodology. Involvement of the client in goal setting is considered to increase the likelihood that the intervention has direct impact on client's daily life.
Relevance/importance	GAS scales have been verified by an external judge to check for the relevance of chosen goals and to check if GAS levels represent clinically meaningful change.	In a study of infants with motor delays, Palisano ³⁷ used a 5-point scale to assess the following: (1) importance of goals for motor development ranging from unimportant or inappropriate to important for development and function; and (2) extent each level represents an important progress based on the number of paired levels that represent important change (none to all 4 paired levels). Cardillo ⁵³ proposed a 5-point scale ranging from 1 (no relevance) to 5 (total relevance). In a study of botulinum toxin effectiveness, Turner-Stokes et al ²⁹ report exhaustively the types of goals for treatment, categorizing them into ICF domains (body function: 46 GAS, including 12 GAS on passive movement/range; activities and participation: 119 GAS, divided into upper-limb activities: 30 GAS; mobility: 11 GAS; self-care: 57 GAS; domestic and community: 21 GAS). Phillips et al ^{54(p540)} report precise examples of target goals in different ICF domains (eg, "driving for 40 minutes without feet going floppy"; "standing in supermarket queue for 3 minutes without support").	If the target goal is unimportant to the client, irrelevant for function, or does not correspond to a clinically meaningful change, progress on the GAS scale has no clinical relevance. At the extreme, an intervention could be proven to be effective, by writing clinically and personally irrelevant goals, but showing statistically significant progress on the corresponding GAS scale.
ICF classification of goal types	GAS themes correspond to functional domains. Authors report the ICF domain the GAS relates to.		If GAS scales assess change in body structures (eg, range of motion, spasticity), the reader may wrongly conclude that the intervention had an impact on meaningful activity and participation because most readers associate GAS with functional daily life goals. It is therefore crucial that authors report the proportion of goals in each ICF domain, especially if some of the goals do not correspond to functional domains.

(continued on next page)

Table 1 (continued)

Quality Appraisal Items	Item Description	Examples of Reported Criteria, Extracted From Rehabilitation Effectiveness Studies and/or Published Methods That Satisfy Criteria	Potential for Bias Arising From Failure to Report Criteria and/or Utility of Reporting the Criterion
Specificity	GAS scales have been verified by an external judge to check for specificity to the aim of the intervention. If GAS is used as a generalization measure to untrained goals, GAS should be specific to the function the intervention is aiming to improve.	In an intervention for executive dysfunction in children,⁵⁵ a specific goal of intervention was to manage a cooking recipe unaided, which was trained on different recipes; a generalization goal was to be able to prepare a school bag, which was not trained (but stepwise processing taught was expected to generalize to this untrained goal). Although important to the children, goals (eg, have more friends) were not included because they were not specific to the aim of intervention, but they might have been used as control goals, not expected to be attained.	Goals that are relevant to the client, but unrelated to the specific intervention, are unlikely to show progress and may erroneously lead to the conclusion that the intervention is not effective (this is especially a risk in replication studies).
Reliability			
Reliability of scale construction			
Equidistance of levels	GAS scales have been verified by an external judge to check if difficulty from one level to the next is roughly equal.	Equidistance of GAS levels was assessed and compared statistically between 2 experimental groups using a 3-point scale by Ruble et al^{27(p14)}: "1: None or only one of the descriptions are equilibrated appropriately in reference to the goal; 2: Two of the descriptions are equilibrated appropriately in reference to the goal; 3: All of the descriptions relative to the goal are equilibrated and scaled appropriately)."	If GAS scores are higher in the experimental conditions, one could argue that the intervals between each scaled description are unequal and favor the experimental group. This problem is particularly serious if parametric statistics and T scores are used.
Preintervention performance	Preintervention performance has been verified and corresponds to initial level described in the scale. Preintervention score is comparable across groups (same number of clients starting from -2 and -1).	"At first baseline, GAS were created based on parent's, teacher's and school assistant's concerns. After two months (second baseline), the paper versions of the scales were scored by parents, teachers and school assistants who were not aware that the intervention had not started yet. Their answers allowed readjustment of the scales, through the following rules: Scales that scored 0 were reformulated in order to have the pre-intervention level (measured at second baseline) corresponding to -1 by fixing more challenging 0, +1 and +2 scores. Scales scoring -2 or -1 were not reformulated. Scales scoring +1 or +2 pre-intervention were removed as the goal seemed attained without intervention or unreliably scored due to potential enthusiasm effect and motivation driving perceived change independently from intervention that had not started."⁵⁵	GAS scales are constructed uniquely for each client, according to his/her initial level in relation to the target goal. If preintervention level is not verified, the whole scale may be unreliably constructed (erroneous starting point of the scale generating inappropriate next levels).

(continued on next page)

Table 1 (*continued*)

Quality Appraisal Items	Item Description	Examples of Reported Criteria, Extracted From Rehabilitation Effectiveness Studies and/or Published Methods That Satisfy Criteria	Potential for Bias Arising From Failure to Report Criteria and/or Utility of Reporting the Criterion
Attainability/difficulty	GAS scales have been verified by an external judge to check for their difficulty/attainability.	Ruble ^{27(p14)} compared GAS scales for difficulty in a trial of cognitive intervention: "1: Skill is very close to what the child is already described as able to perform (very easy); 2: The child is able to perform the skill in limited ways compared to what is written in the objective (limited people, prompts, or places...); 3: The child is unable to perform skill with anyone, anywhere, or with any prompts compared to what is written in the objective (difficult)." In a study of infants with motor delays, Palisano ³⁷ asked experts to decide which of the 5 GAS levels the child was most likely to achieve after 3 months, aiming at a maximum of 0 and a minimum of extreme -2 and +2 scores, if GAS levels were decided correctly. Cardillo ^{53(p53)} reported that realism of the expected level of outcome "for each goal, for this patient, at this time, in this mental health service" was assessed by a scale ranging from 1 (much too difficult) to 5 (much too easy). He also reviews other methods that use 3- or 5-point scales using pessimistic/realistic/optimistic terms. Such scales could be easily used in physical medicine and rehabilitation to compare attainability/difficulty of goals between 2 groups.	An experimental group may falsely present higher GAS scores postintervention because GAS scales were formulated with easier levels of goal attainment.
Time-specificity	Authors specify if/how longer-term goals were adapted to the specific time frame of the research study. In the case of multiple assessment, authors specify which assessment was taken as the target moment for goal achievement.	In the randomized controlled trial of Lowe et al, ⁵¹ children were evaluated at 13 different time points. It is not reported which assessment point was taken as the reference to choose the 0 level (level that will most probably be attained after intervention), criterion unmet.	Goal difficulty across experimental groups may have been unequal at a given assessment point because of differences in time frames for goal completion.
Reliability of scale rating IRR	IRR of GAS scales is reported.	In a study of Steenbeek ⁴⁸ in cerebral palsy, IRR was reported based on 2 judges using video-taped performance of each goal.	Reliability of GAS set by one team (especially an experienced one) does not presume that other GAS scales set by other teams, in other rehabilitation contexts, are reliable. Therefore IRR should be reported for the specific GAS scales generated in each study.

(continued on next page)

Table 1 (continued)

Quality Appraisal Items	Item Description	Examples of Reported Criteria, Extracted From Rehabilitation Effectiveness Studies and/or Published Methods That Satisfy Criteria	Potential for Bias Arising From Failure to Report Criteria and/or Utility of Reporting the Criterion
Criteria affecting IRR Precise description of all levels	Five GAS levels have been precisely described preintervention for each scale.	Goal: to reduce weekly shopping expenditure. For the total weekly food/household shopping expenditure: +2 (<\$42.99), +1 (\$46.99–\$43.00), 0 (\$54.00–\$47.00), –1 (\$63.00–\$54.01), and –2 (>\$63.00). ⁵⁶	When all levels of the scales have not been precisely decided and described prior to intervention, authors often use adjectives, such as worse than expected and much better than expected, to score goal attainment. This is a subjective appreciation that may be useful clinically, but it is too imprecise to objectively determine intervention efficacy.
Measurability	GAS scales have been verified by an external judge to check for measurability. Subjective and general goals are transformed into more objective and measurable goal attainment indicators.	Good measurability: observable and objective performance with specified task (eg, a child's goal to fall less is assessed through "an obstacle course including jumping and quick changes of walking direction. The therapist encourages [the child] to complete the course within 3min. Instruction 'Walk the obstacle course fast and don't fall'; GAS levels: -1: falls 3 times, 0: falls 2 times..."). ^{35(p432)} Unclear measurability: subjective criteria or scored based on interviews rather than direct observation of performance (eg, "I am able to express opinions and feelings two times or more per week...", with no self-assessment method specified ^{9(p258)}). See Ruble ^{27,50} for an example of assessment of measurability of social and cognitive goals.	A goal that is not measurable will yield subjective scores, biased by clients' or therapists' feelings/state of mind at the moment of scoring, rather than a reliable measure of goal attainment.
Unidimensionality	GAS scales have been verified by an external judge to check for unidimensionality.	Example of a nonunidimensional scale: "–1: I use 0–1 coping skills consistently and feel depressed and angry more than 40% of the time.; 0: I use 2–3 coping skills consistently and feel depressed and angry 25–40% of the time..." ^{9(p258)} Example of a truly unidimensional scale: "...–1: Manages to eat a bowl of mashed potatoes unaided but takes more than 15 minutes; 0: Eats a bowl of mashed potatoes in 11 to 15 minutes..." ^{5(p214)}	Nonunidimensional goals are impossible to score because progress on one dimension may not be accompanied by progress on another dimension and may generate situations where GAS cannot be scored (see Grant and Ponsford ¹² for an example). Bi- (multi-) dimensional GASs should be split into 2 (or more) unidimensional GAS prior to intervention start.

(continued on next page)

Table 1 (continued)

Quality Appraisal Items	Item Description	Examples of Reported Criteria, Extracted From Rehabilitation Effectiveness Studies and/or Published Methods That Satisfy Criteria	Potential for Bias Arising From Failure to Report Criteria and/or Utility of Reporting the Criterion
Context of measurement	Context of performance measurement is clearly defined (prompts, cueing, support, amount of help/guidance, location...) and is controlled for during GAS rating OR changes in context are carefully manipulated across the GAS levels, with one change per level at a time. ²	For example, setting/prompting/guidance: "in order to create an irregular surface, a ladder is placed horizontally at a height of 15cm, the girl is asked to walk barefoot without orthosis, as quickly as possible, through the rungs over a distance of 8 meters. Only if she falls a therapist will help her holding one of her hands." ^{48(p276)} For example, "GAS level -1: Prepares school bag but requires constant verbal guidance from the parents or teacher; GAS level 0: Manages to prepare the school bag using a check-list of necessary steps and under supervision; GAS level +1: Manages to prepare school bag alone, using a check-list of necessary steps; GAS level +2: No supervision required, child only occasionally forgets items." ^{5(p214),55(p11)}	Context of measurement influences performance on a given target goal (environment, fatigue, help provided...). These factors must be controlled to increase GAS scoring reproducibility.
Other criteria Training	Researchers setting the GAS with the client and verifying GAS have received training in writing GAS, have practiced GAS writing, are aware of potential sources of bias in GAS, and are experienced in the goal domain/population.	Although training in GAS writing is reported as being important, ⁴³ and successful training methods have been published, ⁴¹ most studies do not report on therapists' training. Some studies report to which practical GAS guide ^{2,4} they refer to, but without mention of training. ^{57,58} Those mentioning training do not explain the type of training (eg, "Experienced pediatric occupational therapists were trained in and completed the GAS collaboratively with the families, thus enhancing the reliability of the GAS." ^{63[p194]}).	Given the numerous and complex potential sources of bias in GAS processes, a team that is not experienced in using GAS methodology is unlikely to produce valid and reliable GAS. Further, a team without specific experience in the goal domain or the specific population with whom the intervention is tested will have difficulty in predicting what can be attained in a given time frame, even if experienced in GAS methodology in another domain (risk of unrealistic goals, unequal difficulty across clients, irrelevant goals to the specific population...).

(continued on next page)

Table 1 (continued)

Quality Appraisal Items	Item Description	Examples of Reported Criteria, Extracted From Rehabilitation Effectiveness Studies and/or Published Methods That Satisfy Criteria	Potential for Bias Arising From Failure to Report Criteria and/or Utility of Reporting the Criterion
Examiner bias	The person scoring the GAS at the end of the intervention is independent from the team who set the GAS (and independent from the team that provided the intervention; however, the latter is not a GAS-specific criterion).	For example, "Goals were chosen and set before the patient was allocated to a group...goal attainment was scored by an independent assessor at post-treatment and at follow-up." ^{57(p941)} For example, "The therapist-GAS was scored from video by blind evaluators. The parent-GAS was scored by two blinded occupational therapists." ^{51(p824)}	If the same person sets the GAS and scores them, he/she is likely to be biased toward scoring a maximum of 0 (attained as expected). He/she may rely on memory of initial performance and subjective impression of improvement to score ambiguous progress. The independence of the assessor should also be respected when goals are client/family chosen when GAS is an outcome measure in research (in contrast with clinical practice, where GAS scoring by the client may be relevant and appropriate).
Statistical analysis	Ordinal nature of GAS scales is preserved using nonparametric statistics (rank tests, medians, box plots).	For example, "It was decided not to use the popular T score in order to preserve the ordinal nature of the data...group effects were demonstrated by testing the difference between all medians...using a two-tailed Wilcoxon signed ranks test." ^{48(p277)}	The performance of arithmetic operations (eg, T scores on ordinal data) is scientifically not valid ²³ and should be discouraged because it yields erroneous interpretation of data. In GAS, the problem is multiplied by characteristics of the T score formulae (unknown true value of p, T score variation according to the number of goals per client even at equal degree of attainment, highly subjective weighting of goals, which although clinically meaningful, introduces further potential arithmetic incoherence in the final T score).
Example of GAS	One (or more) example of a typical GAS full scale, extracted from the trial, is provided. A list of chosen goals is reported.	Some authors provide an example of the full GAS scale in the article ^{48,56,59} in the methods or results section. Examples of goal types can be given (1) by providing examples of goal in the articles ^{42,52,60-62} ; (2) by reporting chosen goals in the appendix ^{12,60} ; or (3) by reporting goal type and frequency of each type without providing an exhaustive goal list. ^{48,63,64}	Providing examples allows the reader a quick judgment/idea of goal type, precision of goal and levels description, measurability, and unidimensionality of GAS. The lack of GAS examples contributes to make GAS seem like an abstract outcome measure: unlike standardized scales, the reader cannot build a representation of the target goals of the intervention. Therefore, reporting all goals in an appendix and providing example(s) of full GAS scales (representative of different domains measured) should be encouraged to increase interpretability.

NOTE. Criteria are grouped in accordance to the clinimetrics they mostly impact; however, some items may impact both reliability and validity. If GAS is used in a controlled trial, GAS scales should not only be checked but also compared between groups, similarly to the methodology proposed by Ruble.²⁷ For large trials, we propose (as for IRR) that at least 20% of GAS scales be checked.

commonly thought to be high if the goal has been collaboratively set with the client wherever possible, and this is the first criterion. Goals should be relevant and reflect clinically meaningful change, and this needs to be independently verified. To document the functional relevance of goals, the ICF domain that the goals reflect should be documented. Specificity is core to “SMART” (specific, measurable, attainable, relevant, time-specific) goal setting but with several definitions. Our specificity criteria relates to whether goals set specifically relate to the intervention being tested; in research it is important to be able to articulate how a particular intervention will lead to achieving the desired goal.

GAS reliability

There are 2 types of reliability that are particularly important in GAS. The first is reliability in the way the scale was constructed (ie, even with an excellent IRR, the scale may not be reliable because of nonequidistant levels, erroneous starting preintervention levels, too easy goals/GAS levels, and an unspecified time frame for goals’ attainment influencing the relative difficulty of attaining a specific goal at the generic postintervention assessment time point). The first 4 reliability criteria reflect these issues.

The second is reliability in scoring a given GAS scale. Measuring IRR provides a check on measurement accuracy. The following 4 items are thought to impact IRR: GAS scales where each level is not precisely described, that use subjective criteria for goal attainment with poor measurability or multidimensional scales, and which do not control for context of measurement, are likely to show lower IRR. Future research is needed to evaluate if respecting those criteria allows better IRR. An adequately measured and reported IRR could release authors from checking all GAS for those items (as training in GAS on those items is likely to generate scales with greater IRR). Because measuring their IRR is time-consuming and requires an additional staff member, for large trials we propose that at least 20% of GAS scales be tested for IRR (similar to the 20% of measurement criteria of N-of-1 trial standards⁶⁵ and the Ruble study²⁷).

Additional items

The final 4 criteria are included to further reduce potential for bias and increase confidence in GAS in research reports. They relate to training of staff writing GAS scales; independence of the person(s) evaluating goal achievement from those who set the goals; use of appropriate statistical analysis methods; and provision of examples of GAS scales in research reports.

Discussion

The proposed criteria are indisputably challenging to meet. Most research using GAS does not meet all criteria. However, it seems important to set out the highest possible criteria for all forms of research, even though few studies can meet all of the criteria. The proposals here are intended for research, where outcome measures must be valid and reliable to prevent erroneous conclusions about the effectiveness of an intervention. They do not discredit less rigorous but more user-friendly, more practical, and less time-consuming uses of GAS in clinical practice.

Controversial criteria

Should GAS use be restricted to collaboratively set goals? In the literature, goals are often set in collaboration between

client/family and therapist,^{52,54,60,61,63} but they may also be chosen by the therapist alone^{51,57} or by the client/family alone.^{51,62} Initially, the GAS methodology was invented to assess any goal-directed enterprise, including the functioning of a crisis intervention center³⁴ or a hospital-based pharmacy project.³⁴ Initially, goals could therefore be chosen by any professional, with or without participation of the client. In the last 20 years, as rehabilitation moved toward a more person-centered approach,⁶⁶ GAS has become increasingly used as a method for collaborative goal setting and an outcome measure. Literature on brain injury⁶⁷ developed guides and methods of collaborative goal setting^{9,10,32,56} and linked use of GAS as an outcome measure with active client participation in goal setting. However, GAS may be valuable in physical medicine and rehabilitation domains where client participation in goal selection is not possible (eg, patients with a minimally conscious state, clients with severe intellectual and behavioral impairment) or not essential (eg, early interventions after stroke to prevent contractures and shoulder pain, motor development in infants with attainment of developmental stages that may not be relevant for the family immediately but that are believed to be crucial for future development and future more functional goals). GAS may also be used to assess effectiveness of an intervention at a health provider level (eg, goal of reducing pressure ulcer incidence/need for surgery after a group therapeutic education in a spinal cord injury unit). Because collaborative goal setting is time-consuming for therapists and cognitively demanding for clients (especially those with brain injury), therapists may use collaborative goal setting for some goals, while choosing themselves goals of other domains that are indisputably useful for this client and the focus of the intervention being tested. Therefore, we propose here a less restrictive requirement (in the collaborative goal setting item) allowing for therapist-chosen goals. In all cases, authors should report if goals were not collaboratively set and provide reasons for their choice.

Most often, GAS scales are set for goal-focused rehabilitation where the goal is directly trained and GAS represents the degree of progress toward a goal. However, it has also been proposed that GAS could be a measure of generalization⁵⁵: that is, after training relating to a cognitive function (eg, executive functions, memory), the use of GAS scales can help assess if training lead to gains in daily life (eg, GAS relating to activities relying on executive functions, such as preparing a schoolbag; GAS relating to memory, such as taking medicines on time), without specifically addressing these goals. A valuable approach is to use both a set of trained goals (and corresponding GAS) and a set of untrained goals (and corresponding GAS) and then to focus the intervention on training the former while using the latter as an untrained ecologic generalization measure. Further, it has been proposed that control goals⁶ (and related GAS scales) that are not expected to show progression are used to demonstrate the specificity of an intervention (ie, the client does not just progress on all goals because of general cognitive stimulation or goal-driven motivation, but they progress on the specific goal that is trained or that relates to the trained function needed to achieve an untrained generalization goal).

Authors should report the types of goals chosen in their study using the ICF. GAS types vary considerably between studies and do not always measure a meaningful goal, but they may remain in the body structure and function (eg, gait pattern,⁶⁸ range of motion²⁹). A clear demonstration of functional benefit to the client in

terms of activity and participation is increasingly required to show an intervention is effective, and GAS should relate to activity and participation domains as much as possible. When using GAS for body structures, there is a risk that GAS be used as a way of getting around the need for standardized measures. A methodologic error often seen with GAS is to convert existing (or even standardized) scales into GAS scales. This is done for 3 practical reasons: (1) to help measure a particularly complex goal (eg, “if cognitive restructuring...is an important treatment component, it may be advantageous to include a standardized pain beliefs scale as a goal area”^{47(p62)}); (2) to transform a meaningless number into a relevant and meaningful goal; and (3) to obtain the same outcome measure for all clients. For example, for botulinum toxin treatment, the goal for one client may be to decrease pain measured on a visual analog scale and then transformed into a GAS scale depending on the pain level considered, whereas the goal for another client may be to decrease equinus (measured in degrees) in a gait analysis laboratory and then the range of motion is transformed into a GAS scale presenting a range of ankle positions. However, such a conversion is done at the expense of losing the linearity of the original measure; although very useful in clinical practice, it is scientifically acceptable only if data are analyzed as truly ordinal (therefore not using T scores or means or any arithmetical operation).^{28,69-71}

Can GAS levels be equidistant and GAS data be interval in form? This is possible if a calibration by Rasch analysis on an item bank is carried out as proposed by Tennant,²⁴ but it is at the expense of losing GAS adaptability to any goal.¹² Otherwise, GAS levels are very unlikely to be interval despite all precautions, corrections, and comparisons used to minimize level inequality bias. Therefore, ordinal interpretation of GAS, using rank tests (see Steenbeek⁴⁸ for an example), and excluding all arithmetic procedures^{24,70,72} on GAS scores seems to be the most reasonable option for GAS data analysis. It is indisputably difficult to set 5 equidistance GAS levels, but simple rules can be postulated to facilitate the choice of levels (both for goal setters and the external judge who checks GAS levels and compares equidistance between 2 groups): (1) avoid setting half levels (eg, -0.5 as proposed by Turner-Stokes and Williams⁷³); and (2) have all clients start from the same initial score and therefore have all clients assessed on the same number of levels of goal attainment (see Krasny-Pacini et al⁵ for a discussion on advantages of scoring the initial level at -2 or -1).

What type of staff training should be required in order to use GAS in a research protocol? Smith³⁹ proposed that a minimum of 1-year experience is required to develop relevant and realistic scales. Basic knowledge of GAS and experience in collaborative goal setting is not sufficient, as shown by Grant et al.^{12,56} Reading a practical guide²⁻⁵ may be sufficient for GAS clinical use but not for studies aiming at producing valid and reliable GAS. A number of authors^{41,53} propose practical training that is largely based on formulating and correcting GAS scales, based on clients' real goals. We recommend that such a practical training be used. This should also raise awareness on GAS quality criteria the study will be judged on and make GAS scoring easier after the intervention. The quality appraisal here proposed could be the focus of such training.

Challenges in GAS methodology

GAS was intended to be a person-centered measure. Is there a risk of losing its person-centered nature when trying to meet measurement criteria for controlled efficacy trials? The risk of insisting on an

observable and measurable goal is to exclude family and client appreciation of goal attainment. Appreciation of goal attainment by clients may be subjective and is affected by a series of factors (self-awareness, denial, memory, high involvement in goal pursuit) that can bias the perceived attainment of a goal; however, goal identification and measuring its attainment should be person-centered. The challenge for clinicians and researchers is therefore to understand and analyze the client's (and/or his/her families) goal and transform it into an observable, objective, performance-based measure that can then be used to discuss goal attainment with the client. For example, a general goal of improving memory expressed by a client can be transformed into a GAS scale that measures memory functioning in real-life situations agreed with the client (eg, number of medicines taken on time without prompting, number of failed-to-deliver messages in 1 week). Scoring GAS based on a simple interview should be avoided when possible, and creativity should be used to link subjective goals in difficult domains to more objective goal attainment indicators. For example, for a GAS scale on anger management or use of social skills, rather than asking the client to recall how often she/he felt she/he could cope with anger or effectively use social/language skills, an effort should be made to choose indirect indicators of goal attainment, such as a review of controlled versus overt anger at the end of a day by the client or proxy rating of social/language skills (eg, how many times she/he initiated/contributed to conversation or was understood) after regular naturally occurring events (eg, outing with friends, family dinner). It is probably the most challenging part of GAS methodology, but it has been demonstrated that it is feasible to have GAS that is both person centered in the choice of goal and objective in the formulation of GAS scales (for an example see Steenbeek³⁵).

N-of-1 trial literature faces the same challenges and offers growing ingenious methods for assessment of domains not directly accessible to classical performance-based objective measures. These methods include use of smartphone reminders to self-assess goal attainment at regular periods to decrease memory bias (for an example see Arco⁷⁴), use of naturally occurring situations monitored in real life by family/proxy to decrease self-awareness bias (for an example see Baldwin and Powell⁷⁵), and use of objective behavioral measures that are thought to reflect the underlying psychological (eg, happiness⁷⁶) or cognitive (eg, functioning at school^{77,78}) target goals. Future research should extend goal menus such as those proposed by Ashford et al⁷⁹ to more challenging domains (eg, goals relating to social and psychological functions, goals focusing on performance in an ecologic setting), using also N-of 1 trial literature. When goal attainment indicators are ecologic and monitored by the client or proxies, calculating an IRR is impossible (or difficult) and GAS should be checked for items (see table 1): precise description of all GAS levels, measurability, unidimensionality, and context of measurement to increase reliability in scoring. A reasonable compromise between scientific rigor and a person-centered approach could be to have for each client at least 1 ecologic client-centered GAS (with the risk of being less reliable) and at least 1 performance-based GAS (with the risk of being less ecologic). In all cases, Kiresuk et al recommended to “anchor scale points with behavioral or other evidence that will be meaningful to the client and readily scored by the rater.”^{33(p31)}

Study limitations

This article has a number of limitations. Choice of included criteria was not based on a consensual agreement of all major

teams using GAS in research but of 4 teams from 3 different countries. The aim of this article was to raise awareness about the variability of GAS use in published research and the need to build, in the future, a consensus on the use of GAS in efficacy research in rehabilitation. Although it may be viewed as a limitation, we purposefully did not validate externally an appraisal score; therefore, the present guide acts only as a starter for discussion and not a validated tool imposed on other teams that were not included in the writing of the article.

Conclusions

GAS has the potential to be sensitive to change after treatment and be applicable across divergent domains of rehabilitation, making it a useful rehabilitation efficacy research outcome measure. However, GAS is used in studies with variable rigor that impacts its validity and reliability and therefore reduces the confidence one can have in the results of a trial using GAS as an outcome measure. Clinimetric qualities of GAS are highly dependent on the way GAS scales are written; therefore, clinicians, researchers, and reviewers cannot rely on published studies of metrologic qualities of GAS obtained in different research studies. Researchers should be aware of the risk of bias related to the use of imprecisely written GAS scales in research and make all possible efforts to minimize this bias by constructing high-quality GAS scales for their clients, following recommendations described here and in previously published examples.^{27,48} There is a need to develop in the future a GAS quality appraisal score, similarly to standards used in other rehabilitation controversial fields, such as N-of-1 trials.⁶⁵ In this article we propose 17 criteria for appraising GAS quality in trials using GAS as an outcome measure. We recommend that authors using GAS report accurately how GAS methodology was used based on these criteria. The reliability of these criteria needs to be established, but in the meantime we invite comment and discussion of these proposals as we move toward a consensus on standards for use of GAS in rehabilitation research.

Keywords

Goals; Methods; Outcome assessment (health care); Reference standards; Rehabilitation; Reproducibility of results; Research design

Corresponding author

Agata Krasny-Pacini, MD, Outreach Department for Patients With Acquired Brain Injury, University Rehabilitation Institute Clemenceau Strasbourg, 45 bd Clemenceau, 67082 Strasbourg, France. *E-mail address:* agatakrasny@yahoo.com.

Acknowledgment

We thank Fabienne Roumenoff-Turcant, MD, Department of Pediatric Rehabilitation, Centre Médico-Chirurgical de Réadaptation des Massues, Lyon, for her feedback and suggestions on the first draft.

References

1. Kiresuk TJ, Sherman R. Goal Attainment Scaling: a general method for evaluating comprehensive community mental health programs. *Comm Mental Health J* 1968;4:443-53.
2. Bovend'Eerd TJ, Botell RE, Wade DT. Writing SMART rehabilitation goals and achieving goal attainment scaling: a practical guide. *Clin Rehabil* 2009;23:352-61.
3. Turner-Stokes L. Goal Attainment Scaling: a practical guide. Available at: <http://www.kcl.ac.uk/lsm/research/divisions/cicelysaunders/attachments/Tools-GAS-Practical-Guide.pdf>. Accessed October 14, 2015.
4. Turner-Stokes L. Goal attainment scaling (GAS) in rehabilitation: a practical guide. *Clin Rehabil* 2009;23:362-70.
5. Krasny-Pacini A, Hiebel J, Pauly F, Godon S, Chevignard M. Goal Attainment Scaling in rehabilitation: a literature-based update. *Ann Phys Rehabil Med* 2013;56:212-30.
6. Schlosser RW. Goal attainment scaling as a clinical measurement technique in communication disorders: a critical review. *J Commun Disord* 2004;37:217-39.
7. Hurn J, Kneebone I, Cropley M. Goal setting as an outcome measure: a systematic review. *Clin Rehabil* 2006;20:756-72.
8. Vu M, Law AV. Goal-attainment scaling: a review and applications to pharmacy practice. *Res Soc Adm Pharm* 2012;8:102-21.
9. Malec JF. Goal Attainment Scaling in rehabilitation. *Neuropsychol Rehabil* 1999;9:253-75.
10. Bouwens SF, van Heugten CM, Verhey FR. The practical use of goal attainment scaling for people with acquired brain injury who receive cognitive rehabilitation. *Clin Rehabil* 2009;23:310-20.
11. Evans JJ. Goal setting during rehabilitation early and late after acquired brain injury. *Curr Opin Neurol* 2012;25:651-5.
12. Grant M, Ponsford J. Goal attainment scaling in brain injury rehabilitation: strengths, limitations and recommendations for future applications. *Neuropsychol Rehabil* 2014;24:661-77.
13. Ostensj  S, Oien I, Fallang B. Goal-oriented rehabilitation of pre-schoolers with cerebral palsy—a multi-case study of combined use of the Canadian Occupational Performance Measure (COPM) and the Goal Attainment Scaling (GAS). *Dev Neurorehabil* 2008;11:252-9.
14. McDougall J, Wright V. The ICF-CY and Goal Attainment Scaling: benefits of their combined use for pediatric practice. *Disabil Rehabil* 2009;31:1362-72.
15. Rushton PW, Miller WC. Goal attainment scaling in the rehabilitation of patients with lower-extremity amputations: a pilot study. *Arch Phys Med Rehabil* 2002;83:771-5.
16. Khan F, Pallant JF, Turner-Stokes L. Use of goal attainment scaling in inpatient rehabilitation for persons with multiple sclerosis. *Arch Phys Med Rehabil* 2008;89:652-9.
17. Hazard RG, Spratt KF, McDonough CM, et al. The impact of personal functional goal achievement on patient satisfaction with progress one year following completion of a functional restoration program for chronic disabling spinal disorders. *Spine* 2009;34:2797-802.
18. Lewis VJ, Dell L, Matthews LR. Evaluating the feasibility of Goal Attainment Scaling as a rehabilitation outcome measure for veterans. *J Rehabil Med* 2013;45:403-9.
19. Hanssen KT, Salty  Benth J, Beiske AG, Landr  NI, Hessen E. Goal attainment in cognitive rehabilitation in MS patients. *Neuropsychol Rehabil* 2015;25:137-54.
20. Rockwood K, Howlett S, Stadnyk K, Carver D, Powell C, Stolee P. Responsiveness of goal attainment scaling in a randomized controlled trial of comprehensive geriatric assessment. *J Clin Epidemiol* 2003;56:736-43.
21. Turner-Stokes L, Williams H, Johnson J. Goal attainment scaling: does it provide added value as a person-centred measure for evaluation of outcome in neurorehabilitation following acquired brain injury? *J Rehabil Med* 2009;41:528-35.

22. Rockwood K, Joyce B, Stolee P. Use of goal attainment scaling in measuring clinically important change in cognitive rehabilitation patients. *J Clin Epidemiol* 1997;50:581-8.
23. Steenbeek D, Gorter JW, Ketelaar M, Galama K, Lindeman E. Responsiveness of Goal Attainment Scaling in comparison to two standardized measures in outcome evaluation of children with cerebral palsy. *Clin Rehabil* 2011;25:1128-39.
24. Tennant A. Goal attainment scaling: current methodological challenges. *Disabil Rehabil* 2007;29:1583-8.
25. Steenbeek D, Ketelaar M, Galama K, Gorter JW. Goal attainment scaling in paediatric rehabilitation: a critical review of the literature. *Dev Med Child Neurol* 2007;49:550-6.
26. Bovend'Eerd TJ, Dawes H, Izadi H, Wade DT. Agreement between two different scoring procedures for goal attainment scaling is low. *J Rehabil Med* 2011;43:46-9.
27. Ruble L, McGrew JH, Toland MD. Goal Attainment Scaling as an outcome measure in randomized controlled trials of psychosocial interventions in autism. *J Autism Dev Disord* 2012;42:1974-83.
28. MacKay G, Somerville W, Lundie J. Reflections on goal attainment scaling (GAS): cautionary notes and proposals for development. *Educ Res* 1996;38:161-72.
29. Turner-Stokes L, Baguley IJ, De Graaff S, et al. Goal attainment scaling in the evaluation of treatment of upper limb spasticity with botulinum toxin: a secondary analysis from a double-blind placebo-controlled randomized clinical trial. *J Rehabil Med* 2010;42:81-9.
30. Cytrynbaum S, Ginath Y, Birdwell J, Brandt L. Goal Attainment Scaling - a critical review. *Eval Rev* 1979;3:5-40.
31. Simeonsson RJ, Bailey DB Jr, Huntington GS, Brandon L. Scaling and attainment of goals in family-focused early intervention. *Community Ment Health J* 1991;27:77-83.
32. Ertzgaard P, Ward AB, Wissel J, Borg J. Practical considerations for goal attainment scaling during rehabilitation following acquired brain injury. *J Rehabil Med* 2011;43:8-14.
33. Kiresuk TJ, Smith A, Cardillo JE, editors. Goal attainment scaling: applications, theory, and measurement. New York: Psychology Pr; 2013.
34. Kiresuk TJ, Lund SH, Larsen NE. Measurement of goal attainment in clinical and health care programs. *Drug Intell Clin Pharm* 1982;16:145-53.
35. Steenbeek D, Ketelaar M, Lindeman E, Galama K, Gorter JW. Interrater reliability of goal attainment scaling in rehabilitation of children with cerebral palsy. *Arch Phys Med Rehabil* 2010;91:429-35.
36. Stolee P, Rockwood K, Fox RA, Streiner DL. The use of goal attainment scaling in a geriatric care setting. *J Am Geriatr Soc* 1992;40:574-8.
37. Palisano RJ. Validity of goal attainment scaling in infants with motor delays. *Phys Ther* 1993;73:651-8. discussion 658-60.
38. King GA, McDougall J, Palisano RJ, Gritzan J, Tucker MA. Goal Attainment Scaling: its use in evaluating pediatric therapy programs. *Phys Occup Ther Pediatr* 2000;19:31-52.
39. Smith A. Introduction and overview. In: Kiresuk TJ, Cardillo JE, editors. Goal attainment scaling: applications, theory, and measurement. Hillsdale: Lawrence Erlbaum Associates; 1994. p 1-14.
40. Stolee P, Stadnyk K, Myers AM, Rockwood K. An individualized approach to outcome measurement in geriatric rehabilitation. *J Gerontol A Biol Sci Med Sci* 1999;54:M641-7.
41. Steenbeek D, Ketelaar M, Galama K, Gorter JW. Goal Attainment Scaling in paediatric rehabilitation: a report on the clinical training of an interdisciplinary team. *Child Care Health Dev* 2008;34:521-9.
42. Jones MC, Walley RM, Leech A, Paterson M, Common S, Metcalf C. Using goal attainment scaling to evaluate a needs-led exercise programme for people with severe and profound intellectual disabilities. *J Intellect Disabil* 2006;10:317-35.
43. Mailloux Z, May-Benson TA, Summers CA, et al. Goal attainment scaling as a measure of meaningful outcomes for children with sensory integration disorders. *Am J Occup Ther* 2007;61:254-9.
44. Sheffer G, Canetti L, Wiseman H. Psychometric properties of goal-attainment scaling in the assessment of mann's time-limited psychotherapy. *J Clin Psychol* 2001;57:971-9.
45. Palisano RJ, Haley SM, Brown DA. Goal attainment scaling as a measure of change in infants with motor delays. *Phys Ther* 1992;72:432-7.
46. Ottenbacher KJ, Cusick A. Discriminative versus evaluative assessment: some observations on goal attainment scaling. *Am J Occup Ther* 1993;47:349-54.
47. Zaza C, Stolee P, Prkachin K. The application of goal attainment scaling in chronic pain settings. *J Pain Symptom Manage* 1999;17:55-64.
48. Steenbeek D, Meester-Delver A, Becher JG, Lankhorst GJ. The effect of botulinum toxin type A treatment of the lower extremity on the level of functional abilities in children with cerebral palsy: evaluation with goal attainment scaling. *Clin Rehabil* 2005;19:274-82.
49. Sakzewski L, Boyd R, Ziviani J. Clinimetric properties of participation measures for 5- to 13-year-old children with cerebral palsy: a systematic review. *Dev Med Child Neurol* 2007;49:232-40.
50. Ruble LA, Dalrymple NJ, McGrew JH. The effects of consultation on individualized education program outcomes for young children with autism: the collaborative model for promoting competence and success. *J Early Interv* 2010;32:286-301.
51. Lowe K, Novak I, Cusick A. Repeat injection of botulinum toxin A is safe and effective for upper limb movement and function in children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 2007;49:823-9.
52. Bjornson K, Hays R, Graubert C, et al. Botulinum toxin for spasticity in children with cerebral palsy: a comprehensive evaluation. *Pediatrics* 2007;120:49-58.
53. Cardillo JE. Goal setting, follow-up and goal monitoring. In: Kiresuk TJ, Smith A, editors. Goal attainment scaling: applications, theory, and measurement. Hillsdale: Lawrence Erlbaum Associates; 1994. p 39-59.
54. Phillips MF, Robertson Z, Killen B, White B. A pilot study of a crossover trial with randomized use of ankle-foot orthoses for people with Charcot-Marie-Tooth disease. *Clin Rehabil* 2012;26:534-44.
55. Krasny-Pacini A, Limond J, Evans J, Hiebel J, Bendjelida K, Chevignard M. Context-sensitive goal management training for everyday executive dysfunction in children after severe traumatic brain injury. *J Head Trauma Rehabil* 2014;29:E49-64.
56. Grant M, Ponsford J, Bennett PC. The application of goal management training to aspects of financial management in individuals with traumatic brain injury. *Neuropsychol Rehabil* 2012;22:852-73.
57. Bovend'Eerd TJ, Dawes H, Sackley C, Izadi H, Wade DT. An integrated motor imagery program to improve functional task performance in neurorehabilitation: a single-blind randomized controlled trial. *Arch Phys Med Rehabil* 2010;91:939-46.
58. Mendelson AD, McCullough C, Chan A. Integrating self-management and exercise for people living with arthritis. *Health Educ Res* 2011;26:167-77.
59. Dahlberg CA, Cusick CP, Hawley LA, et al. Treatment efficacy of social communication skills training after traumatic brain injury: a randomized treatment and deferred treatment controlled trial. *Arch Phys Med Rehabil* 2007;88:1561-73.
60. Bergsma D, Baars-Elsinga A, Sibbel J, Lubbers P, Visser-Meily A. Visual daily functioning of chronic stroke patients assessed by goal attainment scaling after visual restorative training: an explorative study. *Top Stroke Rehabil* 2014;21:400-12.
61. Peirone E, Gorla PF, Anselmino A. A dual-task home-based rehabilitation programme for improving balance control in patients with acquired brain injury: a single-blind, randomized controlled pilot study. *Clin Rehabil* 2014;28:329-38.
62. Ten Berge SR, Boonstra AM, Dijkstra PU, Hadders-Algra M, Haga N, Maathuis CG. A systematic evaluation of the effect of thumb opponens splints on hand function in children with unilateral spastic cerebral palsy. *Clin Rehabil* 2012;26:362-71.
63. Wallen MA, O'Flaherty SJ, Waugh MC. Functional outcomes of intramuscular botulinum toxin type a in the upper limbs of children with cerebral palsy: a phase II trial. *Arch Phys Med Rehabil* 2004;85:192-200.

64. Wallen M, O'Flaherty SJ, Waugh MC. Functional outcomes of intramuscular botulinum toxin type a and occupational therapy in the upper limbs of children with cerebral palsy: a randomized controlled trial. *Arch Phys Med Rehabil* 2007;88:1-10.
65. Tate RL, Perdices M, Rosenkoetter U, et al. Revision of a method quality rating scale for single-case experimental designs and n-of-1 trials: the 15-item Risk of Bias in N-of-1 Trials (RoBiNT) Scale. *Neuropsychol Rehabil* 2013;23:619-38.
66. Leach E, Cornwell P, Fleming J, Haines T. Patient centered goal-setting in a subacute rehabilitation setting. *Disabil Rehabil* 2009;32:159-72.
67. Malec JF, Smigielski JS, DePompolo RW. Goal attainment scaling and outcome measurement in postacute brain injury rehabilitation. *Arch Phys Med Rehabil* 1991;72:138-43.
68. Mall V, Heinen F, Siebel A, et al. Treatment of adductor spasticity with BTX-A in children with CP: a randomized, double-blind, placebo-controlled study. *Dev Med Child Neurol* 2006;48:10-3.
69. Merbitz C, Morris J, Grip JC. Ordinal scales and foundations of misinference. *Arch Phys Med Rehabil* 1989;70:308-12.
70. Stucki G, Daltroy L, Katz JN, Johannesson M, Liang MH. Interpretation of change scores in ordinal clinical scales and health status measures: the whole may not equal the sum of the parts. *J Clin Epidemiol* 1996;49:711-7.
71. Grenville J, Lyne P. Patient-centred evaluation and rehabilitative care. *J Adv Nurs* 1995;22:965-72.
72. Küçükdeveci AA, Tennant A, Grimby G, Franchignoni F. Strategies for assessment and outcome measurement in physical and rehabilitation medicine: an educational review. *J Rehabil Med* 2011;43:661-72.
73. Turner-Stokes L, Williams H. Goal attainment scaling: a direct comparison of alternative rating methods. *Clin Rehabil* 2010;24:66-73.
74. Arco L. Neurobehavioural treatment for obsessive-compulsive disorder in an adult with traumatic brain injury. *Neuropsychol Rehabil* 2008;18:109-24.
75. Baldwin VN, Powell T. Google Calendar: a single case experimental design study of a man with severe memory problems. *Neuropsychol Rehabil* 2015;25:617-36.
76. Logan KR, Jacobs HA, Gast DL, Murray AS, Daino K, Skala C. The impact of typical peers on the perceived happiness of students with profound multiple disabilities. *Res Pract Pers Sev Disabil* 1998;23:309-18.
77. Feeney TJ, Ylvisaker M. Context-sensitive behavioral supports for young children with TBI: short-term effects and long-term outcome. *J Head Trauma Rehabil* 2003;18:33-51.
78. Feeney T, Ylvisaker M. Context-sensitive cognitive-behavioural supports for young children with TBI: a replication study. *Brain Inj* 2006;20:629-45.
79. Ashford S, Jackson D, Turner-Stokes L. Goal setting, using goal attainment scaling, as a method to identify patient selected items for measuring arm function. *Physiotherapy* 2015;101:88-94.

RESEARCH PAPER

Self-awareness assessment during cognitive rehabilitation in children with acquired brain injury: a feasibility study and proposed model of child anosognosia

Agata Krasny-Pacini^{1,2,3}, Jennifer Limond⁴, Jonathan Evans⁴, Jean Hiebel^{1,2}, Karim Bendjelida⁵, and Mathilde Chevignard^{3,6}

¹Institut Universitaire de Réadaptation Clemenceau-Strasbourg, Strasbourg, France, ²Paediatric Surgery Department, Haute-pierre Strasbourg University Hospital, Strasbourg, France, ³Sorbonne Universités, UPMC Univ Paris 06, CNRS, UMR 7371, LIB, F-75006 and UMR_S 1146, LIB, F-75005, Paris, France, ⁴Department of Mental Health and Wellbeing, Institute of Health & Wellbeing, University of Glasgow, Gartnavel Royal Hospital, Glasgow, Scotland, UK, ⁵EMOI-TC 68, Hôpital du Hasenrain, Mulhouse Cedex, France, and ⁶Rehabilitation Department for Children with Acquired Brain Injury, Hôpitaux de Saint Maurice, Saint Maurice, France

Abstract

Purpose: To compare three ways of assessing self-awareness in children with traumatic brain injury (TBI) and to propose a model of child anosognosia. **Method:** Five single cases of children with severe TBI, aged 8–14, undergoing metacognitive training. Awareness was assessed using three different measures: two measures of metacognitive knowledge/intellectual awareness (a questionnaire and illustrated stories where child characters have everyday problems related to their executive dysfunction) and one measure of on-line/emergent awareness (post-task appraisal of task difficulty). **Results:** All three measures showed good feasibility. Analysis of awareness deficit scores indicated large variability (1–100%). Three children showed dissociated scores. **Conclusions:** Based on these results, we propose a model of child self-awareness and anosognosia and a framework for awareness assessment for rehabilitation purposes. The model emphasizes (1) the role of on-line error detection in the construction of autobiographical memories that allow a child to build a self-knowledge of his/her strengths and difficulties; (2) the multiple components of awareness that need to be assessed separately; (3) the implications for rehabilitation: errorless versus error-based learning, rehabilitation approaches based on metacognition, rationale for rehabilitation intervention based on child's age and impaired awareness component, ethical and developmental consideration of confrontational methods.

Keywords

Brain injury, children, cognitive rehabilitation, executive functions, model, self-awareness

History

Received 16 November 2014

Revised 9 December 2014

Accepted 11 December 2014

Published online 12 February 2015

► Implications for Rehabilitation

- Self-awareness has multiple components that need to be assessed separately, to better adapt cognitive rehabilitation.
- Using questionnaires and discrepancy scores are not sufficient to assess awareness, because it does not include on-line error detection, which can be massively impaired in children, especially those with impaired executive functions.
- On-line error detection is important to promote and error-based learning is useful to allow a child to build a self-knowledge of his/her strengths and difficulties, in the absence of severe episodic memory problems.
- Metacognitive trainings may not be appropriate for younger children who have age appropriate developmentally immature self-awareness, nor for patients with brain injury if they suffer anosognosia because of their brain injury.

Introduction

Metacognition is the conscious knowledge of one's own cognitive processes as well as the processes involved in consciously monitoring and regulating one's ongoing actions [1]. Thus metacognition refers to the awareness of one's own cognition and is used in the context of normal functioning. The concept of

Address for correspondence: Agata Krasny-Pacini, Institut Universitaire de Réadaptation Clemenceau-Strasbourg, 45 bd Clemenceau, 67082 Strasbourg, France. Tel: +33 671284152, 333882116 47/42. E-mail: agata.krasny@ugecam-alsace.fr, agatakrasny@yahoo.com

awareness/self-awareness (or more usually lack of awareness), on the other hand, is usually used in the context of pathology and refers to the awareness of one's deficits, including cognitive deficits. As such, awareness can be viewed as metacognition applied to difficulties in cognitive functioning.

Awareness and metacognition have been defined in many ways and there is little agreement among neuropsychologists, psychologists, developmentalists and education researchers as to the exact nature and limit of the two concepts. In developmental psychology, metacognition is thought to comprise metacognitive knowledge (MK) and metacognitive skills. MK is defined by Flavell as knowledge about one's own cognitive strengths and limitations, including factors that may interact to affect cognition [2]. The concept of metacognitive skills refers to the voluntary control of cognitive processes including prediction, planning, monitoring and evaluation of behaviors.

Many models of awareness and metacognition have been proposed for adults [3]. Two models of awareness/metacognition are particularly useful: (1) Crosson's model [4] that offers a pragmatic classification of awareness levels linked with efficient compensation which can be proposed in each level and (2) Toglia and Kirk's comprehensive model of awareness after brain injury [5].

Crosson's model has a hierarchical structure, although this hierarchy has never been confirmed empirically [6]. At the base of awareness is *intellectual* awareness. Intellectual awareness comprises of three sublevels: (a) the basic understanding that a deficit exists, (b) the recognition of a common thread in the activities the patient is impaired in, (c) the implications this has. *On-line* awareness (also called *emergent awareness*) refers to the ability to recognize a problem while performing an activity. Emergent awareness is crucial to rehabilitation as patients who do not realize that a problem is occurring will not recognize the need to

correct it and/or to initiate compensation. *Anticipatory* awareness is the highest level of awareness in Crosson's model, and is defined as the ability to anticipate that a problem will occur as a result of some deficit, and take some action to prevent that problem occurring.

Toglia and Kirk's comprehensive model of awareness after brain injury views the relationship between different aspects of metacognition and awareness as a dynamic process rather than as a series of hierarchical levels. It clearly differentiates between knowledge and beliefs related to one's self (i.e. *metacognitive knowledge* that preexists and is stored within long term memory) and knowledge and awareness that is activated during a task (i.e. *on-line awareness* which Toglia and Kirk define as "the ability to monitor performance 'on-line', within the stream of action") [5]. MK is what one brings to a task, whereas on-line awareness involves ongoing evaluation of performance within the context of a task [5,7]. MK and on-line awareness are distinct functions and have been found not to be correlated in adults with brain injury [8].

Although Crosson's and Toglia and Kirk's models offer two distinct frameworks to study awareness, we argue they are complementary and that their combined use allows a better understanding of patients' difficulties: (1) Crosson's intellectual awareness corresponds to the MK of Toglia and Kirk's model; (2) Crosson's emergent awareness corresponds to on-line awareness of Toglia and Kirk's model (and comprises metacognitive "skills" from the field of developmental psychology); (3) anticipatory awareness is the behavioral manifestation of good MK and good on-line awareness. Hereafter, the terms of awareness and metacognition will be used interchangeably, postulating that they have the same underlying construct, irrespective of its application to pathology or to normal functioning. Correspondence between the models and vocabulary used in developmental psychology are summarized in Figure 1.

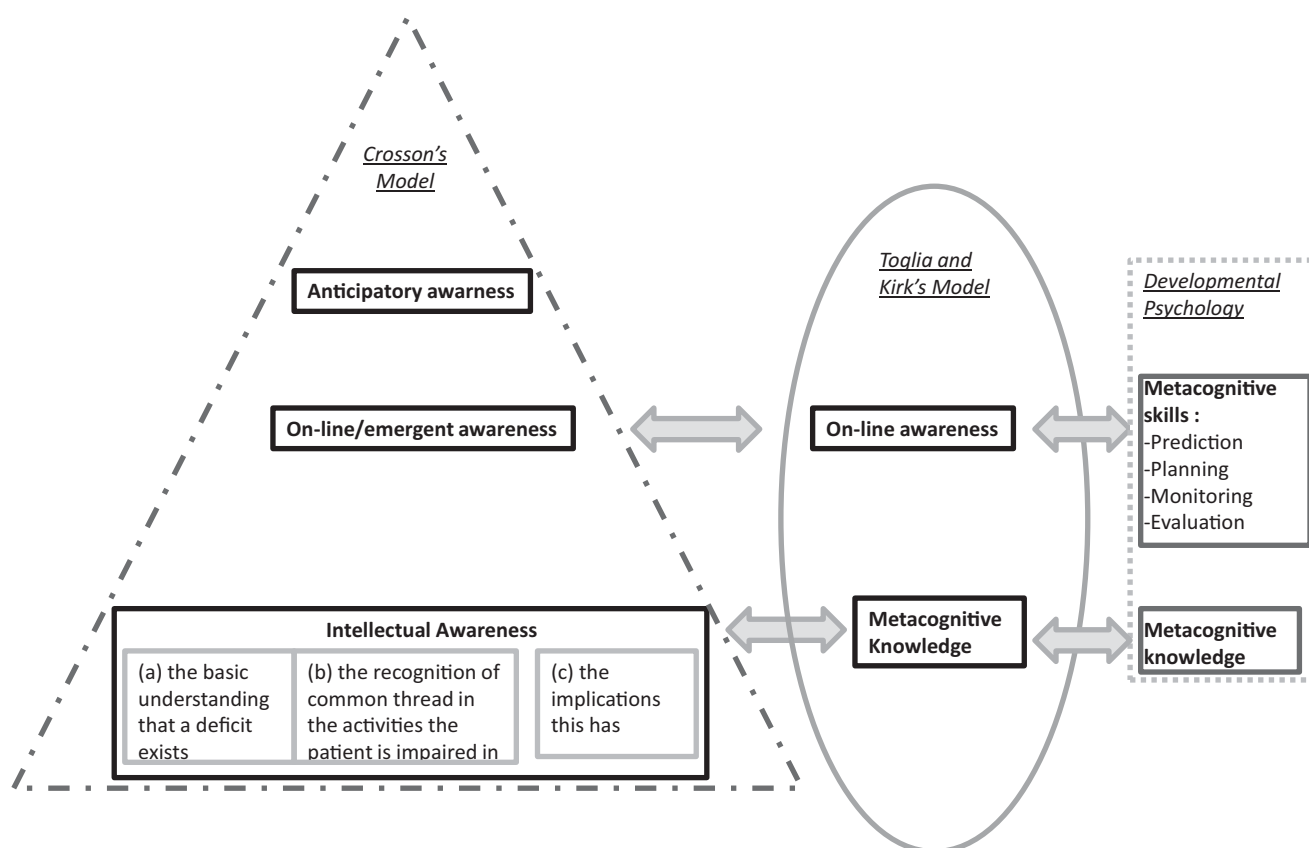


Figure 1. Correspondence between Crosson's and Toglia and Kirk's model and developmental psychology terminology.

Impaired awareness/metacognition, sometimes also termed “anosognosia”, is a common phenomenon described in children who have sustained a traumatic brain injury (TBI) [9–11]. However it results from a combination of organically based unawareness (due to brain injury) and simple developmental immaturity [11] present in typically developing children as well. Metacognition is known to be poorer in younger children. Even typically developing children are not “fully aware”: they may have some basic intellectual awareness about things they cannot do that their parents can, however they are not able to fully understand the consequences of their cognitive limitations in recognizing a problem when it is actually happening, or predicting a problem will occur as a result of some developmental immaturity. Children only gradually come to gain awareness over the entire span of developmental years [11]. This has been mainly studied in relation to memory (termed meta-memory) in typically developing children who show gradual development of meta-memory throughout childhood [12–16] and in the field of learning disabilities [17–20]. Nelson and Narens proposed a comprehensive model of metacognition in metamemory [21] where metacognition is described as the interplay between two levels of information processing (an object-level processing and a meta-level processing) that interact with feedforward and feedback control and monitoring loops. A neural description of the model has been proposed by Shimamura [22].

To the best of our knowledge metacognition in relation to other cognitive functions, and especially executive function (EF)/complex task management in daily life, has not yet been explored. Here we will focus on metacognition for executive functions and complex task management in children with TBI because EF deficits are a frequent and disabling consequence of TBI [23,24] and because TBI outcome is strongly predicted by executive functioning level [25].

Although metacognition is poor in young children, it has been shown to be even poorer in children who have sustained a brain injury [9–11,26–28]. However, to date, objective measurement of awareness in children with TBI is scarce (see Wales et al. [29] for a review) and most studies evaluate single metacognitive skills such as prediction, evaluation and confidence of performance [30–34]. Conversely, Beardmore et al. reported the use of the “Knowledge Interview for Children” (KIC) [9], a semi-structured interview related to 12 areas of knowledge about TBI (coma, story of the accident, brain functioning, . . .) and 10 potential areas of difficulty (attention, fatigue, memory, behavior, . . .). Interview of the child and the parents yields an Awareness Discrepancy Index, by summing the number of items endorsed by the child’s parents but rejected by the child. Children reported significantly fewer problems than their parents and demonstrated extremely limited knowledge about TBI. The SAND-C (Subjective Awareness of Neuropsychological Deficits Questionnaire for Children) is a self-report instrument in which children are required to estimate their neuropsychological functions [25], however self-report is not compared to parental judgment and as such is not a measure of anosognosia if used alone.

Josman et al. evaluated children with TBI in relation to metamemory [31] and categorizations skills [35] with three types of self-awareness measures (1) intellectual awareness – termed general awareness by the authors (e.g. “have you noticed any changes in memory?”), (2) self-prediction (of task difficulty) [35], “how many pictures will you remember?” [31]) and (3) self-estimation of performance after the task. General awareness questions were not fully understood by the children and were therefore not recommended. Prediction was difficult for both healthy children and children with TBI, self-estimation was significantly less correlated with actual performance in brain-injured children than in typically developing ones [35], and

children with brain injury overestimated their memory performance [31]. Similarly, in Hanten et al. [32,33] and Crowther et al. [34] studies, children who had sustained a TBI had poor estimation of their memory span and overconfidence in performance when compared to healthy children and children with mild TBI [32], suggesting impaired metacognition. The scarce literature assessing awareness in children with brain injury explores metacognitive skills such as prediction and evaluation, using assessments performed in structured, un-ecological environments. Questionnaires of intellectual awareness (KIC, SAND-C) proposed to date are not domain specific and do not specifically explore awareness of executive functioning.

The use of metacognitive training is a practice standard in adults with deficits in executive functioning [36]. Adult metacognitive training programmes, such as Goal Management Training (GMT) [37] have begun to be used in children [38]. GMT is mostly known for its algorithm “STOP! – Define the main task – List the steps – Learn the steps – Do it – Check” that can be used to train specific tasks [39]. However, the full GMT version [40] is a truly “metacognitive” training in that GMT encourages patients to think about their cognitive failures, to identify factors promoting or preventing these failures and to reflect and monitor how their thoughts may drift away from the main goal and switch to “automatic pilot”. When used alone, GMT group training [40,41] does not offer a repetitive intensive practice of EF and monitoring skills, but rather teaches and prompts the patients to monitor their actions, to detect their cognitive slips and gain control over their actions, through a conscious and attention-demanding monitoring of their flow of thoughts and actions. The relatively short duration of the programme (7 × 2 h of group training in adults, including GMT theory presentation and group discussions) does not allow automatization of monitoring and checking. Rather, it relies on patient’s awareness of difficulties and ability to actively implement the GMT algorithm in daily life, under conscious and “top-down” control. Therefore GMT in adults relies heavily on a patient’s awareness. A patient who considers that his/her cognition is efficient, will not easily engage in such an attention-demanding programme aimed at improving cognition efficiency in an effortful way. Awareness (before treatment or acquired throughout the GMT programme) is a core factor for programme success. GMT programmes usually enroll patients with mild or moderate brain injuries with relatively preserved awareness or integrate an awareness intervention component before the GMT [42,43].

As young children with brain injuries have impaired awareness because of developmental immaturity [11] added to the organically based awareness deficits due to their injury, metacognitive training programmes such as GMT may not be effective because the core factor for programme success – awareness – is missing. It is therefore crucial to evaluate children’s awareness when conducting a metacognitive training such as GMT. To our knowledge there is a lack of self-awareness measures for children. Tools used in metacognition developmental research [17,21,44,45] are not easily accessible or transferable to the context of rehabilitation (e.g. use of event-related potentials) [44]. Furthermore, as cognitive rehabilitation of EF aims at understanding and improving daily life executive functioning in the natural context of the child, classically used measures of metacognition (Judgments of Learning – JoL; Ease of Learning judgments – EoL; Feeling of Knowing – FoK; during a word list learning, in an office-based un-ecological environment [12–16,21]) are not clinically useful.

The primary aim of this pilot study was to examine the feasibility of three ways of assessing awareness of executive dysfunction in children with a TBI during a rehabilitation programme based on GMT.

Methods

This awareness study was part of a pilot study that tested an intervention based on a context-sensitive pediatric Goal Management Training (GMT) combined with ecological activity practice. Details and effectiveness of the intervention are reported elsewhere [38]. Children were taught metacognitive strategy use through discussion of stories in which story characters experience cognitive failures. Children were introduced to ideas of how those may be prevented, and were given practice at applying metacognitive strategies on paper-and-pencil exercises, then on ecological activities in the rehabilitation centre, and finally on real life activities at home and school. The programme used a range of functional, meaningful activities including cooking. The training was administered weekly, for 15–20 h over 4–6 months. Because of the availability and time required by the intervention for the children included in this pilot study, it was not judged ethically possible to include typically developing children. Children included in the study had sustained a severe TBI at least two years earlier, had a documented dysexecutive syndrome, including executive functioning difficulties in daily life as reported by parents and school staff.

Awareness was assessed using three different measures: two measures of MK (intellectual awareness) and one measure of on-line/emergent awareness.

The two measures of MK corresponded to two different levels of Crosson's intellectual awareness (Figure 1). The first measure assessed level (a) of Crosson's intellectual awareness, i.e. the basic understanding that a deficit exists. The second measure assessed levels (b) and (c) of Crosson's intellectual awareness, i.e. (b) the recognition of a common thread in the activities the patient is impaired in and (c) the implications this has.

The first measure of MK (the basic understanding that a deficit exists) consisted of a discrepancy score using the "goal management training questionnaire" [40] translated into French, simplified and adapted for children (Appendix). This questionnaire, based on the adult GMT questionnaire, is specific to goal management difficulties and "goal neglect" (failure to take actions to achieve goals despite the intention to do so). It is however, not validated and has no norms. Because poor reading skills and vocabulary might have influenced children's responses, the questions were read to the child who answered orally. The questionnaire presents common executive failures that can happen at home, at school or during leisure activities (e.g. "Forgetting something that needed to be done at a certain time, running out of time because you got too caught up in something that you were doing, starting an exercise and realising once you've started that you are not doing what was asked..."). For each of the 30 items of the questionnaire, the child had to report if the item was a problem for him/her. The questionnaire was completed during an interview with the child without his/her parents, before the intervention. The trainer provided age-appropriate examples for the items the child did not understand spontaneously. At the end of the intervention the same person, who trained the child throughout the rehabilitation programme, answered the questionnaire as well, based on what she witnessed of the child's behavior during the intervention and based on contacts with parents and school. As the trainer had spent 15–20 h with the child, it allowed her to carefully observe the child's functioning. The questionnaire score of MK awareness was obtained similarly to the KIC [9], from the number of discrepant items between the child's rating of the questionnaire and the rating of the trainer. An item was judged as discrepant if the child responded it was not a problem, or a minor problem but the investigator thought it was a significant problem, obtaining a binary response for each item (aware/unaware). Potentially inversed discrepancies (the child thinking an

item was problematic while the trainer responded it was not) did not occur. Items not relevant (e.g. forgetting books in the school bag, when school bag is not prepared by the child) were excluded, as well as items the examiner could not judge reliably at the end of the intervention. The final score was a percentage of "unaware items" divided by the number of relevant and reliable items.

The second measure of MK (the recognition of a common thread in the activities in which the patient is impaired and the implications this has) used stories contained in the pediatric GMT intervention [38], and was assessed throughout the intervention. In these stories, characters have a series of daily life problems related to their executive dysfunction (e.g. putting an essay to hand in at school into a sports bag instead of a school bag). Stories are age-appropriate and consequences of the problems are emphasized (e.g. stress while looking in the school bag for the essay, feeling upset when finding the essay in the evening while getting dressed for football, getting a lower mark because the essay was handed in late...), as well as factors that contributed to the problem (e.g. going to bed late because writing the essay at the last minute, being in a rush when preparing the school bag and the sports bag the next day). Use of PowerPoint slides with child friendly drawings, allowed children to follow the story without too much pressure on their working memory. The intervention contained a total of six stories, one every two weeks. At the end of each story, the child was asked "Do you think this could happen to you?" and it was followed by a discussion with the child about personal examples of cognitive failures and slips (called "Oops errors" in the intervention), implications and factors that contributed to these "Oops errors", and similarities with the stories. The awareness deficit score was the percentage of stories the child thought would never happen to him/her, while the trainer saw similar events regularly happening to the child, divided by the total number of stories. A child who acknowledged that this kind of story could have happened to him/her, but could not provide any personal examples of similar cognitive failures, was still considered as being aware on that story (i.e. providing personal examples was not mandatory to score as aware on a story).

Emergent (i.e. on-line) awareness was assessed throughout the intervention by asking the child at the end of each session if s/he thought the exercise/activity had been difficult for him/her. Exercises could be office-set paper-and-pencil school type exercises or complex daily life tasks like real cooking. An awareness deficit was taken as a percentage of activities judged by the child as easy while s/he completely failed or required a lot of help to achieve the goal, divided by the total number of intervention sessions. On-line awareness assessment was conducted throughout the training, at the end of each session, with a total of 15 sessions. Children were also asked to identify "Oops errors" (cognitive slips) s/he had made during the exercise/activity, to qualitatively assess their on-line awareness.

Because awareness measures (except the questionnaire) were embodied in the intervention program, throughout the 15–20 h of training, it was not possible to obtain data from healthy controls who did not follow the intervention on those specific awareness measures.

Although this was not intended to be part of the awareness assessment, we also report here the behavior of children during a pre-intervention test using cooking, the Children's Cooking Task [46,47] (CCT). In the CCT, children have to make a chocolate cake following a child-friendly photo-cued recipe. Children repeated the test twice before the intervention (to obtain two baselines). Children were not asked about their performance on the CCT because it would have acted as a cue for subsequent CCT assessments. However as behavior gave the trainer some insight into children's on-line awareness through error detection on task,

and possibly anticipatory awareness on the second attempt to make a chocolate cake (for second baseline), trainer qualitative observations are reported.

Results

Five children were initially included in the study. One child (YR) dropped out after four sessions. Children's detailed medical history, neuropsychological assessments and overall intervention effect can be found in Table 1. All children suffered a severe dysexecutive syndrome, especially on ecological measures of executive functions (Children's Cooking Task and questionnaires). Neuropsychological assessment showed relatively preserved or even normal episodic memory (see Table 1 – except for RK, in story recall which was poor probably due to attention rather than memory problems) therefore high anosognosia scores in the stories and questionnaire did not reflect a memory problem.

Feasibility

Our method of awareness assessment showed good feasibility. For the first measure of MK, all children were able to understand the 31 items of the questionnaire when provided with examples. The maximum number of items per child the trainer could not reliably assess at the end of the intervention was two. For the second measure of MK (stories), children enjoyed GMT stories and could understand them easily. All stories could have happened to the children and were relevant. Children could identify no "Oops errors" in activities they had judged as easy, even when they had failed the task.

Awareness scores

Awareness *deficit* scores for each type of awareness are presented in Figure 2. Higher scores indicate that children are more anosognosic/unaware, i.e. representing a deficit in awareness. Lower scores reflect better awareness.

Qualitative data

Child 1: YR

YR was 14. He had sustained a severe TBI at the age of 2.5 years (collision with a running child); he attended a special school but was excluded from school for half of the year for behavioral issues. YR dropped out from the intervention after four sessions.

YR reported none of the questionnaire items as problematic, despite having been observed making frequent errors, resulting in a 100% awareness deficit score. As for pGMT stories of the modules he completed before he dropped out of the study (4), YR thought the characters must be "stupid" and such cognitive failures would never happen to him and never gave examples of personal "Oops errors" in the story discussion, nor did he acknowledge he made mistakes or errors in the ecological intervention activities. An example is his performance on the CCT (Children's Cooking Task) prior to the intervention: YR found the correct recipe easily, took a quick look at the ingredients needed, put all the eggs he could find on the table, all the baking powder (five packets), added one spoon of chocolate and one spoon of flour and put it in the oven. At the end of the task, both the child and the examiner tasted the "chocolate cake" that was rather a baking powder-flavored omelet, provoking instantaneous tingling in the mouth. YR said: "I didn't know it was so easy to make a chocolate cake. But next time I'll put in slightly more chocolate" and wanted to eat the remaining cake. After being shown that on the same page there were stepwise instructions and asked if he thought he had followed them, YR looked perplexed for a moment and said in a defensive voice "No, I didn't but I've

managed well anyway". YR made it clear he was not interested in the training and that he needed no help. However he was very interested in the module that explained executive function impairment and spontaneously admitted "That's exactly my problem", suggesting some intellectual awareness but then returned to a contemptuous attitude for the training. Before he dropped out of the study, YR participated actively in the sessions, while affirming he participated only because his parents forced him and that he had no need for it.

Child 2: PB

PB was 11. She was a passenger in a motor-vehicle accident at the age of 2.5 years with severe brain lesions requiring immediate neurosurgical treatment. She attended mainstream school with a part-time school assistant. She had epilepsy absences treated by carbamazepine. PB was intellectually aware of her impairment on nearly all items of the questionnaire. Indeed, she understood she had difficulties with some activities (lowest level of Crosson's intellectual awareness) and answered to most items in the questionnaire as "big, big problem for me", but she seemed unable to understand the implications of her deficits (highest level of intellectual awareness). While enjoying the GMT stories very much (our second measure of MK), PB never acknowledged such things could happen to her. For example, she recognized she often forgets and loses important objects (at school, she is late half of the time because she realizes on her way to school that she did not take her schoolbag; she does not give forms to be signed by parents to her mother, who then misses important school meetings). However these situations did not seem problematic to PB, and there was no emotional reaction when these failures were discussed in relation to the stories. PB regularly took examples of her highly organized mother's rare executive failures as an excuse for her own frequent failures: "My Mum sometimes forgets her bag as well". As for on-line awareness, she judged most of the activities as easy, even when she needed considerable help to manage them. She never recognized she failed an activity and it was thus impossible to convince her that the training could help her. In the CCT, on her first attempt to make a chocolate cake she forgot the baking powder. On her second attempt, she focused on not repeating the same error and managed a beautiful looking cake, containing the baking powder, but this time missing sugar. While still unable to acknowledge the need to compensate for EF dysfunction at post-intervention testing, she was reported to have made significant progress on parental and teacher post-intervention questionnaires (see [38]) and parents were highly satisfied with the intervention, reporting that she understood her brain functioning better.

Child 3: CS

CS was 11. She had sustained a TBI when a soccer goal post fell on her head at the age of 6.5 years, with mainly cerebellar and right parieto-occipital lesions. She attended a special school and a mainstream school part-time. Her intellectual quotient was on the lower limit of normal and she had impaired theory of mind and language pragmatics described in her previous rehabilitation reports. CS was aware of most problematic items of the questionnaire, i.e. basic intellectual awareness. In our second measure of MK (stories), CS acknowledged all of them could have happened to her. However her behaviour indicated that she often simply "guessed" that she was expected to say "yes, that story could have happened to me" and she could not provide any personal example of a similar "Oops error" in the discussion that followed the stories. She could not evaluate her performance "on-line" during or after activities, did not express awareness of "Oops errors" after the tasks and always thought activities were

Table 1. Demographic, medical and neuropsychological characteristics of the participants.

	YR	PB	CS	RK	IP
Sex	Boy	Girl	Girl	Boy	Boy
Age at inclusion (years)	14	11	11	13	8
Medical history					
Age at injury (years)	2.5	2.5	6.5	7	5.5
Initial GCS	<7	6	4	3	6
Brain imaging	Unknown	Large right hemisphere hemorrhage and edema, right parietal depression fracture	Cerebellar and right parieto-occipital lesion with depression fracture	Subdural hematoma with diffuse edema and pneumocephalus	Brain stem hemorrhage, Diffuse subarachnoid hemorrhage
Duration of coma (days)	Unknown	Unknown	1	10	6
Associated impairments, reported in medical records and previous assessments	Severe behavioral disorders	Epilepsy absences treated by carbamazepine	FSIQ 69. Impaired ToM and pragmatics equinus foot	Attention problems arm weakness	ADHD
Glasgow Outcome Scale	3 (severe)	2 (moderate)	3 (severe)	3 (severe)	2 (moderate)
Neuropsychological assessment					
WISC IV matrices	11	9	7	16	11
WISC IV vocabulary	6	9	5	7	12
BADS-C 6 part test	7	10	7	8	6
CMS stories – immediate	9	8	8	4	8
CMS stories – delayed	8	5	7	4	9
CMS backward span	Missing data	8	8	10	18
CMS words list – immediate	Missing data	9	12	12	14
CMS words list – delayed	Missing data	13	7	16	16
Parents BRIEF T-score: BRI	63	71	87	95	57
Parents BRIEF T-score: MI	68	82	76	79	56
Parents BRIEF T-score: GEC	68	80	82	88	57
Parents DEX-C: Z score	3.53	4.7	3.7	5.1	0.7
CCT: Z-score	Scoring impossible due to complete failure on task	4.8	2.2	7.1	18.0
Effect of Intervention (Context-sensitive pediatric Goal Management Training)	Dropped out	Improved on EF questionnaires. No effect on cooking task	Improved on EF questionnaires. No effect on cooking task	Improved on EF questionnaires and cooking task	Adequate application of strategies on complex tasks, improved on cooking task, no effect on EF questionnaires

GCS: Glasgow Coma Scale score; ToM: Theory of Mind; FSIQ: Full Scale Intellectual Quotient; ADHD: Attention Deficit – Hyperactivity Disorder; WISC [72]: Wechsler Intelligence Scale for Children; BADS-C: Behavioural Assessment of the Dysexecutive Syndrome for Children; CMS [73]: Children's Memory Scale; BRIEF [74,75]: Behavior Rating Inventory of Executive Functions; BRI: Behavioral Regulation Index; MI: Metacognition Index; GEC: Global Executive Composite Score. DEX-C [76]: Dysexecutive questionnaire for children. CCT [46,47]: Children's Cooking Task. Neuropsychological test results are reported as standard scores, unless otherwise stated. For the CCT and for executive functions questionnaires, BRIEF and DEX-C, a higher score indicates greater impairment. The clinical cut-off score for the BRIEF is set at a T-score of 65. Paper and pencil tests of executive functions (EFs) [77] and detailed effect of intervention are reported elsewhere; all children had at least two out of three EF tests indicating impairment relative to controls (<2SD below controls' scores) [38].

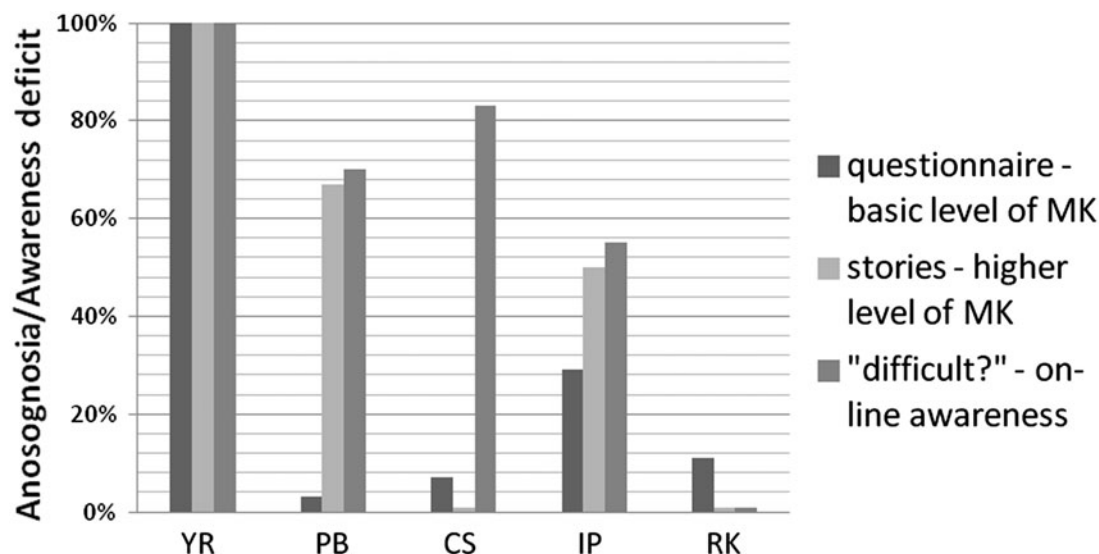


Figure 2. Anosognosia/awareness deficit scores for each type of awareness. Higher scores indicate that children are more anosognosic/unaware, i.e. representing a deficit in awareness. Lower scores reflect better awareness. MK: metacognitive knowledge; YR, PB, CS, IP, RK: children's initials.

easy and that she did well, although she failed or needed much help on most tasks.

Child 4: IP

IP was 8 at the beginning of the training. A television had fallen on his head at the age of 5.5 years. He attended mainstream school with a part-time school assistant. He was diagnosed with Attention Deficit – Hyperactivity Disorder (ADHD), with symptoms that had probably started prior to the TBI. Very protected by his carers, who confronted him as little as possible with his difficulties (e.g. managing his schoolbag preparation), he had few opportunities to notice that he was impaired and lacked knowledge about the consequences of his TBI. All three measures of awareness showed a moderate awareness deficit, with highest unawareness for on-line awareness. Very few examples of personal “Oops errors” could be obtained from IP and most of these were not appropriate. On his first attempt to make the chocolate cake, he used a small coffee bowl instead of the required salad bowl: after pouring in the sugar, the bowl was full, however he continued adding the other ingredients until the bowl was invisible and totally covered under a mountain of flour. He showed no manifestation of having detected this error and was very surprised when he looked at the photo of the next step of the recipe, depicting a half full salad bowl of cake mixture. He also had difficulty following the recipe steps and missed the step requiring to stir the mixture until it was smooth. He was very surprised that, once cooked, the “cake” had separated into white-flour and a black-oily layer. During training sessions, he alternated from great overestimations of his abilities (“I’m the most intelligent boy of my class, this exercise is just too easy”) to deep self-depreciation (“I can’t do it because I’m just too stupid”) and presented strong emotional reactions to his performance, including inconsolable crying when he was failing a cooking recipe, inappropriate laughing, and rolling on the floor when he could not find a solution to a problem.

Child 5: RK

RK was 13. He had sustained a motor-vehicle pedestrian accident at the age of 7. He attended part-time private schooling with a school assistant part time private lessons. He presented with severe attention problems. Although 13 at the time of the study, his parents could never leave him at home alone, he was forbidden

to enter the kitchen as he usually forgot to switch off the gas. RK was fully aware of his impairments on all three measures. He is the only child who actually acknowledged the utility of strategies taught during the intervention and used them to compensate for EF dysfunction post-intervention. However effects did not transfer to natural contexts and no change was reported by parents on post-intervention questionnaires [38]. However he seemed unaware of his lack of cognitive flexibility. This was illustrated by a cooking episode at home reported by his parents. He decided to make finger biscuits (that he had practiced during the intervention) for his large family. He decided to multiply all ingredients by 5 (which would give over one hundred biscuits), because it would require 500 g of butter which is the usual size of butter packs found in shops. His parents tried to persuade him that this would be too much and that multiplying recipe quantities by two would suffice. He could not accept it, even though there was no problem with mathematical skills and he refused to make the biscuits at home with any other quantity. A whole intervention session focused on this problem without success.

Discussion

All three methods of awareness assessment showed good feasibility. Apart for one child who presented complete anosognosia on all awareness measures (YR), children showed relatively preserved basic intellectual awareness but more difficulty in the higher order intellectual awareness and on-line awareness. Observation of the cooking activity on the CCT allowed an interesting insight into the children’s awareness and especially error detection.

Measuring metacognitive knowledge/intellectual awareness

Many ways of assessing awareness in adults have been described in the literature (see Ownsworth and Clare [48] for a review). Intellectual awareness is commonly assessed through discrepancy scores between the patient and a significant other’s rating on a questionnaire (e.g. Dysexecutive questionnaire[49], Patient Competency Rating Scale [50,51], Awareness questionnaire [52]). Self-report versus test performance is another way of assessing intellectual awareness. Our approach was a discrepancy score approach but was close to the self-report versus test performance approach, as the therapist was the informant, and

most items judgments were based on children's actual behavior and performance throughout the sessions. The questionnaire was easily understood by all children and, as the informant was the therapist (taking into account interviews of parents and school staff), we probably managed to have a more objective informant report than when parents answer questionnaires alone. However, the questionnaire was long and items related to the content of the intervention (Context-sensitive Goal Management Training [38]), that focused on improving executive functions and prospective memory. This questionnaire would need to be shortened and simplified further if applied to cognitive rehabilitation outside the GMT training context.

Crosson's levels of intellectual awareness proved useful in explaining PB's dissociated intellectual awareness: excellent awareness of impairments on the questionnaire (lower level of intellectual awareness) but difficulty in recognizing common threads between activities she is impaired in (on the GMT stories) and total unawareness of the consequences of these impairments (highest level of intellectual awareness) when these were discussed during training sessions. The difference between the two levels of intellectual awareness described by Crosson: (1) knowledge of impairment and (2) implications of impairment is probably a key issue in research with children. PB could state her impairments well, but did not see the implications of them – and thus did not acknowledge the need to compensate for them.

The GMT stories offered the advantage of presenting to the child both impairment and its consequences in an accessible story, with a visual support that lowers working memory and language demands. Through these stories of daily living, we hoped the child would understand the cognitive failure and its consequences and use it to recognize how cognitive failures may impact on home, school and leisure activities. Children found the stories fun and understood them easily, as opposed to more general questions that have been used to assess intellectual awareness in children [31,35]. However, this approach for assessment of awareness requires intact theory of mind (ToM) skills. First level ToM is needed to adequately understand how the character thinks and feels in relation to the situation. Second level ToM is needed to understand what the character thinks the surrounding characters are thinking (e.g. a story where a boy forgets the ball he was supposed to take to a football match with his friends, who become angry with him). Unfortunately we did not assess ToM in participants, nor did we ask control questions to check if the children had sufficient ToM ability to fully understand how the character is feeling. As children who sustain a TBI can suffer impaired ToM [53,54], such an assessment should control for ToM. A way to control for ToM would be to ask the child how the character is feeling instead of including this information in the text of the story. For example CS, who was described in her medical reports as having poor ToM, had difficulty understanding the stories. She could not give personal examples of similar events, and struggled to understand how the reaction of characters in the story related to cognitive failures. She also did not appear to be aware of the consequences of the cognitive slips. However, she often answered that “yes that story could have happened to me”, relying on her knowledge that she often does things wrong and she simply “guessed” what she was expected to say. Therefore, her story score seemed unrealistically good and therefore unreliable, probably because of her reasoning and ToM impairment. ToM has shown to be correlated to self-awareness [55] in adults and must be assessed if stories are used to assess metacognition. On the other hand, some authors proposed that metacognition and awareness reflect ToM about one's own thoughts [56,57], and that both rely on the same cognitive ability and common brain structures [58]. Another problem with using stories to assess awareness is that the measures can be biased by children's

inability to generalize the situations presented to other similar situations where the same cognitive failure can occur.

On-line awareness

Measuring on-line awareness

On-line awareness is difficult to assess. In the literature several approaches have been described: (1) think aloud protocols (the child is told to say aloud everything he/she is thinking [59]); (2) video analysis of performance where the examiner looks for signs of error detection (verbalization, non-word exclamation such as “oops!”, facial expressions, head-shaking, manual gestures) in the patients behavior [60]; (3) forced on-task verbalization of error detection (e.g. patient instructed to say “hit” whenever he/she notices that he/she made an error) [8]; (4) event-related potential examination during task [61]. Think aloud and forced on task-verbalizations are problematic in that they inevitably become a dual task paradigm and/or a prospective memory task: They require additional attention allocation to the task of showing the examiner an error has been detected. Furthermore in both these approaches, as the patient is informed of being assessed/watched on his/her error detection skills, s/he is likely to focus on error detection rather than the task itself, and as a consequence provides an unecological (and thus inaccurate) measure of error detection capacity in daily tasks. Conversely, behavioral signs of error detection probably underestimate error detection, as very early detected errors and errors with little consequences are unlikely to be expressed by overt behavior, especially if the patient wants to appear successful. Event-related potential (ERP) offers an alternative way of assessing error detection [44]. Following an error, an error-related negativity is registered, that has been argued to correspond to the unconscious (implicit) error detection, whereas conscious errors are followed by a positive deflexion [44]. This post-error positivity is reliably associated with decreased on-line awareness of deficits [62] and was proposed as an electrophysiological indicator of on-line awareness in adults. ERP studies suggest that a child may have no experience of making an error, either because s/he truly does not *detect* errors, or because implicitly detected errors are not brought to consciousness. From a rehabilitation point of view, it has consequences as to where to focus intervention: it seems illogical to try and make children consciously aware of errors they have not detected “electrophysiologically”, at a basic, unconscious level. From a developmental point of view, it is interesting to note that the error-related negativity that follows all errors (conscious or not) has been shown to increase with age, whereas the subsequent positive deflexion (present only for conscious errors) – marker of on-line awareness – is stable with age. Although theoretically promising, ERPs are impractical to use during rehabilitation sessions and will probably remain a research tool rather than being used routinely for clinical purposes.

Truly “On line” versus “Off-line” awareness: prediction and evaluation of task performance

In our study we tried to find a way of assessing on-line awareness, without disrupting the ongoing task. Our measure of on-line awareness (responses to the broad question “Was the task difficult for you?” and post-task error recollection) had the drawback of requiring preserved memory of performance, as children were asked the question only after the task. It relied on post-task evaluation, rather than “truly on-line” error detection and was therefore rather a measure of “off-line” awareness. The term “off-line” metacognition/awareness has been proposed by Desoete [17] in her study of metacognition in math problem-solving. Off-line metacognition includes both prediction (of

difficulty, of time required to complete the task) and post-task evaluation of performance. Emergent/on-line awareness can be considered to comprise truly “on-line” awareness (error detection, monitoring of performance *during* the task) and off-line awareness (immediately *before and after* a task). Off-line is included in on-line awareness because it is activated within the context of a specific situation or task and involves judgments about one’s abilities and limitations in relation to the current situation. Furthermore a complex task such as cooking is a series of subtasks and therefore predictions, error detection and monitoring and evaluation are continuously needed throughout the task: as such off-line awareness is needed throughout the task.

Prediction of performance and anticipatory awareness

The exact distinction between prediction of performance and anticipatory awareness is unclear in the literature and therefore the two terms are sometimes used interchangeably. Our view is that prediction of performance is a skill, which can be prompted and is cognitive in essence. Anticipatory awareness is the behaviour that results from *spontaneous*, correct prediction of task difficulty and of self-capacity to deal with the task. Anticipatory awareness is very difficult to capture in an assessment because it is a behaviour rather than a measurable cognitive function. Anticipatory awareness is expressed when the potential for a problematic situation/task arises in daily life. All attempts to capture anticipatory awareness in an office-based interview or assessment are unecological, because asking the patients how they perceive their ability in a hypothetical situation provides a prompt for awareness and assesses intention of behaviour. It does not reflect actual behaviour in such a situation, in daily life, and in the patient’s usual environment. Most assessments termed “anticipatory awareness” assessments are really “off-line” prediction awareness measures (e.g. asking the patients: “how do you think your performance on the task might affect your ability to live independently, work and have fun?” [6]; or predicting memory span [8]).

In our study, none of the three measures of awareness served to assess prediction or anticipatory awareness. However qualitative observation of children’s behaviour gave some insight into their anticipatory awareness, especially on their second attempt on the CCT. For example PB, who had only very basic intellectual awareness, could predict she might forget baking powder again and thus concentrated on adding the baking powder on the subsequent CCT attempt.

Anticipatory awareness probably has different levels as suggested by PB: she could anticipate she would forget the baking powder (lower level of anticipatory awareness, in this case “baking powder-specific”), but could not generalise this anticipatory awareness to other ingredients she might forget (higher level of anticipatory awareness, “ingredient-specific”), or to the anticipation that she may forget not only ingredients but whole recipe steps, switching on the oven (highest level of anticipatory awareness), or even more broadly that she is very disorganised irrespective of the type of task (generalised anticipatory awareness, in other activities such as cooking in general, do-it-yourself, homework...).

Detecting errors on-line and errorless learning

Another issue for our measure was the help given to children on the tasks. For unfamiliar tasks such as cooking, the considerable help provided by the trainer probably seemed natural to children and – with the help received – the task might be perceived as “easy”. On-line awareness can probably be experienced only if a patient is allowed to struggle on the task, which was not the case during the intervention, as our first aim was to train children in

novel complex task management, and only secondly to assess awareness. This issue is particularly important as some authors advocate errorless learning for patients with dysexecutive syndromes [39]. Classically, errorless learning has been used in patients with memory deficits: Errorless learning is based on the assumption that explicit memory for errors is impaired, whereas implicit memory is not, meaning that errors are primed, and so are more likely to be repeated. In errorless learning instructions, the aim is to try to prevent patients from making errors during the learning process. However it has also been proposed to use errorless learning in patients with a dysexecutive syndrome without memory deficits. In those patients, errorless learning is based on the assumption that the error-monitoring system is defective [63,64], whereas implicit memory is not, yielding a memorisation of the undetected error. In errorless learning patients are not given the opportunity to detect their errors because errors are prevented by the therapist. It is possible therefore that this could impair the development of on-line awareness by ensuring success on tasks at all times and offering no opportunity for the error-monitoring system to be trained/used. Therefore error-based learning has been proposed to improve self-regulation in adults with ABI [65]. *Error-based* learning may be useful in helping children to develop their on-line awareness through error detection, but this must be considered carefully and evaluated for children with severe episodic memory impairments, who may not remember the error they detected and therefore may profit more from an *errorless* learning approach. It would be interesting to include an assessment of awareness (and especially on-line awareness) in trials comparing errorless and error-based learning.

Steps required for correct post-task evaluation

Post-task evaluation was influenced by different factors in our study, and not only error detection ability. Qualitative analysis of on-line awareness measures, based on the performance of the five children on the ecological training activities and on the Children’s Cooking Task lead us to propose a series of steps necessary for adequate post-task evaluation (where error detection is only the first step). Figure 3 presents examples of children’s (real or hypothetical) verbalisation for each step, corresponding to a situation where the child is aware. In our view, a child must go through all the steps to truly *experience* the difficulty of having trouble with a task (i.e. on-line awareness). We suggest that to understand a child’s on-line awareness deficit in rehabilitation, each required step should be assessed separately (see bottom line questions in Figure 3).

The consecutive steps are: (1) errors must be detected and brought to consciousness (see previous section on measuring on-line awareness); (2) even if the error has been consciously detected on-tasks, a child may have no memory of having performed poorly on the task because of episodic memory impairment (she/he does not encode performance on the task in episodic memory or does not encode it as an error or cannot access the memory). Even if an error is detected and remembered after the task, children may (3) not appraise the consequences/implications of the errors and therefore not interpret them as errors (errors with little consequences, or unknown consequences or corrected errors not being considered as errors) resulting in a very positive self-evaluation of performance; (4) neglect the main goal of the task. These last two factors are probably extremely important in children, as they tend to focus on things that went right or that were fun, rather than on errors which are thought of as minor details. All children had so much fun trying to make a chocolate cake in the CCT, that even totally failed cakes were given a positive appreciation by the child who made them: IP did

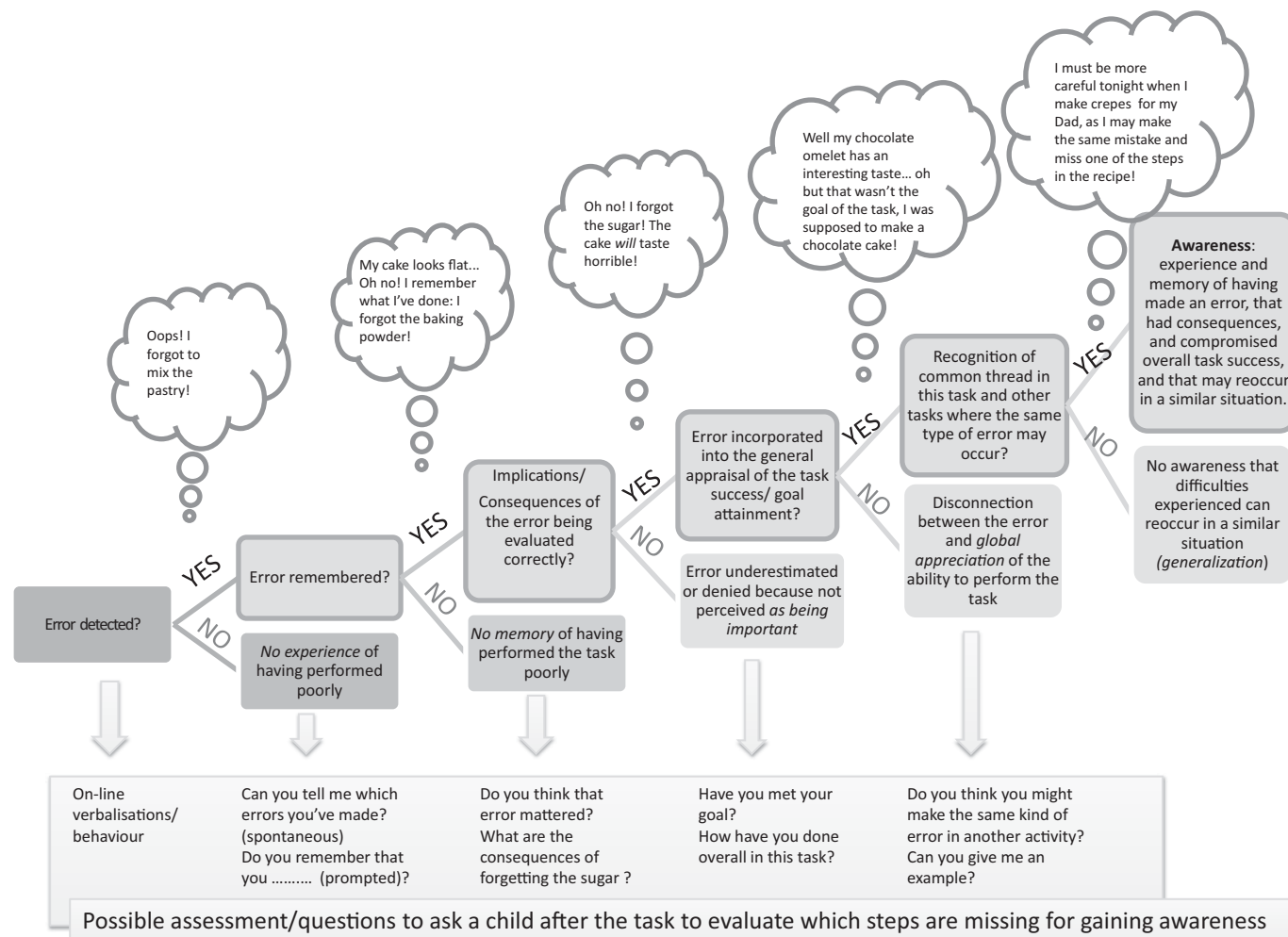


Figure 3. On-line awareness steps required to arrive at an adequate post-task evaluation.

not know that not mixing the liquid and the flour would result in an inedible cake. He could not make a connection between the cake consistency and his omission of mixing the ingredients (erroneous appraisal of consequences of the error). YR was pleased with his "baking-powder omelette", although he acknowledged he was supposed to follow the recipe steps to make a chocolate cake (neglect of main goal); (5) for some children, in spite of adequate recognition of within-task errors, there is an inability to relate these apparently unique errors to previous similar experiences, nor to anticipate potential future situations where the same problems are likely to occur, impeding the child to generalize his/her on-line experience.

It is worth noting that a child's evaluation of his/her performance may be biased by some form of denial (i.e. the child detects, remembers, correctly appraises the consequences and places them in the context of the task goal but *denies* the error occurred, has consequences). Pure denial is rare in children [11] but is often the explanation for behaviour that might in fact be caused by awareness deficits [11]. In Beardmore's study [9], emotionally-motivated or defensive denial (operationalised as a negative/avoidant coping style) was not supported as a contributor to the child's poor metacognitive knowledge.

Theory of autobiographical metacognitive knowledge acquisition based on on-line experiences

We hypothesize that metacognitive knowledge is constructed from on-line awareness experiences, that will progressively allow the child to construct a sense of his/her own cognitive abilities,

through the construction of semantic and autobiographical memories of task performance and difficulties. In the same way that children's development of autobiographical memory [66] is related to the understanding of their own mental states in the past [67,68], we postulate that self-awareness is related to the memory and understanding of on-line awareness experiences in the past.

Let us first take the simpler case of an adult. Dirette [69] suggests that awareness of cognitive deficits develops through "aha" moments, particularly in functional activities (e.g. being aware that one cannot drive from the actual experience of driving, rather than having been told you cannot drive) and familiar places (cooking at home rather than in the rehabilitation centre). When an adult is told that s/he is not able to drive, s/he may gain some general self-knowledge about his/her driving capacity, however this will remain a very theoretical knowledge, which we will call "semantic" metacognitive knowledge (MK). To be truly aware of his/her driving difficulty, s/he needs his/her own experience of performing poorly in driving, with preserved on-line awareness of making errors to support self-appraisal of driving capacity. If on-line awareness is intact, it is the actual experience of being conscious of driving dangerously that will allow him/her to truly internalise knowledge of his/her driving abilities, make it his/her own, store the "trying to drive" episode in his/her autobiographical memory and acquire MK that has "autobiographical" characteristics, including the phenomenological details accompanying the experience of having difficulty on the task (e.g. feeling anxious, hearing the horns).

Young children acquire most MK from adult reminders and feedback ("put it in your schoolbag or you'll forget it", "you're

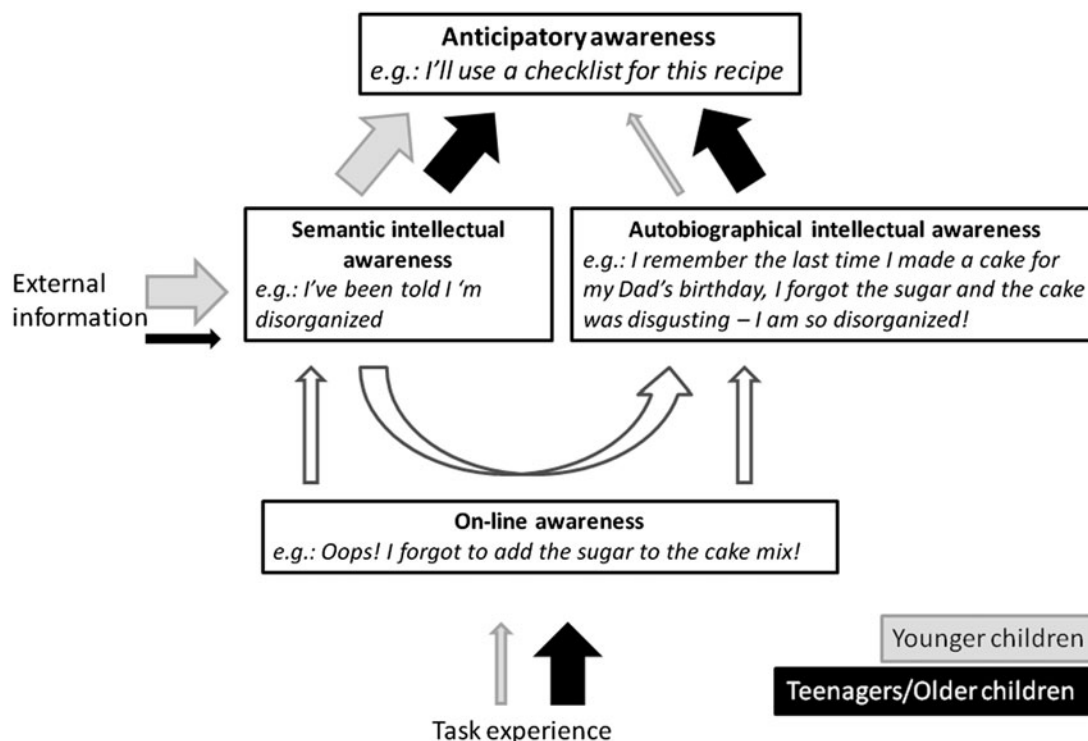


Figure 4. Autobiographical awareness mediated by on-line experience model. We hypothesise that the relative importance of different inputs varies with developmental age.

very disorganised"). Eventually a child who has been told for years that s/he is disorganized (like PB in our study), will acknowledge s/he is, gaining some basic semantic intellectual awareness (or semantic MK), by storing the information "I am very disorganised" in his/her semantic memory. However this semantic MK will remain a fact, without a link to an episodic sense of self.

From a developmental point of view, semantic MK precedes on-line awareness [2]. With age, children become increasingly conscious of cognitive capacities, strategies for processing information, and task variables that influence performance [70] and have more attentional resources to devote to on-line monitoring/error detection. As on-line monitoring skill becomes more efficient, children's on-line awareness increases and allows them to be aware of having difficulty with a certain task (following the steps described in the previous section). Progressively, memories of correctly appraised performance are stored in memory resulting in increased MK, that does not rely solely on what the child *knows* because s/he has been told by his/her parents (basic semantic MK) but on his/her own experience, with all the phenomenological details accompanying this experience (e.g. feeling anxious when realising school bag is missing, smelling the burnt cake). Therefore the memories of these correctly appraised experiences, which the child will truly *remember*, will allow full awareness (comprising both semantic and autobiographical components) and will hopefully be retrieved and used to anticipate future problems (anticipatory awareness) in similar situations (see Figure 4). However, because autobiographical memory matures gradually throughout childhood [66], a unique experience of failure will probably not be stored or retrieved as clearly as in adults. Children may recall for example that they enjoyed cooking, and what they managed well, rather than remembering their difficulties in planning on-task and the strategies they used to overcome difficulties.

Conversely, for younger children, most MK will be gained from external information and their MK will essentially rely on the "semantic" awareness (Figure 4). In our view autobiographical

MK/intellectual awareness develops gradually, along with the development of autobiographical memories, and young children should not be expected to have complete intellectual awareness. However, it is worth noting that younger children may still exhibit anticipatory awareness, based on their semantic MK: They may not have *lived* the experience of being impaired (or developmentally immature) on a task, but may rely on what their parents taught them ("don't cross the street on your own") and on their semantic general memory (e.g. children do not drive cars).

Our theory could explain the dissociation in the MK scores in the discrepancy questionnaire score and GMT stories. The questionnaire assessed basic knowledge of functioning, which can be qualified as the "semantic" MK/intellectual awareness about self and was probably mainly acquired by repetitive comments of adults (parents, teachers...). Stories on the other hand, especially when they elicited pertinent examples of personal cognitive failures in the autobiographical memory, relied more on autobiographic MK/intellectual awareness, by cueing the children on consequences of the cognitive failures and phenomenological details developed in the story (how the character felt, what were the circumstances...).

Factors contributing to poor awareness in children

It is often said that "It takes a whole life to know oneself", reflecting that even for adults, being fully aware of one's strengths and weaknesses is challenging. Children with brain injury might have specific deficits that impact on their functioning, but these are set in the context of (1) having cognitive functions that are constantly developing, (2) being supported by parents, teachers and others to carry out new tasks (so not necessarily having the experience of difficulties) and (3) having limited attentional/executive resources that make monitoring and reflecting on performance difficult [70]. Thus it might be said that being self-aware is a challenge for everybody, but for children it is particularly difficult and hence for children with brain injury it is a major problem [9].

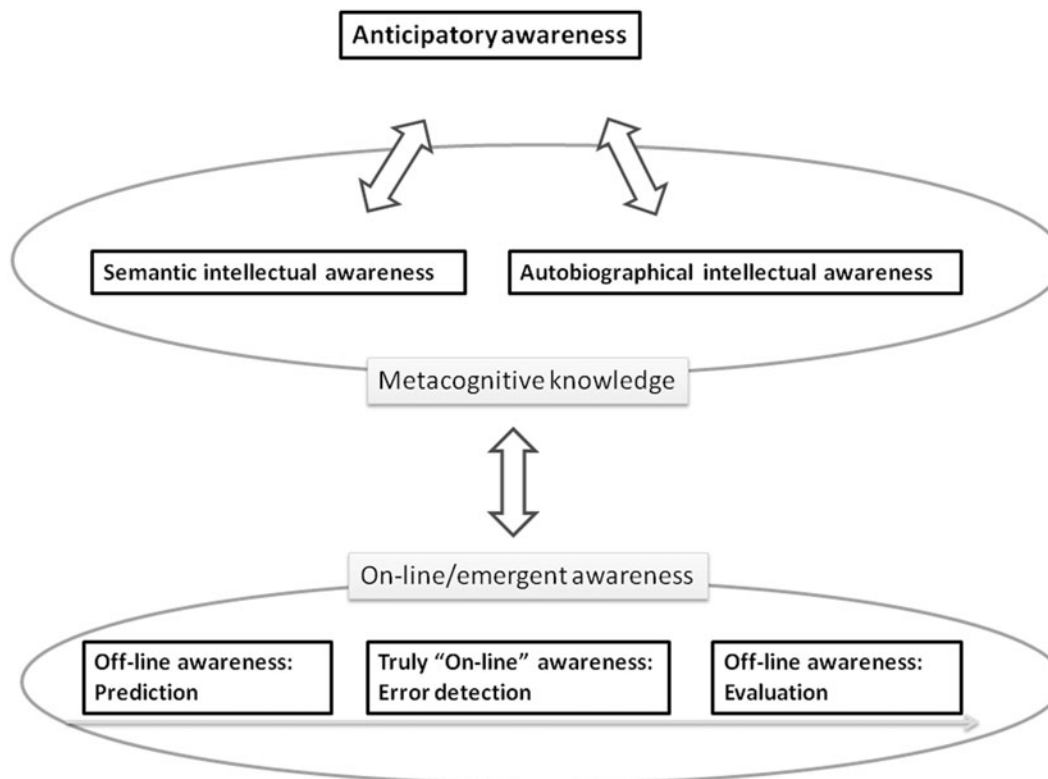


Figure 5. Proposed framework for awareness assessment.

In our study, children's awareness was influenced by many factors. For the youngest (IP), a lack of knowledge about his impairments due to a lack of confrontation probably explained much of his unawareness. Reassurance and help from parents assured success on tasks but also contributed to his lack of awareness. However IP's emotional responses to failures, suggest that such a non-confrontational reassurance may not be appropriate, even for children as young as 8. Another factor is the type of activities children are confronted with: for most children, it appeared obvious that they would be given help if they attempted to cook a cake and therefore judged the task easy, because adult help was inherent to the task at their age. For YR, part of his unawareness was probably due to a denial of his impairment or at least a wish to hide any difficulty.

Awareness is probably easier to gain for some cognitive functions than others, and from our data, cognitive flexibility seemed to be the most difficult cognitive function to gain awareness of. This was illustrated by RK who showed excellent awareness on all measures, who frequently talked about his memory and planning difficulties, but who could not acknowledge his cognitive rigidity. Questionnaires and stories did not include aspects of cognitive flexibility and it would be a valuable addition for further development of awareness assessments in both children and adults. For example, it would be interesting to see whether RK would react to a story where a character shows a difficulty with cognitive flexibility (such as RK's own relating to quantity of cooking ingredients). However being aware of one's own cognitive rigidity and detecting it on task *is*, in itself, something that requires cognitive flexibility; therefore awareness of cognitive flexibility deficit is probably, by definition, incompatible with such a deficit.

Limitations and recommendations

It is not possible to determine from our data if the children had more impaired awareness than healthy children, as we did not include healthy controls with whom to compare awareness scores.

Developmental studies are needed to explore awareness in healthy children, without which the literature lacks a reference to normative standards, and degree of awareness impairment in our clients who suffered a TBI cannot be precisely determined.

Awareness is multicomponential, and different components have different importance depending on the child's age (e.g. autobiographic awareness is not expected before late childhood/adolescence). Each component should be assessed separately to truly understand where the child's foundation of unawareness deficit lies.

Figure 5 summarises the awareness components that are easily measurable separately. Real cooking appeared to be a feasible, fun and ecologically valid way for studying on-line awareness (please refer also to Figure 3). Prediction and evaluation are important to assess but also to practice and should be included during activities at school and at home (refer to Ylvisaker [11] for details). For intellectual awareness, stories seem a particularly well-suited assessment because (1) children find them fun; (2) children understand them easily; (3) drawings lower working memory demands; (4) consequences and factors contributing to cognitive failures can be included in the story and elicit awareness of them. The story format however does not appear to be appropriate for children with severe reasoning or ToM deficits. Brain storming about personal examples of cognitive failures elicited by stories (or by another support including questionnaires) allows one to determine whether children rely on semantic awareness, autobiographical awareness or both for their responses. The remember/know paradigm and explicit requirement to provide phenomenological details can be used to differentiate between autobiographical and semantic awareness (see [66,71] for details about the paradigm referring to autobiographical memory). Assessing anticipatory awareness remains a challenge but is most likely to be valid during ecological activities at home, school or during rehabilitation activities using real life settings and activities such as cooking, without prompting and without explicit knowledge of the child of being assessed.

So far metacognition in children has been mostly explored in meta-memory research. As EF are the main problem for independent daily living, “meta-EF” studies (and especially “meta-EF” in ecological settings) are urgently required before engaging children and teams in clinical and research programmes of metacognitive strategy training that rely on awareness, which may be recommended for adults but whose appropriateness for different stages in childhood are not yet established.

Declaration of interest

The authors report no declarations of interest.

This study was supported by scholarships, from the “SOFMER” (French Society of Physical and Rehabilitation Medicine), the “SFERHE” (French Research Society against Children’s handicap) and the “Fondation Gueules Cassées”. Results of this work were presented at the joined 29th SOFMER – 19th ESPRM congress in Marseille in May 2014.

References

- Hacker DJ. Definitions and empirical foundations. In: Hacker DJ, Dunlosky J, Graesser AC, eds. *Metacognition in educational theory and practice*. Vol. xiv. The educational psychology series. Mahwah, NJ, US: Lawrence Erlbaum Associates Publishers; 1998:1–23.
- Flavell JH. Metacognition and cognitive monitoring: a new area of cognitive–developmental inquiry. *Am Psychol* 1979;34:906–11.
- Fleming JM, Ownsworth T. A review of awareness interventions in brain injury rehabilitation. *Neuropsychol Rehabil* 2006;16:474–500.
- Crosson B, Barco PP, Velozo CA, et al. Awareness and compensation in postacute head injury rehabilitation. *J Head Trauma Rehabil* 1989;4:46–54.
- Toglia J, Kirk U. Understanding awareness deficits following brain injury. *NeuroRehabilitation* 2000;15:57–70.
- Abreu BC, Seale G, Scheibel RS, et al. Levels of self-awareness after acute brain injury: how patients’ and rehabilitation specialists’ perceptions compare. *Arch Phys Med Rehabil* 2001;82:49–56.
- Stuss DT. Disturbances of self-awareness after frontal system damage. In: George P, Prigatano, Schacter DL, eds. *Awareness of deficit after brain injury: clinical and theoretical issues*. Oxford University Press. Oxford University Press; 1991:63–83.
- O’Keeffe F, Dockree P, Moloney P, et al. Awareness of deficits in traumatic brain injury: a multidimensional approach to assessing metacognitive knowledge and online-awareness. *J Int Neuropsychol Soc* 2007;13:38–49.
- Beardmore S. Does information and feedback improve children’s knowledge and awareness of deficits after traumatic brain injury? *Neuropsychol Rehabil* 1999;9:45–62.
- Jacobs MP. Limited understanding of deficit in children with brain dysfunction. *Neuropsychol Rehabil* 1993;3:341–65.
- Ylvisaker M. Cognitive rehabilitation: executive functions: self-awareness. In: Mark Y, ed. *Traumatic brain injury rehabilitation: Children and adolescents*. Vol. xiv, 2nd ed. Woburn, MA: Butterworth-Heinemann; 1998:246–52.
- Roebbers CM, von der Linden N, Schneider W, Howie P. Children’s metamemorial judgments in an event recall task. *J Exp Child Psychol* 2007;97:117–37.
- Hoffmann-Biencourt A, Lockl K, Schneider W, et al. Self-paced study time as a cue for recall predictions across school age. *Br J Dev Psychol* 2010;28:767–84.
- Koriat A. Easy comes, easy goes? The link between learning and remembering and its exploitation in metacognition. *Mem Cognit* 2008;36:416–28.
- Koriat A, Ackerman R, Lockl K, Schneider W. The memorizing effort heuristic in judgments of learning: a developmental perspective. *J Exp Child Psychol* 2009;102:265–79.
- Roebbers CM, Schmid C, Roderer T. Metacognitive monitoring and control processes involved in primary school children’s test performance. *Br J Educ Psychol* 2009;79:749–67.
- Desoete A, Roeyers H, Buysse A. Metacognition and mathematical problem solving in grade 3. *J Learn Disabil* 2001;34:435–49.
- Borkowski JG, Estrada MT, Milstead M, Hale CA. General problem-solving skills: relations between metacognition and strategic processing. *Learn Disabil Quart* 1989;12:57–70.
- Jacobs JE, Paris SG. Children’s metacognition about reading: issues in definition, measurement, and instruction. *Educ Psychol* 1987;22:255–78.
- Garrett AJ, Mazzocco MMM, Baker L. Development of the metacognitive skills of prediction and evaluation in children with or without math disability. *Learn Disabil Res Pract* 2006;21:77–88.
- Nelson TO, Narens L. Metamemory: a theoretical framework and new findings. In: Bower GH, ed. *The psychology of learning and motivation*. New York: Academic Press; 1990:1–45.
- Shimamura AP. The role of the prefrontal cortex in dynamic filtering. *Psychobiology* 2000;28:207–18.
- Babikian T, Asarnow R. Neurocognitive outcomes and recovery after pediatric TBI: meta-analytic review of the literature. *Neuropsychology* 2009;23:283–96.
- Levin HS, Hanten G. Executive functions after traumatic brain injury in children. *Pediatr Neurol* 2005;33:79–93.
- Anderson V. Assessing executive functions in children: biological, psychological, and developmental considerations. *Dev Neurorehabil* 2001;4:119–36.
- Delphine Viguier GD, Isabelle Gasquet, Claudine Martin, Marie Choquet. A psychological assessment of adolescent and young adult inpatients after traumatic brain injury. *Brain Inj* 2001;15:263–71.
- Wilson KR, Donders J, Nguyen L. Self and parent ratings of executive functioning after adolescent traumatic brain injury. *Rehabil Psychol* 2011;56:100–6.
- Douglas JM. Using the la trobe communication questionnaire to measure perceived social communication ability in adolescents with traumatic brain injury. *Brain Impairment* 2010;11:171–82.
- Wales L, Hawley C, Sidebotham P. How an occupational therapist should conceptualise self-awareness following traumatic brain injury in childhood — a literature review. *Br J Occup Ther* 2013;76:325–32.
- Ornstein TJ, Levin HS, Chen S, et al. Performance monitoring in children following traumatic brain injury. *J Child Psychol Psychiatry* 2009;50:506–13.
- Josman N, Berney T, Jarus T. Performance of children with and without traumatic brain injury on the contextual memory test (CMT). *Phys Occup Ther Pediatr* 2000;19:39–51.
- Hanten G, Dennis M, Zhang L, et al. Childhood head injury and metacognitive processes in language and memory. *Dev Neuropsychol* 2004;25:85–106.
- Hanten G, Bartha M, Levin HS. Metacognition following pediatric traumatic brain injury: a preliminary study. *Dev Neuropsychol* 2000;18:383–98.
- Crowther JE, Hanten G, Li X, et al. Impairments in learning, memory, and metamemory following childhood head injury. *J Head Trauma Rehabil* 2011;26:192–201.
- Josman N, Berney T, Jarus T. Evaluating categorization skills in children following severe brain injury. *Occup Ther J Res* 2000;20:241–55.
- Cicerone KD, Langenbahn DM, Braden C, et al. Evidence-based cognitive rehabilitation: updated review of the literature from 2003 through 2008. *Arch Phys Med Rehabil* 2011;92:519–30.
- Krasny-Pacini A, Chevignard M, Evans J. Goal Management Training for rehabilitation of executive functions: a systematic review of effectiveness in patients with acquired brain injury; 2013. Available from: <http://informahealthcare.com/eprint/ijeZANewNg5hUQWaYun/full> [last accessed 18 April 2013].
- Krasny-Pacini A, Limond J, Evans J, et al. Context-sensitive goal management training for everyday executive dysfunction in children after severe traumatic brain injury. *J Head Trauma Rehabil* 2014;29:e49–64.
- Bertens D, Fasotti L, Boelen DHE, Kessels RPC. A randomized controlled trial on errorless learning in goal management training: study rationale and protocol. *BMC Neurol* 2013;13:64.
- Levine B, Schweizer TA, O’Connor C, et al. Rehabilitation of executive functioning in patients with frontal lobe brain damage with goal management training. *Front Hum Neurosci* [Internet]. 2011;5. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC3043269/> [last accessed 27 Jul 2012].
- Robertson IH, Levine B, Manly T. Goal management training: PowerPoint support slides. Commercialized by Baycrest: <http://research.baycrest.org>; Materials can be obtained from: <http://www.GoalManagementTraining.com>.
- Spikman JM, Boelen DHE, Lamberts KF, et al. Effects of a multifaceted treatment program for executive dysfunction after

- acquired brain injury on indications of executive functioning in daily life. *J Int Neuropsychol Soc* 2010;16:118–29.
43. Miotto EC, Evans JJ, Souza de Lucia MC. Rehabilitation of executive dysfunction: a controlled trial of an attention and problem solving treatment group. *Neuropsychol Rehabil* 2009;19:517–40.
 44. Lyons KE, Zelazo PD. Monitoring, metacognition, and executive function: elucidating the role of self-reflection in the development of self-regulation. *Adv Child Dev Behav* 2011;40:379–412.
 45. Dermitzaki I. Preliminary investigation of relations between young students' self-regulatory strategies and their metacognitive experiences. *Psychol Rep* 2005;97:759–68.
 46. Chevignard MP, Servant V, Mariller A, et al. Assessment of executive functioning in children after TBI with a naturalistic open-ended task: a pilot study. *Dev Neurorehabil* 2009;12:76–91.
 47. Chevignard MP, Catroppa C, Galvin J, Anderson V. Development and evaluation of an ecological task to assess executive functioning post childhood TBI: the children's cooking task. *Brain Impairment* 2010;11:125–43.
 48. Ownsworth T, Clare L. The association between awareness deficits and rehabilitation outcome following acquired brain injury. *Clin Psychol Rev* 2006;26:783–95.
 49. Hart T, Whyte J, Kim J, Vaccaro M. Executive function and self-awareness of "real-world" behavior and attention deficits following traumatic brain injury. *J Head Trauma Rehabil* 2005;20:333–47.
 50. Prigatano GP, Altman IM, O'Brien KP. Behavioral limitations that traumatic-brain-injured patients tend to underestimate. *Clin Neuropsychol* 1990;4:163–76.
 51. Leathem JM, Murphy LJ, Flett RA. Self- and informant-ratings on the patient competency rating scale in patients with traumatic brain injury. *J Clin Exp Neuropsychol* 1998;20:694–705.
 52. Sherer M, Bergloff P, Boake C, et al. The Awareness Questionnaire: factor structure and internal consistency. *Brain Inj* 1998;12:63–8.
 53. Dennis M, Simic N, Gerry Taylor H, et al. Theory of mind in children with traumatic brain injury. *J Int Neuropsychol Soc* 2012;18:908–16.
 54. Dennis M, Agostino A, Taylor HG, et al. Emotional expression and socially modulated emotive communication in children with traumatic brain injury. *J Int Neuropsychol Soc* 2013;19:34–43.
 55. Bach LJ, David AS. Self-awareness after acquired and traumatic brain injury. *Neuropsychol Rehabil* 2006;16:397–414.
 56. Koriat A, Ackerman R. Metacognition and mindreading: judgments of learning for self and other during self-paced study. *Conscious Cogn* 2010;19:251–64.
 57. Williams D. Theory of own mind in autism evidence of a specific deficit in self-awareness? *Autism* 2010;14:474–94.
 58. Stuss DT, Anderson V. The frontal lobes and theory of mind: developmental concepts from adult focal lesion research. *Brain Cogn* 2004;55:69–83.
 59. Rosenzweig C, Krawec J, Montague M. Metacognitive strategy use of eighth-grade students with and without learning disabilities during mathematical problem solving: a think-aloud analysis. *J Learn Disabil* 2011;44:508–20.
 60. Hart T, Giovannetti T, Montgomery MW, Schwartz MF. Awareness of errors in naturalistic action after traumatic brain injury. *J Head Trauma Rehabil* 1998;13:16–28.
 61. Larson MJ, Fair JE, Farrer TJ, Perlstein WM. Predictors of performance monitoring abilities following traumatic brain injury: the influence of negative affect and cognitive sequelae. *Int J Psychophysiol* 2011;82:61–8.
 62. Larson MJ, Perlstein WM. Awareness of deficits and error processing after traumatic brain injury. *Neuroreport* 2009;20:1486–90.
 63. Bettcher BM, Giovannetti T, Macmullen L, Libon DJ. Error detection and correction patterns in dementia: a breakdown of error monitoring processes and their neuropsychological correlates. *J Int Neuropsychol Soc* 2008;14:199–208.
 64. Yochim BP, Baldo JV, Kane KD, Delis DC. D-KEFS Tower Test performance in patients with lateral prefrontal cortex lesions: the importance of error monitoring. *J Clin Exp Neuropsychol* 2009;31:658–63.
 65. Ownsworth T, Fleming J, Tate R, et al. Comparison of error-based and errorless learning for people with severe traumatic brain injury: study protocol for a randomized control trial. *Trials* 2013;14:369.
 66. Piolino P, Hisland M, Ruffevelle I, et al. Do school-age children remember or know the personal past? *Conscious Cogn* 2007;16:84–101.
 67. Nelson K, Fivush R. The emergence of autobiographical memory: a social cultural developmental theory. *Psychol Rev* 2004;111:486–511.
 68. Perner J, Dienes Z. Developmental aspects of consciousness: how much theory of mind do you need to be consciously aware? *Conscious Cogn* 2003;12:63–82.
 69. Dirette D. The development of awareness and the use of compensatory strategies for cognitive deficits. *Brain Inj* 2002;16:861–71.
 70. Bjorklund DF. Children's thinking: cognitive development and individual differences. 5th ed. Belmont: Cengage Learning; 2012.
 71. Piolino P, Desgranges B, Manning L, et al. Autobiographical memory, the sense of recollection and executive functions after severe traumatic brain injury. *Cortex* 2007;43:176–95.
 72. Wechsler D. WISC-IV: échelle d'intelligence de Wechsler pour enfants: manuel d'interprétation. ECPA – Les Ed. du Centre de psychologie appliquée; 2005.
 73. Cohen M. Echelle de Mémoire pour Enfants. Les éditions du centre de psychologie appliquée; 2001.
 74. Gioia GA, Isquith PK, Guy SC, Kenworthy L. Behavior rating inventory of executive function® (BRIEF®). Inc PAR; 2000.
 75. Gioia GA, Isquith PK, Guy SC, Kenworthy L. Behavior rating inventory of executive function® (BRIEF®). In: Roy A, Fournet N, Legall D, Hogrefe RJ-L, eds. Adaptation française. Boston, MA: Hogrefe; 2014.
 76. Emslie H. Behavioural assessment of the dysexecutive syndrome for children: (BADS-C). Bury St Edmunds, UK: Thames Valley Test Company; 2003.
 77. Roy A, Roulin J-L, Le Gall D, Fournier N, Groupe FEE. Fonctions Exécutives chez l'Enfant. unpublished.

Appendix

Adapted Goal Management Training questionnaire for children

Does it happen to you . . .

- Walking into a room and forgetting what it was that you had come for?
- Finding that you do not have time to stop and think?
- Forgetting something that needed to be done at a certain time (e.g. calling someone, taking your medication, go to your sports lesson, a TV programme that you wanted to watch)?
- Making a mistake because you were not thinking about what you were doing at the time?
- Not remembering where you had got to in a task/an exercise at school?
- Spending too long searching for things (e.g. school bag, keys, shoes) because you do not remember where you put them?
- Finding that you have done things in the wrong order?
- Feeling that others expect too much from you?
- Losing track of time?
- Running out of time because you got too caught up in something that you were doing (e.g. spending time tidying your desk at school and not finishing a test on time)?
- Having difficulty making decisions?
- Daydreaming rather than thinking about what you were doing?
- Having problems organizing your time (e.g. arranging in which order to do your homework, not finishing a test on time, not giving yourself enough time to get somewhere, being late)?
- Keeping making the same mistakes (e.g. when using a computer, doing a math exercise at school or building a construction)?
- Having to go back to get something that you had forgotten to take with you?
- Not thinking something through before acting?
- Starting an exercise and realising once you have started that you are not doing what was asked?
- Avoiding thinking about a problem because it just seems too complicated?
- Sometimes feel that you do not know where to begin in order to carry out a task (a school assignment, a construction, homework . . .)?
- Does it happen that you read the instructions at school too quickly and fail the exercise because of that?

- Do you manage to estimate how long a task will take you before starting it? (e.g. tidying your room, going to a friend's house to fetch school work, solving a math exercise)
- Do you manage to estimate how difficult an exercise is before starting it?
- Do you sometimes feel that things go too quickly for you and that you do not manage to keep up?
- Do you sometimes find that you have not been listening to important information that your teacher or parents were telling you?
- Is it difficult for you to think about, or to do two things at the same time?
- Do you manage to prepare your school bag alone without forgetting anything?
- Do you sometimes forget if you have done something (e.g.: feeding your pet, closing the entrance door, finishing your homework)?
- Do you sometimes forget important things you had to do and do something else instead? (e.g. go on the computer for 10 min and find out one hour later that you forgot to do your homework)
- Do you sometimes feel there are too many things, too much information in your head and that you do not manage to deal with them?
- Do you sometimes find that your brain wanders away from what you are doing?
- Do you sometimes feel that you know how to carry out an exercise or a task, but once you are doing it, things get mixed up in your head?

This is a translation of the French questionnaire used in the study [38]. All items relate to the content of the intervention (Context-sensitive Goal Management Training), that focused on improving executive functions and prospective memory. The questionnaire has not been validated and needs further adaptations if used outside the context of the intervention.

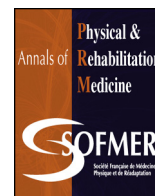


Available online at

ScienceDirect
www.sciencedirect.com

Elsevier Masson France

EM|consulte
www.em-consulte.com



Original article

Executive function after severe childhood traumatic brain injury – Age-at-injury vulnerability periods: The TGE prospective longitudinal study

Agata Krasny-Pacini^{a,b,c,e,*}, Mathilde Chevignard^{c,d,e}, Sabine Lancien^f, Sylvie Escolano^g, Anne Laurent-Vannier^{d,h}, Maria De Agostiniⁱ, Philippe Meyer^j

^a Outreach Department for Patients With Acquired Brain Injury, University Rehabilitation Institute Clemenceau Strasbourg, France

^b Pediatric Orthopedics Department, Hauteepierre Hospital, Strasbourg University Hospitals, Strasbourg, France

^c Sorbonne Universités, UPMC Université Paris 06, Inserm, CNRS, LIB, 7013 Paris, France

^d Rehabilitation Department for Children with Acquired Brain Injury, Hôpitaux de Saint Maurice, Saint Maurice, France

^e Groupe de Recherche Clinique Handicap Cognitif et Réadaptation – UPMC Paris 6, France

^f Département de la recherche clinique et du développement (DRCC) Assistance Publique Hôpitaux de Paris, France

^g INSERM UMR 1181: Biostatistiques, Biomathématique, Pharmaco-Epidémiologie et Maladies Infectieuses, Equipe Biostatistique et Pharmacopépidémiologie, Villejuif, France

^h Outreach team for Children and Adolescents with Acquired Brain Injury, Saint Maurice Hospitals, Saint Maurice, France

ⁱ INSERM UMR1153 Epidemiology and Biostatistics Sorbonne Paris Cité Center (CRESS), Developmental Origins of Health and Disease (ORCHAD) Team, Villejuif 94807, France

^j Université Descartes Paris5, Hôpital Universitaire Necker, Anesthesiology Department, Pediatric Neuro Critical Care Unit, 75015 Paris, France

ARTICLE INFO

Article history:

Received 12 May 2016

Accepted 28 June 2016

Keywords:

Traumatic brain injury

Executive functions

Child

Cohort

Longitudinal prospective study

Outcome

Vulnerability periods

Follow-up

ABSTRACT

Background: Executive function (EF) impairment is a major predictor of overall outcome after traumatic brain injury (TBI). TBI severity is a factor of poor outcome, but most studies include a majority of children with mild and moderate TBI. The aims of this study were to estimate EF impairment after severe childhood TBI and to explore factors predicting EF outcome. The secondary aim was to compare recovery trajectories by age-at-injury groups.

Methods: This was a prospective longitudinal study of children with severe TBI who were tested for EFs by performance-based tests and questionnaires at 3, 12 and 24 months.

Results: Children with TBI ($n = 65$) showed significant impairment in working memory, inhibition, attention and global EF, with little or no recovery at 24 months. For flexibility and performance-based EF score, children were impaired at 3 months only and showed normal scores by 12 months. No impairment was found in planning. At 3 and 24 months, Glasgow Coma Scale score and parental education predicted global EF. Coma length was not a significant predictor of outcome. Age at injury predicted progress in EF, but the relationship was not linear; children 10–12 years old at injury showed better outcome than older and younger children.

Conclusions: EFs are impaired after severe TBI in childhood. The relationship between age at injury and outcome is not linear. Relying on only performance-based EF tests can underestimate EF impairment.

© 2016 Elsevier Masson SAS. All rights reserved.

1. Introduction

Childhood severe traumatic brain injury (TBI) is usually defined as a TBI with initial or lowest Glasgow Coma Scale

(GCS) score ≤ 8 . Most TBI cases are mild, and the prevalence of severe TBI is not precisely known. The annual incidence of hospitalized TBI is estimated at 74/100,000, of which 17% is estimated to be severe [1].

Executive functions (EFs) represent a collection of related but distinct abilities that allow people to both engage efficiently in intentional, goal-directed, problem-solving actions [2,3] through conscious and effortful processing [4] and adapt to new, complex situations in the real world [2,5]. The Diamond developmental model of EFs [6] includes 3 core EFs: inhibition [including

* Corresponding author at: service EMOI-TC Illkirch, Institut Universitaire de réadaptation Clemenceau, 10 avenue Achille Baumann, BP 80096, 67402 Illkirch Cedex, France. Tel.: +33 671 28 41 52.

E-mail addresses: agatakrasny@yahoo.com, agata.krasny@ugcam-alsace.fr (A. Krasny-Pacini).

inhibitory control (behavioral inhibition), usually simply called “inhibition,” and interference control (selective attention)], working memory and flexibility. Inhibition enables one to selectively focus on a stimulus, suppress attention to other stimuli and resist interference [6]. Inhibition is extremely difficult for young children [6], with very rapid progress in inhibition up to 5 years of age [2], less rapid between age 5 and 8 and then slowed but continued progress during childhood and adolescence [7]. Working memory (WM) involves holding information in mind and mentally working with information no longer perceptually present [8,9]. Infants of only 9–12 months can update the contents of simple information. However, being able to hold many things in mind or perform mental manipulation develops more slowly and shows prolonged developmental progression [10]. Cognitive flexibility represents being able to change perspectives and requires inhibiting a previous perspective and loading a different perspective into WM [6]. Flexibility builds on inhibition and WM and comes later in child development [11]. By age 4.5–5 years, most typically developing children perform simple flexibility tasks, but only at 7–9 years of age can children switch flexibly on a trial-by-trial basis. From these 3 core EFs, higher-order EFs are built, such as reasoning, problem-solving and planning, which develop later, around age 12 [12], although these skills exist and develop during early childhood as well [2].

EFs are often impaired after TBI [13,14] and affect a number of outcomes including academic achievement [15–17] social cognition [18], vocational outcome [19] and the ability to live independently. The level of executive dysfunction is related to the severity of injury and younger age at injury [20–22]. TBI in children takes place in the context of ongoing cognitive development, so in addition to disrupting current abilities, TBI may interrupt or affect skills that are still developing or that will develop in the future and therefore may have more unpredictable consequences than adult TBI that occurs in a mature brain (see Anderson for a review [23]). The relationship between age at injury and outcome is complex and the literature suggests that it is not linear [24,25]. TBI sustained at an earlier age is prone to generalized delayed adverse outcomes when cognitive functions have not yet been developed at the time of injury, but the outcome may be even worse when the function is at a rapidly developing stage [26] at the time of injury. Anderson et al. compared intellectual, executive and behavioral outcomes after focal injuries across 6 age-at-injury groups (congenital to late childhood injuries) and found patterns of impairment that varied across domains, which suggests that different stages of brain development may be critical for different functions [24]. The authors found that EFs were better for 10–12 age-at-injury children than younger children, but children aged 3–6 at injury performed better than those aged 7–9 at injury [24]. Crowe et al. found that for intellectual ability (IQ), children injured in middle childhood (7–9 years) demonstrated poorer outcome [18] than their older and younger peers. Because the relationship may not be linear, the evidence is contradictory, some studies showing increased risk of impairment with early age at injury [24,27,28] and others finding no age-at-injury effect [15,20,25,29].

The aim of this study was to estimate EF impairment after childhood severe TBI by a prospective, longitudinal, 2-year follow-up of children with severe TBI and to explore factors predicting EF outcome. Secondary aims were to (1) analyze differences in component EF development after TBI over time; (2) analyze differences when the outcome is based on questionnaires or performance-based tests only; and (3) compare recovery trajectories across age-at-injury groups, testing the hypothesis of greater vulnerability when TBI occurs during a rapid cognitive development stage.

2. Patients and methods

All children consecutively admitted to the pediatric neurosurgical intensive care unit of University Necker Enfants Malades Hospital between January 2005 and December 2008 within the first 6 hr after TBI and meeting the inclusion criteria were invited to participate in the study and followed up prospectively over 2 years. Children in this study constituted the TGE cohort (i.e., severe childhood trauma). Inclusion criteria were age 0–15 years, severe accidental TBI defined as GCS score ≤ 8 and/or an Injury Severity Score [30] >16 . We excluded children with no vital signs on admission, non-accidental head injury, or previous history of diagnosed neurological, psychiatric or learning disability. The study was approved by the local ethics committee and parents gave their informed written consent to this observational study. At the initial acute phase, data were collected on lowest GCS score and coma duration. After acute care management, survivors were assessed at 3, 6, 12 and 24 months.

Demographic and environmental data collected included parental education level (graduation from high school or not), and language(s) spoken at home (French exclusively, or other language/bilingual). EFs were evaluated by a series of paper-and-pencil EF tests and more “ecological” EF questionnaires completed by parents.

Given the large age range at testing (0–17 years), performance-based tests covering the whole age range were not available, so not all children were administered the same tests (see Table 1). Tests were selected for this study based on a large administration age range, adequate psychometric properties and previous use in children with TBI. The description and psychometrics of tests and questionnaires are in supplemental data 1.

For ecological EF questionnaires, we used the Behavior Rating Inventory of Executive Functions (BRIEF) questionnaire [31,32] and the attention subscore of the Child Behavior Checklist (CBCL) [33]. The BRIEF yields subscales of components EF (e.g., inhibition, working memory) as well as a Metacognition Index (MI) and a Behavioral Regulation Index (BRI). MI and BRI may be interpreted together as the BRIEF Global Executive Composite score. Higher scores correspond to increased EF difficulties in daily life. Questionnaires were obtained for only children whose parents could understand and read French.

All scores (from questionnaires and performance-based tests) were transformed into Z-scores for comparison and to compute the following composite scores: (1) 5 EF component scores, one for each main core executive function of the Diamond model [6] (inhibition, attention, WM and flexibility) and one for a higher-order EF, planning (see Table 1 for the tests used for each EF component score); (2) the performance-based EF score (mean of all performance-based test scores [from Table 1; i.e., all tests excluding the questionnaires]); and (3) a global EF score. The global EF score was the mean of (a) the performance-based EF score, (b) the BRIEF MI and (c) the BRIEF BRI. The performance-based EF score offered an objective performance-based measure of EFs excluding biases due to subjectivity in questionnaire rating. However, because paper-and-pencil EF tests underestimate EF difficulties and especially daily life and behavioral difficulties, we used the global EF score, which included the ecological behavioral measures of EFs with the BRIEF indexes, to have a more sensitive and ecological score of global EF impairment. The global and performance-based EF scores were computed for only children ≥ 3 years old at assessment because only one test could be administered before age 3 and therefore these scores would not have been accurate.

Age at injury was not used as a continuous variable, because previous research suggests that its relationship with recovery is not linear, some age-at-injury groups being more vulnerable.

Table 1
Executive function (EF) tests used to construct EF component Z-scores.

Executive functions				
Inhibition	Flexibility	Attention	Planning	Working memory
Stroop Test ^{1,2} Interference score (child version: age 12–16; adult version: ≥ 16) NEPSY-1 ⁴ Statue subtest (age 3–12)	Wisconsin Card Sorting test ³ , percentage of perseverative errors (age 8–89) NEPSY-1 ⁴ Design Fluency subtest (age 5–12) Total no. of trials in Lussier Tower of London ⁷ (age 7–17, used age ≥ 13 in our study)	NEPSY-1 ⁴ Visual Attention subtest (age 3–12) NEPSY-1 ⁴ Auditory Attention (age 5–12)	NEPSY-1 ⁴ Tower test (age 5–12) Lussier Tower of London ⁷ : no. of successes (age 7–17, used age ≥ 13 in our study)	Children's Memory Scale ^{5,6} Attention/Concentration Index (age 5–16)
BRIEF ^{8–10} inhibition subscale (age 5–18)	BRIEF ^{8–10} flexibility subscale (age 5–18)	CBCL ¹¹ Attention subscale (preschool version age 1.5–5; school version age 6–18)	BRIEF ^{8–10} planning subscale (age 5–18)	BRIEF ^{8–10} working memory subscale (age 5–18)

Note: Details and description of performance-based tests are in [supplemental data 1](#). BRIEF, Behavior Rating Inventory of Executive Function, parental form; CBCL, Child Behavior Checklist.

1. Golden CJ, Hammek TA, Purisch AD. Diagnostic validity of a standardized neuropsychological battery derived from Luria's Neuropsychological Tests. *J Consult Clin Psychol* 1978;46:1258–65.
2. Vanier M. Test de Stroop. Montreal, Quebec: Centre de recherche, Institut de réadaptation de Montréal [Internet]. 1991. Available from: http://automobileevaluation.com/Stroop-M_Vanier.pdf [cited 2015 Dec 3].
3. WCST: Test de classement de cartes du Wisconsin [Internet]. Available from: <http://www.hogrefe.fr/produit/raisonnement-wcst-test-de-classement-de-cartes-du-wisconsin/> [cited 2015 Dec 3].
4. Korkman M, Kirk U, Kemp S. Test NEPSY: BILAN NEUROPSYCHOLOGIQUE DE L'ENFANT [Internet]. ECPA. Adapt. Française 2003; 1997. Available from: <http://www.ecpa.fr/orthophonie/test.asp?id=1874> [cited 2015 Dec 2].
5. Cohen M. Test CMS ECHELLE DE MEMOIRE POUR ENFANTS – Orthophonie – ECPA [Internet]. 2001. Available from: <http://www.ecpa.fr/orthophonie/test.asp?id=1879> [cited 2015 Dec 2].
6. Cohen M. Children's Memory Scale™ (CMS) | Pearson Assessment [Internet]. 1997. Available from: [http://www.pearsonclinical.co.uk/Psychology/ChildCognitionNeuropsychologyandLanguage/ChildMemory/ChildrensMemoryScale\(CMS\)/ChildrensMemoryScale\(CMS\).aspx](http://www.pearsonclinical.co.uk/Psychology/ChildCognitionNeuropsychologyandLanguage/ChildMemory/ChildrensMemoryScale(CMS)/ChildrensMemoryScale(CMS).aspx) [cited 2016 Feb 16].
7. Lussier F, Guérin F, Dufresne A, Lassonde M. Étude normative développementale des fonctions exécutives: La tour de Londres [Normative study of executive functions in children: Tower of London]. *A.N.A.E. Approche Neuropsychologique des Apprentissages chez l'Enfant*. 1998;10:42–52.
8. Gioia GA, Isquith PK, Guy SC, Kenworthy L. Behavior Rating Inventory of Executive Function® (BRIEF®); 2000.
9. Roy A, Fournet N, Le Gall D, Roulin J-L. Behavior Rating Inventory of Executive Function® (BRIEF®). Adapted from Gioia GA, Isquith PK, Guy SC, Kenworthy L. Hogrefe, France (French version edition); 2012.
10. Gioia GA, Isquith PK, Guy SC, Kenworthy L. TEST REVIEW Behavior Rating Inventory of Executive Function. *Child Neuropsychol* 2000;6:235–8.
11. Achenbach T. Child Behavior Checklist. Erasmus MC-Sophia, Rotterdam, Nederland. F.C. Verhulst and J. van der Ende; 2001.

Children were divided into 5 age-at-injury groups, the first 4 based on age groups previously used in research on age-at-injury effects [24,34], on the basis of neuroscience developmental data [35–37]: 0–2, 3–6, 7–9, and 10–12 years. A fifth group (13–15 years at injury) was necessary because our sample included a larger age range than previous research.

2.1. Statistical analysis

All analysis involved use of IBM SPSS Statistics 21. $P < 0.05$ was considered statistically significant. The few outliers (1 per score on all assessment times and 2 for coma length) were trimmed to 3 SDs from the mean for analysis. Injury variables and outcome variables were analyzed for normality by the Kolmogorov–Smirnov test and quantified analysis of skewness and kurtosis divided by their SE (1.96 criteria). Normality analysis revealed that coma duration and GCS score were non-normally distributed (skew toward shorter coma duration; skew toward higher GCS score and significant kurtosis), so a dichotomized version of these variables was created to meet the assumptions of the general linear model: coma duration ≤ 7 versus ≥ 8 days and GCS score ≤ 6 versus ≥ 7 . For all covariance analysis, covariates included sociodemographic characteristics (language spoken and parental education) and injury severity characteristics (dichotomized coma duration and GCS score). These covariates were based on previous literature reporting their importance and Spearman correlations with the global EF score in our sample (see [supplemental data 2](#)).

Scores of children with TBI were compared to norms by the one-sample t test to detect whether mean Z-scores differed significantly from the normal population. A repeated-measures ANCOVA was used to assess whether scores changed over time. Multivariate analysis of covariance (MANCOVA) was used to explore outcomes for the 5 component EFs, across the 3 assessment times.

Differences in age-at-injury groups in covariates were tested by chi-square test. Age-at-injury effects were explored by two-way mixed repeated-measures ANCOVA to examine change in the global EF score and EF component scores by time and age-at-injury group. Recovery in the global EF score was assessed by the difference in Z-scores between 24 and 3 months to indicate the progress of children rather than how close to norms they were at 24 months post-injury. ANCOVA was used to explore differential recovery trajectories for this progress score for the 5 age groups, followed by planned repeated contrasts. For the 0–2 year group, only 2 children were old enough to be tested at both 3 and 24 months, for calculation of an EF progress score, so this age group was not considered in this analysis.

Effect sizes for ANCOVAs were calculated by using partial η squared (η_p^2) and interpreted by Cohen's guidelines as small, 0.01; medium, 0.06; and large, 0.14.

Hierarchical multiple regression was used to analyze factors affecting outcome in the global EF score by entering in step 1, socio-demographic characteristics (language spoken and parental education); step 2, injury-severity characteristics (dichotomized coma duration and GCS score); and step 3, age-at-injury group dummy variables, with the oldest group used as the reference. Missing values were excluded list-wise.

3. Results

3.1. Participants

We included 81 children at the acute stage of TBI between January 2005 and December 2008; 16 children died during acute care, which left 65 children at 3 months. Among the 65 children, 11 were < 3 years old at 3 months post-injury, so a reliable global EF score could not be computed. Among the older children, 2 were

Table 2

Demographic and injury severity characteristics for children with traumatic brain injury (TBI).

Demographic variables	
Gender: boys; no. (%)	43 (66%)
Age at injury (years): mean $\pm$ SD (range)	8.1 $\pm$ 4 (3 months to 14 years 11 months)
No. of children in each age at injury group:	
0–2/3–6/7–9/10–12/13–15	13/12/16/10/14
Language spoken at home ($n=64$) ^a : French/other or bilingual, no. (%)	37 (58%)/27 (42%)
Country of origin of parents ($n=58$) ^a : France/at least one parent from another country, no. (%)	29 (50%)/29 (50%)
Parental education ($n=63$) ^a : under/above high school graduation, no. (%)	34 (54%)/29 (46%)
TBI medical and severity characteristics	
Glasgow Coma Scale score (GCS), mean $\pm$ SD (range)	6.7 $\pm$ 1.41 (3–9)
GCS score dichotomized (≤ 6 ; ≥ 7), no. of children (%)	26 (40%)/39 (60%)
Coma duration (days), mean $\pm$ SD (range)	6.6 $\pm$ 4.83 (1–23)
Coma duration dichotomized (≤ 7 ; ≥ 8 days), no. (%)	46 (71%)/19 (29%)
TBI immediate outcome	
Admitted to a rehabilitation center after acute care: yes/no, no. (%)	54 (83%)/11 (17%)
Performance intelligence quotient (IQ) at 3 months post-injury, mean $\pm$ SD	83.1 $\pm$ 16
Verbal IQ at 3 months post-injury, mean $\pm$ SD	88.0 $\pm$ 19
Total IQ at 3 months post-injury, mean $\pm$ SD	85.2 $\pm$ 18

^a Data missing ($n=1$ for language spoken, $n=7$ for country of origin, $n=2$ for parental education); IQ: intelligence quotient.**Table 3**

Performance-based EF and global EF Z-scores and BRIEF T-scores at 3, 12 and 24 months post-injury.

Z-scores	3 months			12 months			24 months		
	No.	Mean	95% CI	No.	Mean	95% CI	No.	Mean	95% CI
Global EF score ^a	52	−0.47**	−0.67 to −0.26	54	−0.26*	−0.45 to −0.08	58	−0.34*	−0.54 to −0.13
Performance-based EF score ^a	52	−0.36**	−0.56 to −0.16	54	0.05	−0.13 to 0.23	58	−0.11	−0.31 to 0.08
T-scores									
BRIEF BRI	28	57*	53–61	34	57*	53–62	35	58*	53–63
BRIEF MI	28	55*	50–60	34	55*	51–58	35	55*	51–59
BRIEF GEC	28	56*	52–61	34	56*	52–60	35	57*	52–61

BRIEF: Behavior Rating Inventory of Executive Functions; MI: Metacognition Index; BRI: Behavioral Regulation Index; GEC: Global Executive Composite Score.

* Significantly different from norms, $P < 0.05$.** Significantly different from norms, $P < 0.001$.^a Children < 3 years old at assessment time were excluded from analysis, because few tests could be administered to this age group, thereby leading to an inaccurate composite score.

in a minimally responsive state, which precluded any cognitive assessment. At 12 months post-injury, 1 child was lost to follow-up, for 1 child the parents withdrew consent, and 9 children were still under age 3. All remaining children could be tested by then. At 24 months, 2 more children were lost to follow-up, and 3 were still under the age of 3. Characteristics of included children are in Table 2.

3.2. Comparison with norms and change over time

The performance-based EF score and global EF Z-scores and BRIEF T-scores are in Table 3, and EF component Z-scores are in Fig. 1. Performance-based EF test scores and corresponding questionnaire subscale scores used to construct composite scores (see Table 1) were not correlated for flexibility and inhibition, were moderately correlated for working memory ($r = 0.40$ at 3 months to $r = 0.50$ at 24 months, $P = 0.03$ and 0.003 , respectively) and were correlated only at 3 months for planning ($r = 0.40$, $P = 0.045$) and attention ($r = 0.40$, $P = 0.049$).

Patients did not differ from the norms for planning at any assessment time but did differ for the global EF score and the attention and working memory scores at all times ($P < 0.001$). Performance-based EF score differed significantly from norms only at 3 months.

Performance-based EF score changed significantly over time [$F(2,86) = 4.48$, $P = 0.014$, $\eta_p^2 = 0.09$], with significant pairwise Sidak-adjusted comparisons showing a difference between 3 and 12 and 3 and 24 months ($P < 0.001$) but not 12 and 24 months.

Global EF score improved between 3 and 12 months [Huynh–Feldt $F(1.64, 91.2) = 6.35$, $P = 0.03$, $\eta_p^2 = 0.12$; Sidak-adjusted comparison $P = 0.01$], but the change between 3 and 24 months was not significant ($P = 0.09$). BRIEF indexes differed from norms at all assessment times. Changes in BRI and MI over time were not significant. Detailed scores for BRIEF subscales are in supplemental data 3.

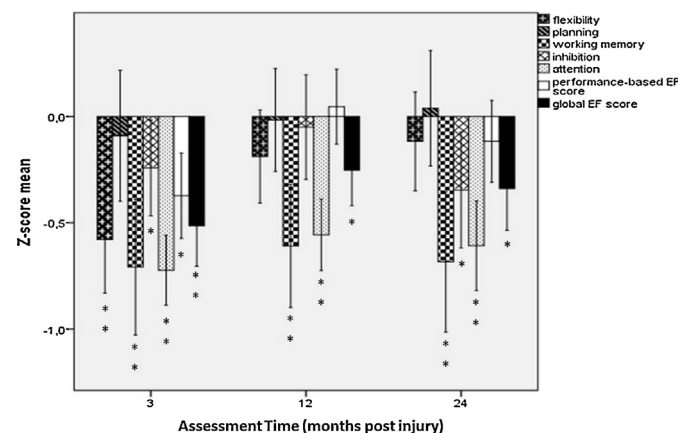


Fig. 1. Executive function (EF) Z-scores for children with traumatic brain injury by assessment times compared to normal values. Note: significance for attention at 24 months should be interpreted with caution because the distribution was bimodal and violated normality assumptions. Whiskers are 95% CIs. * $P < 0.05$; ** $P < 0.0001$.

3.3. Effect of demographic and injury characteristics on EF components

With Roy's largest root, MANCOVA revealed a significant effect of parental education [$\theta = 0.15$; $F(4,111) = 4.07$, $P = 0.004$] and assessment time [$\theta = 0.11$; $F(4,112) = 2.98$, $P = 0.022$] on EFs. Attention was removed from the MANCOVA because its distribution was binomial at 24 months and violated the assumption of normality. Follow-up ANOVA revealed significantly worse scores on all EFs for children whose parents had a lower than higher education level [$F(1,114) = 5.62$ for flexibility, 5.53 for planning, 15.06 for WM, 6.44 for inhibition (all $P < 0.05$, and WM $P < 0.001$)]. Planned simple contrast revealed that flexibility scores significantly improved between 3 and 12 months ($P = 0.034$) and 3 and 24 months (0.007), and repeated contrast revealed no significant change from 12 to 24 months. Scores did not change for other EFs.

3.4. Age-at-injury effects

The age-at-injury groups did not differ significantly in demographic and severity factors (see [supplemental data 4](#)), except for parental education, which was significantly lower for the 7–9 group than other groups ($P = 0.03$).

3.4.1. Age-at-injury effects on the global EF score

Two-way mixed repeated measures ANCOVA was used to examine change in global EF score by times and age-at-injury group. All covariates made a significant contribution, as denoted by a time $\times$ coma duration interaction [$F(2,90) = 11.01$, $P < 0.001$, $\eta_p^2 = 0.20$], with a main effect of GCS score [$F(1,45) = 6.85$, $P = 0.012$, $\eta_p^2 = 0.13$] and parental education [$F(1,45) = 5.61$, $P = 0.022$, $\eta_p^2 = 0.11$].

We found a significant time $\times$ age-at-injury group interaction [$F(8,96) = 3.65$, $P = 0.001$, $\eta_p^2 = 0.23$]; however, none of the planned contrasts was significant. Although graphically, at 24 months, the 10–12 group seemed to have significantly better global EF score than the other groups (see [supplemental data 5](#)), the main effects of age-at-injury group were not significant by ANCOVA.

3.4.2. Age-at-injury effects on component EF

We found no time $\times$ age-at-injury group interaction. The age-at-injury effect was not significant.

3.4.3. Age-at-injury effects on overall EF progress

We found a significantly large effect of age-at-injury group on amount of EF progress [$F(3,38) = 4.10$, $P = 0.01$, $\eta_p^2 = 0.25$]. Planned repeated contrasts revealed that children injured at age 3–6 recovered similarly to those injured at age 7–9 ([Fig. 2](#)), but children injured at age 10–12 recovered better than those injured at age 7–9 and at age 13–15 (difference in Z-score progress = 0.71, $P = 0.003$ and 0.65, $P = 0.006$, respectively). The 13–15 age group at injury seemed to show nearly no recovery.

3.5. Model predicting EF scores at 3, 12, 24 months and amount of EF recovery over time

Sociodemographic characteristics alone did not significantly predict EF outcome; however, when combined with GCS score, the model accounted for 36% of the variance in EF at 3 months and 23% of the variance at 24 months. At 12 months, we found a trend for GCS score to predict outcome.

Regarding improvement over time, the regression model showed that longer coma duration and age 10–12 at injury predicted good EF progress between 3 and 24 months. Detailed results of the regression models are in [Table 4](#).

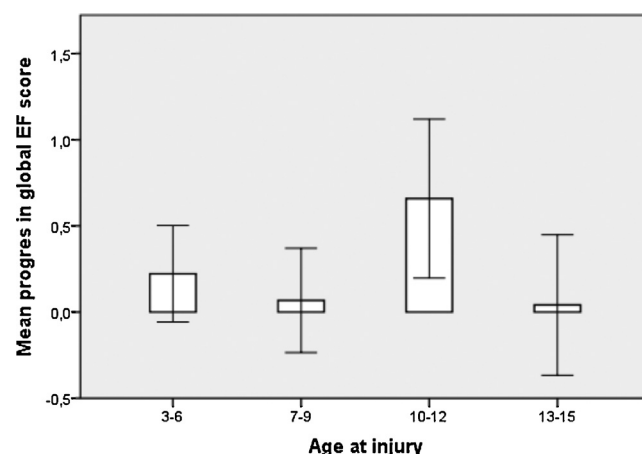


Fig. 2. Mean progress in global EF score between 3 and 24 months by age at injury. Whiskers are 95% CIs.

4. Discussion

Children showed significantly impaired WM, inhibition, attention and global EF after severe TBI. For flexibility and performance-based tests in general, children were impaired at 3 months only and EF improved to reach scores in the normal range by 12 months. We found no impairment in planning at any time. GCS score and parental education predicted global EF at 3 and 24 months. Age at injury predicted progress in EF, but the relationship was not linear, with children aged 10–12 at injury showing better outcome than older and younger children.

4.1. Strength of the study

This was a prospective longitudinal study including a large group of children with severe TBI. Larger cohorts of childhood TBI published to date usually include heterogeneous samples of children with a range of TBI severity; children with severe TBI are usually few in number as compared to the rest of the sample (42/330 [38], 50/132 [17], 18/54 [20], 13/40 [39], 33/122 [27], 14/59 [40], 13/40 [25], 33/63 [21], and 23/87 [41] with severe TBI). Furthermore, most studies focused on a restricted age range. Larger samples of severe TBI ($n = 118$) [42] did not assess EF and were not prospective studies, with an important selection bias (toward very severe injuries and inclusion of children hospitalized in an intensive rehabilitation department).

Children in our study were 0–15 years old and were included prospectively immediately after uniformly severe TBI. The prospective longitudinal nature of our study allowed for capturing positive outcomes as compared with retrospective studies that included patients in rehabilitation only [15,42]. To our knowledge, this is the largest study prospectively assessing EF in children with severe TBI. The disadvantage was the lack of uniform EF measures across the sample, which is the main reason for the age restriction in other studies. Nonetheless, the use of a global EF score allowed for comparing children who had different tests. Using both performance-based EF tests and ecologically valid questionnaires to assess EF, the global EF score was likely representative of true EF impairment, also taking into account impairment observed in everyday life.

Finally, our sample was representative of the TBI population in the Paris region, because we did not exclude children whose parents did not speak French, in contrast to other studies [38]. This factor did not allow for obtaining questionnaire data for the whole group; however, all children could be tested at least on

Table 4

Model predicting global EF score at 3, 12, 24 months and amount of EF recovery over time.

	Model step statistics				Predictor statistics ^a		
	F	Sig.	ΔR^2	Sig.	Standardized beta	t	P value
EF at 3 months model							
Step 1	5.83 [*]	0.006	0.21 [*]	0.006			
Step 2	5.89 [*]	0.001	0.15 [*]	0.012			
Parental education [*]					0.26	2.14	0.037
GCS [*]					0.34	2.89	0.006
Step 3	3.27 [*]	0.008	0.10	0.894			
Parental education [*]					0.37	2.50	0.017
GCS [*]					0.31	2.38	0.023
EF at 12 months model							
Step 1	1.68	0.198	0.07	0.198			
Step 2	2.91 [*]	0.032	0.14 [*]	0.027			
GCS					0.27	1.99	0.053
Step 3	1.64	0.153	0.01	0.916			
EF at 24 months model ^b							
Step 1	2.63	0.081	0.09	0.081			
Step 2	3.85 [*]	0.008	0.14 [*]	0.013			
Parental education [*]					0.29	2.23	0.030
GCS [*]					0.38	3.04	0.004
Step 3	2.77 [*]	0.013	0.09	0.207			
GCS [*]					0.34	2.68	0.01
Amount of EF recovery over time model							
Step 1	0.27	0.767	0.12	0.767			
Step 2	2.34	0.071	0.17 [*]	0.019			
Coma duration [*]					0.45	2.96	0.005
Step 3	3.40 [*]	0.06	0.20 [*]	0.013			
Coma duration [*]					0.46	3.33	.002
Age at injury 10–12 [*]					0.46	2.93	.006

Note: Step 1: socio-economic characteristics (language spoken and parental education); step 2: injury severity characteristics (dichotomized coma duration and GCS); step 3: the 3 age-at-injury group dummy variables, with the 13–15 years at injury group used as a reference and excluding the 0–2 age-at-injury group from analysis.

Directions of findings: The greater the GCS score, the better the global EF score. The longer the coma duration, the better the EF progress between 3 and 24 months.

^{*} Significant at 0.05.

^a Only predictors reaching a significance level of $P < 0.05$ are reported.

^b Children in the 0–2 years at injury group were excluded from the regression analysis of the 3 and 12 months and recovery over time models because of too few children old enough to be tested. By 24 months, 10 children aged 0–2 at injury could be tested (aged >3) and the group was included in the regression model, resulting in 4 age-at-injury dummy variables, compared to a fifth (13–15 years at injury reference group).

standardized tests. Some non-French-speaking and low-education parents likely have more difficulty applying for help and understanding counseling regarding their child because of language restrictions than do other parents, so these children should not be excluded from trials.

4.2. EF tests

Performance-based EF score significantly improved at 12 and 24 months as compared to 3 months, with no residual difference as compared to norms. This finding is consistent with previous reports that children's scores on performance-based EF tests improve over time [40,43]. However, interpreting reported improvements in performance-based measures of EF is difficult because better scores may be related to recovery or increased practice with the tests. The whole purpose of EF tests is to prevent lapses into automaticity and promote conscious, novel and effortful processing [4,44], so the scores at 12 and 24 months may not be reliable because the requirement of the novelty of EF tests for significant demands on EFs [4,44–47] was not met. Furthermore, in the Vriezen and Pigott [48] study, performance-based tests underestimated the child's level of executive functioning as compared to questionnaires of daily EF, perhaps because of the highly structured nature of standardized assessment in performance-based tests. Use of a matched control group would have controlled for the practice effect, whereas comparison to norms cannot conclude on the recovery or practice effect on the performance-based tests.

In contrast to performance-based EF tests, BRIEF questionnaires produced no recovery, which agrees with studies reporting no

improvement in EFs (measured by BRIEF) during the first year after TBI [38]. The major limitation of questionnaires, which was obvious in our study, is the need for parents to read and understand the language. The other important limitation of questionnaires in general is the subjectivity in rating, partly affected by emotional and personality factors: for example, a lack of awareness of the child's difficulties may lead parents to underestimate the EF impairment, whereas a request for help or seeking recognition of impairments may lead parents to respond more negatively, thus overestimating the child's impairment. Furthermore, parents may respond inconsistently to the questionnaire items. In the BRIEF questionnaire, these last 2 biases are controlled for by a negativity and an inconsistency score that screen for unreliable responses. Another issue with EF questionnaires is that their scores usually correlate poorly with scores for most EF tests – paper-and-pencil tests [48,49] or ecological tests [50] – and determining whether they measure the same construct is difficult, although this is a well-acknowledged problem with EF evaluation in general [51].

When using the global EF scores that integrated both questionnaires and performance-based scores, our findings were somehow in between, because we found a trend toward improvement between 3 and 24 months, although it did not reach significance. These results confirm previous concerns about EF performance-based tests' validity and promote their use combined with questionnaires. The significant improvement we found between 3 and 12 months but not between 3 and 24 months is not surprising: it confirms Babikian and Asarnov meta-analysis showing initial good recovery followed by an absence of age-expected progress, thereby resulting in lower Z-scores [13] at longer-term follow-up.

4.3. Component EF evolution over time

Ewing-Cobbs et al. [26] found that children tested at 1 to 2 years post-injury performed worse on measures of inhibitory control and working memory but not measures of cognitive flexibility as compared to controls. Our findings are similar, with important recovery for flexibility over time but persistent inhibition and WM deficit at 24 months post-injury. Similar to the Ewing-Cobbs [26] and Anderson [40] studies, flexibility was quite robust to the TBI effects, with rapid significant recovery across assessments and no significant deficit by 12 months post-injury. Because inhibitory control and WM undergo rapid development during early childhood but flexibility has a relatively flatter developmental trajectory, Ewing-Cobbs and colleagues interpreted this finding as supporting the idea that skills in a rapid stage of development are more vulnerable to the TBI effects. Our study may support this view. A large meta-analysis also found the largest effects on WM [13].

Similar to other studies, we did not find impaired planning [40]. This skill is thought to emerge later, around 12 years of age [52], and therefore deficits may not be clearly apparent before that age. A meta-analysis found large effects on planning becoming apparent only after 24 months [13] post-injury, but overall, the children in the included studies were older than in our study. Because 60% of the children in our study were <12 years old by the 24-month testing, a longer follow-up may have allowed for detecting significant impairment with increasing age. Another explanation could be the lack of sensitivity of the tests used [53], although this is unlikely because our planning score also included tests other than the NEPSY-1 tower, which has questionable psychometrics.

In this study, attention was impaired as compared to norms at all assessment times. Our results are consistent with the Babikian and Asarnov meta-analysis, finding impaired attention after childhood severe TBI [13], although other studies reported opposite results [20,27,39]. Attention is a complex construct, involving different types of attention, so the limited number of performance-based tests used in past studies may not have captured attention deficits. Indeed, some of the tests used in previous studies may have offered a poor reflection of attentional skills (e.g., forward digit span only [39,40]). In our study, performance-based tests of attention were combined with a more ecological measure of everyday attention, which probably led to a more sensitive reflection of attentional deficits experienced after severe TBI, as was suggested in previous research [27]. To support this interpretation, we re-ran the analysis without including the CBCL attention subscale and found no attention deficit as compared to norms. Again, the lack of sensitivity of performance-based tests is an on-going concern in attention and EF research [38,54,55].

4.4. Age at injury

Some studies had restricted age ranges (1–7 [20,25], 3–6 [41], 0–6 [15], 12–17 [29] years) and found no age-at-injury effects, whereas other studies using larger age-at-injury ranges found an effect both for general intellectual ability [24,27,34,56] and EF [24]. Previous research often assumed that age effects are linear, that is, younger age at injury leads to poorer outcomes. However, the literature has now shown the child's step-wise maturation of the brain, with critical maturational periods [57–59], separated by less rapid development periods, so a linear relation between age at injury and cognition is unlikely.

Crowe et al. [34] found that the 7–9 age-at-injury period is the most vulnerable to adverse outcome after brain injury as compared to younger and older ages at injury but also found better recovery for the 10–12 age-at-injury group (better processing speed and performance IQ), which is consistent with our results of the best EF

recovery for the 10–12 age-at-injury group. Visual inspection of progress (Fig. 2) indeed seemed to show very little recovery in the 7–9 age-at-injury group. The Crowe et al. study did not have a 13–15 age-at-injury group for comparison: in our study, this group's recovery seemed very close to that of the 7–9 age group. Nonetheless, their progress was significantly worse than for the 10–12 age group. After age 12, higher-order EF develops, such as planning and higher-order attention, and frontal lobes show important myelination during adolescence. Therefore, the 13–15 age group may have been more vulnerable to brain injury because of rapidly developing EF skills at the time of injury. Unfortunately, most studies do not include large age ranges, and adolescents have rarely been compared to younger age-at-injury groups. Overall, our results seem to support age at injury as an important predictor of executive functioning after severe childhood TBI but with a nonlinear pattern of vulnerability. These results support the theory of increased vulnerability of the child's brain during rapid EF development, or more precisely, that when a cognitive function is not in a rapidly developing stage (10–12 group), EFs are less vulnerable to the adverse effects of severe TBI. Adolescence may represent another high-risk group for adverse outcomes.

4.5. Predictors of EF outcome

Our study used a simplified dichotomous measure of socioeconomic status by parental education. The effect of socioeconomic status confirms earlier literature [41,60] finding better cognitive performance associated with a more- than less-educated home environment. Parental education affected all components of EF, especially WM, and was a significant predictor of EFs at 3 and 24 months.

In our study, longer coma duration did not predict poor outcome after severe TBI. Progress in global EF score was significantly greater with longer coma duration, because of lower global EF score at 3 months in children with longer coma length ($P = 0.026$) but similar global EF score at 24 months ($P = 0.84$), thereby resulting in mathematically larger differences between the 2 assessments. As such, the effect of coma duration on progress was somehow artificial. The Babikian and Asarnov meta-analysis also found the largest recovery for children with the most severe TBI who had the most impaired scores at initial assessments [13].

Most studies have associated GCS score <9 (severe TBI) with poor outcome [15,20,61], but most compared children with mild and moderate injuries to those with severe TBI. GCS score can predict outcome after TBI on a range of dependent variables [61], including general intellectual skills [15,34], EF [20,40] and mathematics skills [15]. Our study showed further that among children with severe injury, GCS score ≤ 6 is a significant predictor of worse executive functioning immediately after injury (3 months) and at 2 years, as compared to GCS score 7–9.

Overall in our sample, high GCS score, high parental education and age at injury 10–12 (i.e., probably during less rapid brain maturation) predicted better EF at 24 months. Only age at injury (10–12 group) predicted amount of EF progress between 3 and 24 months post-injury, when the artificial effect of coma duration was removed.

4.6. Recommendations

The literature published so far shows a lack of consistency in how EF components are conceptualized and assessed [13,20,28,39,41]. Future studies should aim at selecting tests that are validated measures of EF. Ecologically valid tests, such as the BRIEF questionnaire, should be included, because performance-based tests alone tend to underestimate EF impairment. Because of language barriers with questionnaires, the combined use of

performance-based and ecological tests with strong psychometric properties would contribute greatly to the field [50,62,63]. The issue of the retest effect in EF tests remains an important concern for the interpretability of results, and future research should encourage the development of parallel forms of ecological EF tests.

4.7. Study limitations

The main limitation of the study is the heterogeneity of tests used to construct the composite scores because of the heterogeneity of the population (large age range, which did not allow for using the same tests in the whole sample, some tests not suitable before age 5 years, non-French-speaking parents) and this could not be overcome at the time of the study. The second main limitation is the lack of a control group: relying on norm-referenced tests of EFs and comparing the TBI group scores to norms instead of using a prospective control group may have underestimated EF difficulties and not allow for controlling for retest effects. Massagli et al. [61], who compared the magnitude of impairment in a cohort of children with TBI using both methods, found that using population norms underestimated impairment as compared to using controls. Similar findings have been reported in other causes of acquired brain injury, with a difference magnitude of up to 1 to 2 SD [64]. Furthermore, norms were available for individual measures, not for the composite scores. Finally, tests and questionnaires were used to represent different EFs on the basis of previous publications and clinical practice, but consensus is lacking about which test or questionnaire represents which EF, especially when combining questionnaire and performance-based tests whose scores are correlated only weakly in the literature. Previous studies of cohorts have chosen and/or combined tests without clear empirical justification as well, and a current practice in clinics is to combine questionnaires and performance-based tests to grasp a better view of a patient's EF.

We did not have a measure of pre-injury functioning and therefore could not include pre-injury factors in our analysis, but pre-injury factors such as cognitive reserve can mediate the effects of TBI [40,56]. Also, the measure of family environment variables was approximate, with only parental education included, rather than measures of family functioning, which has been found crucial in TBI outcome [41,65].

Since the study has been performed, guidelines have been published regarding valid outcome measures recommended for childhood TBI [66], which could be used in future studies. At the time of the study, few tests of EFs were available in French. EF impairment may have been underestimated because of the insufficient discriminant and construct validity of the NEPSY-1 [67,68]. Finally, a number of children were assessed with performance-based tests only, because their parents were not sufficiently fluent in French or because the BRIEF questionnaire can only be used after age 5. Performance-based EF tests are known to underestimate EF impairment, so the overall EF impairment in our study was probably underestimated, especially in the youngest age groups. However, children whose parents do not sufficiently master the French language are an important and challenging population for clinicians, and future studies should make all possible efforts to integrate them in longitudinal studies, despite assessment difficulties.

5. Conclusions

EFs are impaired after severe TBI in childhood. Flexibility and planning seem quite robust to the TBI effects, but impaired WM, inhibition, attention and global EFs are persistent at 24 months post-injury. Longer coma duration did not seem to affect EFs in our sample, but parental education was an important predictor of EF

recovery. Ewing-Cobbs's hypothesis of greater vulnerability of the developing brain during phases of rapid development is supported by our results, with children age 10–12 at injury (corresponding to a relatively stable phase of cognitive development) showing better progress from 3 to 24 months, regardless of their impairment at 3 months, than other children. Relying on only performance-based EF tests can underestimate EF impairment, and our study confirms concerns about the ecological validity of usual EF tests.

Disclosure of interest

The authors declare that they have no competing interest.

Acknowledgements

This study was funded by the Département de la recherche clinique et du développement, AP-HP (Paris, No. PHRC 2003; AOM 03018). We thank Drs. Dominique Brugel and Hanna Toure for help in data collection and Laurence Watier for help with data management.

Appendix A. Supplementary data

Supplementary data associated with this article can be found, in the online version, at [doi:10.1016/j.rehab.2016.06.001](https://doi.org/10.1016/j.rehab.2016.06.001).

References

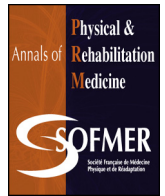
- [1] Thurman DJ. The epidemiology of traumatic brain injury in children and youths: a review of research since 1990. *J Child Neurol* 2014. <http://dx.doi.org/10.1177/0883073814544363>.
- [2] Anderson P. Assessment and development of executive function (EF) during childhood. *Child Neuropsychol* 2002;8:71–82. <http://dx.doi.org/10.1076/chin.8.2.71.8724>.
- [3] Gioia GA, Isquith PK. Ecological assessment of executive function in traumatic brain injury. *Dev Neuropsychol* 2004;25:135–58. <http://dx.doi.org/10.1080/87565641.2004.9651925>.
- [4] Rabbitt P. Methodologies and models in the study of executive function. In: Rabbitt P, editor. *Methodology of frontal and executive functions*. East Sussex, UK: Psychology Press Ltd.; 1997. <http://www.scribd.com/doc/50671857/Methodology-of-Frontal-and-Executive-Functions> [accessed 30.07.12].
- [5] Burgess PW, Simons JS. Theories of frontal lobe executive function: clinical applications. In: Halligan PW, Wade DT, editors. *The effectiveness of rehabilitation for cognitive deficits*. Oxford: Oxford University Press; 2005.
- [6] Diamond A. Executive functions. *Annu Rev Psychol* 2013;64:135–68. <http://dx.doi.org/10.1146/annurev-psych-113011-143750>.
- [7] Luna B, Garver KE, Urban TA, Lazar NA, Sweeney JA. Maturation of cognitive processes from late childhood to adulthood. *Child Dev* 2004;75:1357–72. <http://dx.doi.org/10.1111/j.1467-8624.2004.00745.x>.
- [8] Baddeley AD, Hitch GJ. Developments in the concept of working memory. *Neuropsychology* 1994;8:485–93. <http://dx.doi.org/10.1037/0894-4105.8.4.485>.
- [9] Smith EE, Jonides J. Storage and executive processes in the frontal lobes. *Science* 1999;283:1657–61.
- [10] Cowan N, AuBuchon AM, Gilchrist AL, Ricker TJ, Sauls JS. Age differences in visual working memory capacity: not based on encoding limitations. *Dev Sci* 2011;14:1066–74. <http://dx.doi.org/10.1111/j.1467-7687.2011.01060.x>.
- [11] Davidson MC, Amso D, Anderson LC, Diamond A. Development of cognitive control and executive functions from 4 to 13 years: evidence from manipulations of memory, inhibition, and task switching. *Neuropsychologia* 2006;44:2037–78. <http://dx.doi.org/10.1016/j.neuropsychologia.2006.02.006>.
- [12] Anderson V. Assessing executive functions in children: biological, psychological, and developmental considerations. *Dev Neuropsychol* 2001;4:119–36. <http://dx.doi.org/10.1080/13638490110091347>.
- [13] Babikian T, Asarnow R. Neurocognitive outcomes and recovery after pediatric TBI: meta-analytic review of the literature. *Neuropsychology* 2009;23:283–96. <http://dx.doi.org/10.1037/a0015268>.
- [14] Levin HS, Hanten G. Executive functions after traumatic brain injury in children. *Pediatr Neurol* 2005;33:79–93. <http://dx.doi.org/10.1016/j.pediatr-neurol.2005.02.002>.
- [15] Ewing-Cobbs L, Prasad MR, Kramer L, et al. Late intellectual and academic outcomes following traumatic brain injury sustained during early childhood. *J Neurosurg* 2006;105(Suppl):287–96. <http://dx.doi.org/10.3171/ped.2006.105.4.287>.
- [16] Fulton JB, Yeates KO, Taylor HG, Walz NC, Wade SL. Cognitive predictors of academic achievement in young children 1 year after traumatic brain injury. *Neuropsychology* 2012;26:314–22. <http://dx.doi.org/10.1037/a0027973>.

- [17] Arnett AB, Peterson RL, Kirkwood MW, Taylor GH, Stancin T, Brown TM, et al. Behavioral and cognitive predictors of educational outcomes in pediatric traumatic brain injury. *J Int Neuropsychol Soc* 2013;19:881–9. <http://dx.doi.org/10.1017/S1355617713000635>.
- [18] Muscara F, Catroppa C, Anderson V. Social problem-solving skills as a mediator between executive function and long-term social outcome following paediatric traumatic brain injury. *J Neuropsychol* 2008;2(Pt 2):445–61.
- [19] Nybo T, Sainio M, Müller K. Stability of vocational outcome in adulthood after moderate to severe preschool brain injury. *J Int Neuropsychol Soc* 2004;10:719–23. <http://dx.doi.org/10.1017/S1355617704105109>.
- [20] Nadebaum C, Anderson V, Catroppa C. Executive function outcomes following traumatic brain injury in young children: a five year follow-up. *Dev Neuropsychol* 2007;32:703–28. <http://dx.doi.org/10.1080/87565640701376086>.
- [21] Mangeot S, Armstrong K, Colvin AN, Yeates KO, Taylor HG. Long-term executive function deficits in children with traumatic brain injuries: assessment using the Behavior Rating Inventory of Executive Function (BRIEF). *Child Neuropsychol* 2002;8:271–84. <http://dx.doi.org/10.1076/chin.8.4.271.13503>.
- [22] Donders J, Warschawsky S. Neurobehavioral outcomes after early versus late childhood traumatic brain injury. *J Head Trauma Rehabil* 2007;22:296–302. <http://dx.doi.org/10.1097/01.HTR.0000290974.01872.82>.
- [23] Anderson V, Spencer-Smith M, Wood A. Do children really recover better? Neurobehavioural plasticity after early brain insult. *Brain* 2011;134(Pt 8):2197–221. <http://dx.doi.org/10.1093/brain/awr103>.
- [24] Anderson V, Spencer-Smith M, Leventer R, et al. Childhood brain insult: can age at insult help us predict outcome? *Brain* 2008;132:45–56. <http://dx.doi.org/10.1093/brain/awn293>.
- [25] Anderson V, Godfrey C, Rosenfeld JV, Catroppa C. Predictors of cognitive function and recovery 10 years after traumatic brain injury in young children. *Pediatrics* 2012;129:e254–61. <http://dx.doi.org/10.1542/peds.2011-0311>.
- [26] Ewing-Cobbs L, Prasad MR, Landry SH, Kramer L, DeLeon R. Executive functions following traumatic brain injury in young children: a preliminary analysis. *Dev Neuropsychol* 2004;26:487–512. http://dx.doi.org/10.1207/s15326942dn2601_7.
- [27] Anderson V, Catroppa C, Morse S, Haritou F, Rosenfeld J. Functional plasticity or vulnerability after early brain injury? *Pediatrics* 2005;116:1374–82. <http://dx.doi.org/10.1542/peds.2004-1728>.
- [28] Donders J, Nesbit-Greene K. Predictors of neuropsychological test performance after pediatric traumatic brain injury. *Assessment* 2004;11:275–84. <http://dx.doi.org/10.1177/1073191104268914>.
- [29] Kurowski BG, Wade SL, Kirkwood MW, et al. Association of parent ratings of executive function with global- and setting-specific behavioral impairment after adolescent traumatic brain injury. *Arch Phys Med Rehabil* 2013;94:543–50. <http://dx.doi.org/10.1016/j.apmr.2012.10.029>.
- [30] Baker SP, O'Neill B, Haddon W, Long WB. The injury severity score: a method for describing patients with multiple injuries and evaluating emergency care. *J Trauma* 1974;14:187–96.
- [31] Gioia GA, Isquith PK, Guy SC, Kenworthy L. Behavior Rating Inventory of Executive Function[®] (BRIEF[®]); 2000.
- [32] Roy A, Fournet N, Le Gall D, Roulin J-L. Behavior Rating Inventory of Executive Function[®] (BRIEF[®]). Adapted from Gioia GA, Isquith PK, Guy SC, Kenworthy L. Hogrefe, France (French version edition); 2012.
- [33] Achenbach T. Child Behavior Checklist. In: Verhulst FC, van der Ende J, editors. Vol adaptation française C. Capron. Rotterdam, Nederland: Erasmus MC-Sophia; 2001.
- [34] Crowe LM, Catroppa C, Babl FE, Rosenfeld JV, Anderson V. Timing of traumatic brain injury in childhood and intellectual outcome. *J Pediatr Psychol* 2012;37:745–54. <http://dx.doi.org/10.1093/jpepsy/js070>.
- [35] Giza CC, Prins ML. Is being plastic fantastic? Mechanisms of altered plasticity after developmental traumatic brain injury. *Dev Neurosci* 2006;28:364–79. <http://dx.doi.org/10.1159/000094163>.
- [36] van Praag H, Kempermann G, Gage FH. Neural consequences of environmental enrichment. *Nat Rev Neurosci* 2000;1:191–8. <http://dx.doi.org/10.1038/35044558>.
- [37] Kolb B, Pellis S, Robinson TE. Plasticity and functions of the orbital frontal cortex. *Brain Cogn* 2004;55:104–15. [http://dx.doi.org/10.1016/S0278-2626\(03\)00278-1](http://dx.doi.org/10.1016/S0278-2626(03)00278-1).
- [38] Sesma HW, Slomine BS, Ding R, McCarthy ML. Executive functioning in the first year after pediatric traumatic brain injury. *Pediatrics* 2008;121:e1686–95. <http://dx.doi.org/10.1542/peds.2007-2461>.
- [39] Beauchamp M, Catroppa C, Godfrey C, Morse S, Rosenfeld JV, Anderson V. Selective changes in executive functioning ten years after severe childhood traumatic brain injury. *Dev Neuropsychol* 2011;36:578–95. <http://dx.doi.org/10.1080/87565641.2011.555572>.
- [40] Anderson V, Catroppa C. Recovery of executive skills following paediatric traumatic brain injury (TBI): a 2 year follow-up. *Brain Inj* 2005;19:459–70.
- [41] Gerrard-Morris A, Taylor HG, Yeates KO, et al. Cognitive development after traumatic brain injury in young children. *J Int Neuropsychol Soc* 2010;16:157–68. <http://dx.doi.org/10.1017/S1355617709991135>.
- [42] Recla M, Bardon A, Galbiati S, et al. Cognitive and adaptive functioning after severe TBI in school-aged children. *Brain Inj* 2013;27:862–71. <http://dx.doi.org/10.3109/02699052.2013.775499>.
- [43] Levin HS, Song J, Scheibel RS, et al. Concept formation and problem-solving following closed head injury in children. *J Int Neuropsychol Soc* 1997;3:598–607.
- [44] Denckla MB. Measurement of executive function. In: Frames of reference for the assessment of learning disabilities: new views on measurement issues. Baltimore, MD, USA: Paul H Brookes Publishing; 1994. p. 117–42.
- [45] Shallice T, Burgess P. Higher order cognitive impairments and frontal lobe lesions in man. In: Levin HS, Benton AL, editors. Frontal lobe function and dysfunction. New York: Oxford University Press; 1991. p. 125–38.
- [46] Duncan J. Disorganisation of behaviour after frontal lobe damage. *Cogn Neuropsychol* 1986;3:271–90. <http://dx.doi.org/10.1080/02643298608253360>.
- [47] Beck DM, Schaefer C, Pang K, Carlson SM. Executive function in preschool children: test–retest reliability. *J Cogn Dev* 2011;12:169–93. <http://dx.doi.org/10.1080/15248372.2011.563485>.
- [48] Vriezen ER, Pigott SE. The relationship between parental report on the BRIEF and performance-based measures of executive function in children with moderate to severe traumatic brain injury. *Child Neuropsychol* 2002;8:296–303. <http://dx.doi.org/10.1076/chin.8.4.296.13505>.
- [49] Anderson VA, Anderson P, Northam E, Jacobs R, Mikiewicz O. Relationships between cognitive and behavioral measures of executive function in children with brain disease. *Child Neuropsychol* 2002;8:231–40. <http://dx.doi.org/10.1076/chin.8.4.231.13509>.
- [50] Chevignard MP, Catroppa C, Galvin J, Anderson V. Development and evaluation of an ecological task to assess executive functioning post childhood TBI: The Children's Cooking Task. *Brain Impair* 2010;11:125–43. <http://dx.doi.org/10.1375/brim.11.2.125>.
- [51] Duncan J, Johnson R, Swales M, Freer C. Frontal lobe deficits after head injury: unity and diversity of function. *Cogn Neuropsychol* 1997;14:713–41. <http://dx.doi.org/10.1080/026432997381420>.
- [52] Anderson VA, Anderson P, Northam E, Jacobs R, Catroppa C. Development of executive functions through late childhood and adolescence in an Australian sample. *Dev Neuropsychol* 2001;20:385–406. http://dx.doi.org/10.1207/s15326942DN2001_5.
- [53] Schmitt A. Validation of a Developmental Neuropsychological Assessment (NEPSY) through comparison of neurological, scholastic concerns, and control groups. *Arch Clin Neuropsychol* 2004;19:1077–93. <http://dx.doi.org/10.1016/j.acn.2004.02.002>.
- [54] Toplak ME, West RF, Stanovich KE. Practitioner Review: do performance-based measures and ratings of executive function assess the same construct? Performance-based and rating measures of EF. *J Child Psychol Psychiatry* 2013;54:131–43. <http://dx.doi.org/10.1111/jcpp.12001>.
- [55] Toplak ME, Bucciarelli SM, Jain U, Tannock R. Executive functions: performance-based measures and the Behavior Rating Inventory of Executive Function (BRIEF) in adolescents with attention deficit/hyperactivity disorder (ADHD). *Child Neuropsychol* 2008;15:53–72. <http://dx.doi.org/10.1080/09297040802070929>.
- [56] Aaro Jonsson C, Catroppa C, Godfrey C, Smedler A-C, Anderson V. Individual profiles of predictors and their relations to 10 years outcome after childhood traumatic brain injury. *Brain Inj* 2013;27:831–8. <http://dx.doi.org/10.3109/02699052.2013.775493>.
- [57] Casey BJ, Giedd JN, Thomas KM. Structural and functional brain development and its relation to cognitive development. *Biol Psychol* 2000;54:241–57.
- [58] Gogtay N, Giedd JN, Lusk L, et al. Dynamic mapping of human cortical development during childhood through early adulthood. *Proc Natl Acad Sci USA* 2004;101:8174–9. <http://dx.doi.org/10.1073/pnas.0402680101>.
- [59] Klingberg T, Vaidya CJ, Gabrieli JD, Moseley ME, Hedehus M. Myelination and organization of the frontal white matter in children: a diffusion tensor MRI study. *Neuroreport* 1999;10:2817–21.
- [60] Yeates KO, Taylor HG, Drotar D, et al. Preinjury family environment as a determinant of recovery from traumatic brain injuries in school-age children. *J Int Neuropsychol Soc* 1997;3:617–30.
- [61] Massagli TL, Jaffe KM, Fay GC, Polissar NL, Liao S, Rivara JB. Neurobehavioral sequelae of severe pediatric traumatic brain injury: a cohort study. *Arch Phys Med Rehabil* 1996;77:223–31.
- [62] Chevignard MP, Soo C, Galvin J, Catroppa C, Eren S. Ecological assessment of cognitive functions in children with acquired brain injury: a systematic review. *Brain Inj* 2012;26:1033–57. <http://dx.doi.org/10.3109/02699052.2012.666366>.
- [63] Krasny-Pacini A, Servant V, Alzieu C, Chevignard M. Ecological prospective memory assessment in children with acquired brain injury using the Children's Cooking Task. *Dev Neurorehabil* 2015;1–6. <http://dx.doi.org/10.3109/17518423.2015.1058298>.
- [64] Longaud-Valès A, Chevignard M, Dufour C, et al. Assessment of executive functioning in children and young adults treated for frontal lobe tumours using ecologically valid tests. *Neuropsychol Rehabil* 2015;1–26. <http://dx.doi.org/10.1080/09602011.2015.1048253>.
- [65] Kurowski BG, Taylor HG, Yeates KO, Walz NC, Stancin T, Wade SL. Caregiver ratings of long-term executive dysfunction and attention problems after early childhood traumatic brain injury: family functioning is important. *PM R* 2011;3:836–45. <http://dx.doi.org/10.1016/j.pmrj.2011.05.016>.
- [66] Bagella E, Novack TA, Ansel B, et al. Measuring outcome in traumatic brain injury treatment trials: recommendations from the traumatic brain injury clinical trials network. *J Head Trauma Rehabil* 2010;25:375–82. <http://dx.doi.org/10.1097/HTR.0b013e3181d27fe3>.
- [67] Stinnett TA. Examination of the underlying structure of the neopsy: a developmental neuropsychological assessment. *J Psychoeduc Assess* 2002;20:66–82. <http://dx.doi.org/10.1177/07342829020200105>.
- [68] Korkman M, Kirk U, Kemp S. Test NEPSY: BILAN NEUROPSYCHOLOGIQUE DE L'ENFANT. ECPA. Adapt. Française 2003; 1997, <http://www.ecpa.fr/orthophonie/test.asp?id=1874> [accessed 02.12.15].



Available online at
ScienceDirect
www.sciencedirect.com

Elsevier Masson France
EM|consulte
www.em-consulte.com



Original article

Charlie Chaplin and gesture training in severe aphasia: A controlled double-blind single-case experimental design



Clemence Vibrac^{a,b,c}, Amelie Avias^c, Pierre-Olivier François^d, Marie-Eve Isner-Horobeti^{d,e}, Agata Krasny-Pacini^{d,f,*}

^a Pôle Ambroise-Paré, service d'ORL, Hôpitaux civils de Colmar, 39, avenue de la Liberté, 68024 Colmar cedex, France

^b Pôle psychiatrie, service de psychiatrie infanto juvénile, Hôpitaux civils de Colmar, 39, avenue de la Liberté, 68024 Colmar cedex, France

^c Centre de formation universitaire en orthophonie de Strasbourg, 4, rue Kirschleger, 67000 Strasbourg, France

^d Pôle de médecine physique et de réadaptation, Institut Universitaire de réadaptation Clemenceau-Strasbourg, 45, boulevard Clémenceau, 67082 Strasbourg cedex, France

^e Strasbourg university, Fédération de médecine translationnelle de Strasbourg, EA 3072 "mitochondrie, stress oxydant et protection musculaire", Strasbourg, France

^f Strasbourg university, unité Inserm 1114 Neuropsychologie cognitive et physiopathologie de la schizophrénie, département de psychiatrie, Hôpital civil de Strasbourg, 1, place de l'Hôpital, 67091 Strasbourg cedex, France

ARTICLE INFO

Article history:

Received 12 June 2019

Accepted 21 December 2019

Keywords:

Aphasia
 Stroke
 Gesture
 Intervention
 Speech therapy
 Single-case experimental design

ABSTRACT

Background: Aphasia following a stroke is a frequent and disabling condition that decreases quality of life. The use of gesture has been proposed as a way to enhance aphasia recovery.

Objective: We aimed to explore whether 2 types of gesture interventions could improve communication in individuals with severe aphasia.

Methods: This was a pilot study performed at home in routine care by an outreach team. The study had a controlled double-blind single-case experimental design (SCED): a controlled multiple baseline design across 3 participants and 2 behaviors (gesture and naming). Three male patients with stroke-induced severe chronic aphasia, non-functional perseverative speech and severe associated impairments underwent a passive gesture intervention, in which participants watched movies selected for their intensive use of gesture, and an active gesture intervention, in which they actively practiced gestures by using visual action therapy. The main outcome measures were naming score, gesture score and nonverbal subscale score of the Lillois Test of Communication, with 3-month follow-up.

Results: In all 3 participants, gesture interventions improved the ability to gesture a list of words (Tau-U = 0.38–0.67 for combined gesture intervention effect) and increased nonverbal communication activity. Benefits were maintained at 3-month follow-up.

Conclusions: Mute films that use intensive nonverbal communication may be a useful add-on to speech therapy for individuals with aphasia. Improving naming in severe and chronic aphasia may not be feasible, and more effort could be devoted to improving gesture-based and nonverbal communication.

© 2020 Elsevier Masson SAS. All rights reserved.

1. Introduction

Aphasia following a stroke is a frequent and disabling condition that decreases quality of life. A number of approaches have been proposed to treat aphasia, with currently no consensus [1], but the use of gesture has been proposed as a way to enhance aphasia recovery [2]. In this approach, gestures are used to facilitate spoken output but also to compensate communication activity. Compensatory commu-

nication relies primarily on symbolic gestures that express some type of meaning [2] (e.g., hand shaped as a house, use of objects or actions such as a glass/drinking, familiar actions such as thumbs up [3]) and has shown strong benefit in people with aphasia [4–6].

Hence, training gestures in aphasia may result in better effectiveness of communication in everyday life by:

- enhancing the use of meaningful gestures to increase the comprehension of speech;
- facilitating spoken production;
- more generally promoting the use of nonverbal communication skills.

* Corresponding author at: Institut universitaire de réadaptation Clemenceau-Strasbourg, 10, avenue Achille-Baumann, BP 80096, 67402 Illkirch cedex, France.
 E-mail address: agatakrasnypacini@gmail.com (A. Krasny-Pacini).

However, whether this communication may be achieved in individuals with severe aphasia, associated with apraxia (which hinders gesture production) and executive dysfunction (which hinders efficient planning of discourse and inhibition of meaningless gestures and spoken productions), is unknown.

The combination of observation and practice of gestures (e.g., visual action therapy [VAT]) [6] seems an effective approach [8], but the mere observation of an action (e.g., on a videoclip) may enhance word production [9]. The aim of the study was to explore whether 2 types of gesture interventions — (1) a passive gesture intervention in which individuals only watch movies selected for their intensive use of gesture and nonverbal communication (e.g., Charlie Chaplin) and (2) an active gesture intervention in which individuals actively practice gestures by using VAT — can improve communication in people with stroke-induced severe chronic aphasia by improving meaningful gesturing ability, naming ability, and nonverbal communication skills.

2. Methods

We included 3 individuals ≥ 18 years old who presented ischemic left-sided stroke and chronic (onset > 3 years) aphasia-related severe communication disability, defined as a complete inability to communicate with the physician at medical visits, without the help of proxies. Inclusions were concurrent (i.e., all participants started baseline at the same time). There were no exclusion criteria.

The study was a pilot study performed at home in routine care with a controlled multiple baseline design across 3 participants and 2 behaviors (gesture and naming). The first phase was a baseline measurement without specific intervention (but non-specific time with therapist), and the 2 following phases were gesture intervention phases applied in a balanced order (Table 1).

Phase length was determined by a restricted Marascuilo-Busk procedure [10], with the restriction of at least 5 measures per phase [11]; that is, phase changes for each participant were selected at random among $k = 5$ possible times, so that each phase had a minimum of 5 measures and maximum of 10 measures, with the restriction of never having the same phase length for 2 participants (to respect the staggered sequential introduction of intervention in single-case experimental design [SCED]). In this procedure, the number of participants (N) must be less than k . The higher the difference between k and N , the more permutations ($= k!/(k-N)!$) and the more power to detect a significant change at $P > 0.05$.

Target behaviors were measured every other intervention session. In each phase, participants had 4 to 5 individual intervention sessions of 35 to 45 min weekly in their home with one of the 2 speech therapists conducting the study. Phase length was determined after 5 points of baseline were obtained. The patients were not blinded to the content of each phase, but they were blinded to the study hypothesis and to the fact that only the second and third phases had a specific content in relation to their aphasia.

2.1. Target behaviors

At each measurement, patients had to name (target behavior 1) and gesture (target behavior 2) a set of 12 words (e.g., key, snake, glass, to dig, to color, to mix) previously identified as impossible to name (no spoken production) that were selected at random from a list of 100 words administered before the study. The content of each set was patient-specific and remained the same throughout the phases. Gestures were scored as 0, no gesture produced; 1, gesture initiated but without meaning; 2, expressive gesture but

Table 1

Baseline and intervention description.

Baseline
No specific aphasia training but time with therapist of same intensity (45-min sessions) as specific intervention administered in the following phases. During baseline, therapists spent time with participants, using materials not targeting aphasia but rather other cognitive functions: nonverbal logic (Logix [®]), mental flexibility and spatial reasoning (Tangram), visuo-spatial representation (Connect 4)
Passive gesture intervention
Watching mute films with the therapist (45-min sessions). The films were selected for the intensive use of gestures and facial expressions of their characters: mute movies (Charlie Chaplin, Buster Keaton), pantomimes (Mime Bizot), stories using sign language. In every session, different types of films were shown, to keep participants interested. Therapists did not intervene during movie screening, unless the participant asked something. At the end of the sessions, therapists asked participants questions to keep them engaged in the activity (e.g., Did you understand the movie? Are there gestures you could use? How did you like the movie?). None of the words of the repeated measures was represented in the movies
Active gesture intervention
Visual action therapy, in which participants are trained to make gestures using cards and real-life objects (a telephone, a hammer, an eraser) in a progressive and structured protocol published by Helm-Estabrooks [7]. All items from the original Helm-Estabrooks protocol were used, as was half of the 12-word set. It was expected that the intervention would generalize to the untrained items of the 12-word set

imprecise; and 3, precise and expressive gesture that can be easily understood. Naming was scored as 0, no spoken production; 1, inappropriate spoken production; 2, semantic or phonemic paraphasia; and 3, correct naming. With each measure based on 12 words, the gesture and the naming score could vary from 0 to 36. An increase in scores meant that the individual was improving. The scoring was based on a video recording of the participant, visualized in randomized order. Hence, assessors were blinded to intervention phase when scoring. Two assessors independently scored 20% of measures for each participant and each phase, to calculate the inter-rater reliability of the scoring system.

2.2. Other measures

The Boston Diagnostic Aphasia Examination naming score and the Lillois Test of Communication (LTC) [12,13] – nonverbal subscale (a PACE-like assessment in which individuals have to make the assessor discover the picture they are looking at by using any form of communication). The LTC, routinely used with French-speaking aphasic patients, is a standardized assessment of functional communication with adequate inter-rater reliability that assesses most aspects of communication activity (motivation to communicate, body language, etc.). These measurements were administered 4 times:

- before baseline;
- after the first gesture intervention;
- after the second intervention;
- 3 months after the end of all interventions (follow-up).

This last measure aimed at testing maintenance of the effect and further included a supplemental measure of target behaviors (12-word gesture and naming).

The interventions and evaluation were performed in participants' homes. The study conformed to the Helsinki Declaration. Participants gave their written informed consent. Procedural fidelity was measured based on video recording the sessions by a speech therapist who did not participate in the session.

2.3. Data analysis

Data analysis was performed with both visual aids (using <https://manolov.shinyapps.io/Overlap/>) and statistical methods adapted to single-case experimental designs: randomization tests [10] based on permutations for the overall effect of the interventions for all participants and Tarlow's Tau-U [14] for the individual effect of the interventions for each participant. Regarding the individual effect of the interventions for each participant, the following were compared:

- baseline versus cumulative effect of both gesture interventions;
- baseline versus first gesture intervention;
- first gesture intervention versus second gesture intervention.

With number of measures at baseline ≤ 7 , the Tarlow Tau-U method may fail to detect even high degrees of trend. For this reason, in case of significant results, we checked whether Tau-U effect sizes were maintained if a systemic baseline correction was used for phases of length of ≤ 7 (i.e., using a conservative and over-correcting approach correcting for even non-significant trends). The randomization test was performed with the ExPRT Package [15] using a within-cases comparisons of means, following a restricted Marscuilo-Busk procedure [10].

3. Results

The 3 participants included were males with at least 4 years' post middle cerebral artery ischemic stroke and presenting a right-sided hemiplegia, severe apraxia and severe communication disability due to aphasia (Aphasia Severity Rating Scale = 0 for all) but also due to executive dysfunction. All were under continuous intensive on-going speech therapy since their stroke

(2 to 4 sessions weekly). Other characteristics of the included participants, phase length and interventions order are in Table 2.

Procedural fidelity checklists indicated 83% correct implementation of the intervention. Inter-rater reliability of target behaviors was good (correlation of 0.92 for gesture scores and 0.94 for naming scores).

The gesture interventions improved the ability to gesture a list of words and increased nonverbal communication activity in all participants (Fig. 1 and Supplemental data 1). Active gesture intervention was more effective than the passive intervention for gestures in both participants who began with the passive gesture and for naming in participant 3 (see Fig. 2).

For participant 3, naming visual analyses (Fig. 2) suggested a non-monotonic trend toward improvement of baseline, and baseline correction seemed necessary, even if the trend was not detected as significant using the Tarlow method. Using the conservative baseline correction proposed by Tarlow, overall gesture intervention (passive + active interventions taken together) suggested a statistically significant inverse effect (i.e., worsening in performance [baseline corrected Tau-U = -0.479; SE = 0.259; $P = 0.009$]). The participant did not show worsened naming scores, as documented by increased level (i.e., mean scores of a phase, represented by the horizontal dotted line) between baseline and gesture intervention, but naming showed a more pronounced improvement during baseline than during gesture interventions. The 2 other participants did not show changes in naming (Supplemental data 2). Boston Diagnostic Aphasia Examination naming scores remained unchanged (0 for participant 1, 28–35 for participant 2, 66–72 for participant 3).

Overall, statistical tests using randomization tests showed that the combined effect of both gesture interventions tended to improve gesture expression abilities ($P = 0.067$) but not naming ability ($P = 0.53$). Gesture interventions improved the ability to gesture a list of words and increased nonverbal communication

Table 2
Characteristics of participants, phase length for each participant and intervention order.

	Participant 1	Participant 2	Participant 3
Age, years	65	71	43
Time since stroke, years	6	8.5	4
Aphasia Severity Rating Scale	0	0	0
BDAE naming score pre-intervention	0	33	72
Communication	Limited to 3 perseverative words, including "yes/no" code understandable only to familiar persons	Correct use of yes/no. Short sentences, with mainly perseverative non-functional content (e.g., "I know everything," repeated 20 times during each medical visit)	Some naming ability but no functional communication (perseverative use of single words), good nonverbal abilities (2 SD above data for severe aphasic patients; Fig. 1)
Deficits associated to the right-sided hemiplegia, severe apraxia and severe aphasia		Seizures Behavioral and cognitive dysexecutive syndrome (with severe apathy)	Behavioral and cognitive dysexecutive syndrome (with disinhibition and impulsivity)
Baseline (A) ^a			
Content	Aspecific time with therapist	Aspecific time with therapist	Aspecific time with therapist
Phase A length	10 sessions	14 sessions	12 sessions
Number of measurement points ^b	5	7	6
First specific intervention (B) ^a			
Content	Passive gesture intervention	Active gesture intervention	Passive gesture intervention
Phase B length	12 sessions	16 sessions	18 sessions
Number of measurement points ^b	6	8	9
Second specific intervention (C) ^a			
Content	Active gesture intervention	Passive gesture intervention	Active gesture intervention
Phase C length	16 sessions	10 sessions	16 sessions
Number of measurement points ^b	8	5	8

BDAE: Boston Diagnostic Aphasia Examination.

^a For clarity of statistical comparisons and because gesture interventions were applied in a randomized order (and therefore differed among patients), the letters A, B, C refer to the order in which phases are compared: A refers always to baseline, B the first specific intervention irrespective of its content and C the second specific intervention regardless of its content.

^b Target behaviors were measured every other intervention session.

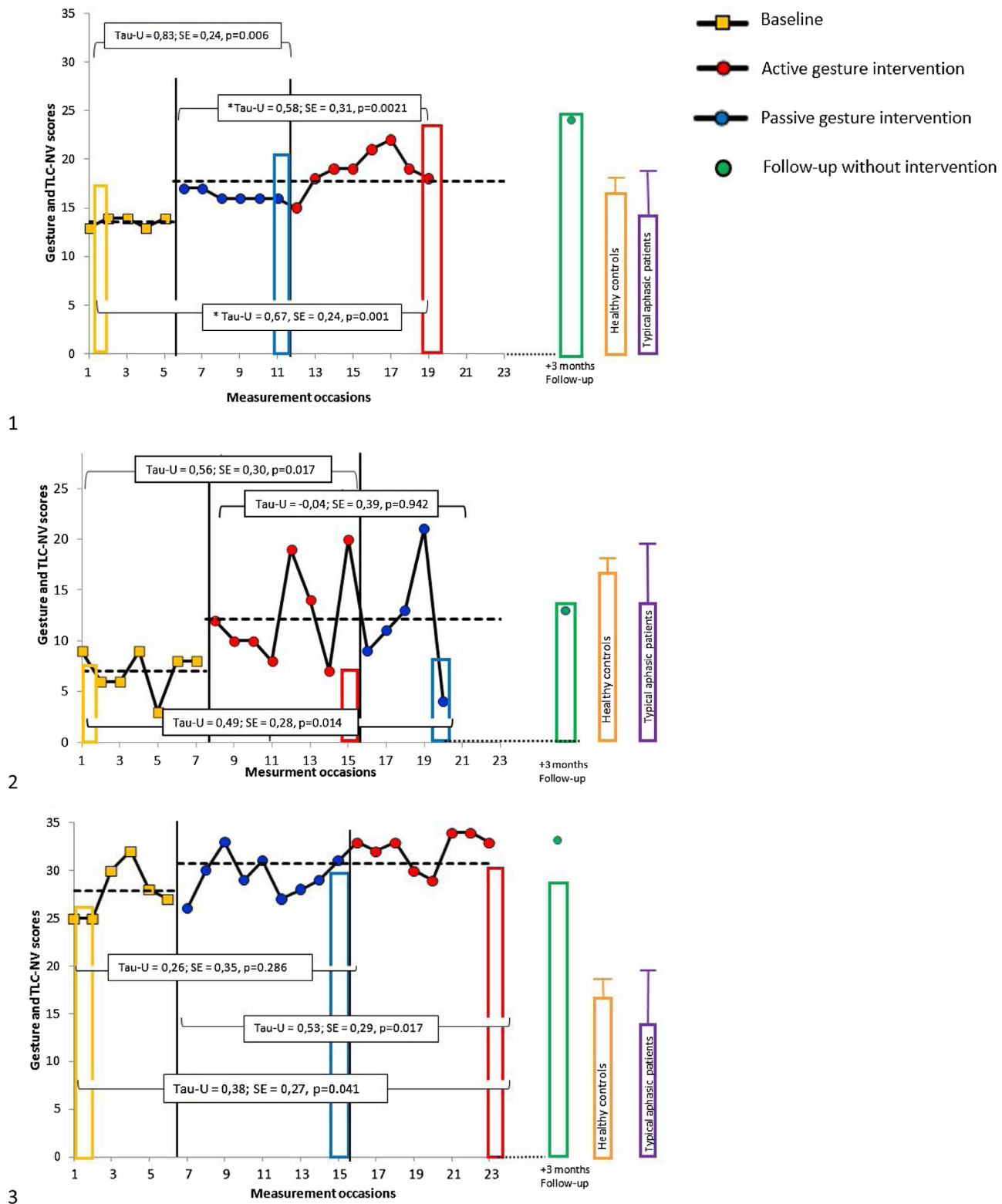


Fig. 1. Evolution of gesture and nonverbal communication scores over time, across participants and across phases. Colored squares and circles represent gesture raw scores. Rectangles represent the Lillois Test of Communication nonverbal subscale scores (TLC-NV): yellow, blue, red and green rectangles represent the nonverbal score of the three participants included in the study at baseline, after passive gesture intervention, after active gesture intervention and at follow-up; purple rectangles represent the typical nonverbal scores of a sample of severe aphasic patients based on Darrigrand et al. [13]; orange rectangles represent the typical nonverbal scores of healthy controls, extracted from LTC normative data. Error bars are 1 SD. Maximum gesture score is 36 and maximum LTC-NV score is 30. Vertical lines indicate phase changes (i.e., change in intervention content). Horizontal dotted lines represent mean scores of baseline and mean scores of combined gesture interventions.

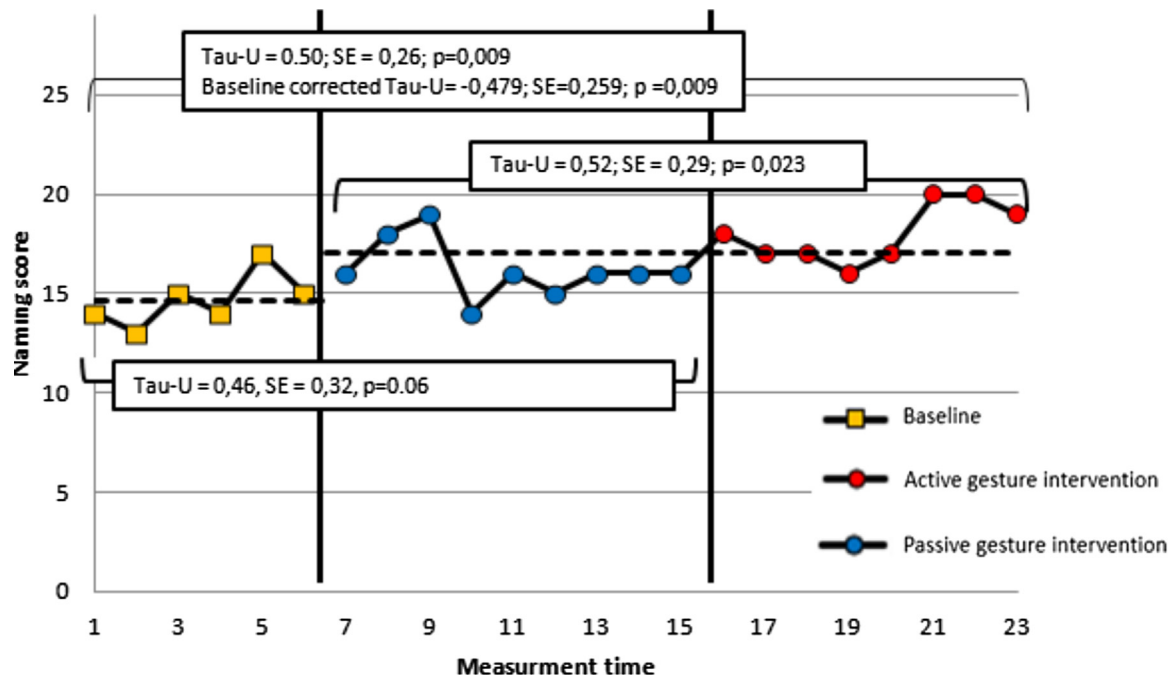


Fig. 2. Evolution of naming score across phases for participant 3.

activity (although the latter cannot be confirmed statistically because of the small number of measurement occasions related to LTC administration time: 90 min). Benefits were maintained at 3-month follow-up.

4. Discussion

To our knowledge, this is one of the few SCED studies that used:

- a controlled, double-blind design;
- with an adequate baseline and control for time with the therapist;
- that monitored treatment fidelity;
- adequate target behavior was explored for inter-rater reliability based on video recordings of participants, scored in random order.

This study meets all current standards for SCEDs [11]. Choosing phase length for a participant at random is recommended in SCEDs but is rarely done, but it considerably improves the methodological rigor of single-case research. The study limitation is that the Marsculio-Busk procedure may have had insufficient power [$k / (k-N) = 60$ possible permutations] to statistically show an intervention global effect by the statistical randomization test. Higher power would have been achieved if the design had allowed for randomly selecting longer baselines (i.e., longer than 10 measures), allowing more k possible starting points and therefore more permutations. However, in SCEDs, both the therapist and patient spending more time in baselines and less in the intervention is challenging. A future direction for SCED research could be to collect longer baselines while training the patient on another patient-relevant function unrelated to the intervention being tested. Here, the baseline was a non-specific time with the therapist, but it would have been better to use it for relevant training (e.g., attention, executive functioning training). Nonetheless, the SCED design was strong and shows the feasibility of conducting research with small samples, especially with patients who are often excluded from clinical trials because of the numerous associated

deficits even though they represent those most needing innovative effective interventions.

A number of statistical procedures are now available to interpret SCED data, but all have limitations. The presence of improvement trends in baseline scores is a major issue, as illustrated by participant 3's naming scores, which showed a more pronounced improvement during baseline than during passive gesture intervention. A reasonable interpretation of this result is that naming showed a practice effect that probably reached a ceiling by measurement time 9 (session 18), followed by a lack of further improvement with the gesture intervention. This finding suggests that the participant improved more with the non-specific baseline intervention content than with the gesture interventions. It raises the issue of improvements unrelated to intervention such as time spent with the therapist. Participant 3 was young, single and quite isolated (lived in a village and was unable to drive). Likely spending time with motivated young speech therapists played a more significant role in improving the participant's scores than the content of the intervention itself. In this study, time with the therapist was the same during all phases, which is a methodological strength and allowed for detecting this non-specific, statistically significant effect.

Nonverbal modalities may be used as verbal facilitators or learning enhancement to improve verbal communication or as a communication strategy to improve total communication [16]. The latter is supported by our study, because gesture scores and LTC nonverbal scores improved, whereas the former is supported by the results for participant 3 only for whom active gesture intervention showed significant gains in only naming. Previous research has shown that gesture training alone has non-significant effects on verbal production and should be combined with verbal training, which is probably why the intervention did not have the expected effect on naming [2].

Participants' ability to gesture words improved more with the active gesture intervention based on VAT as compared with watching mute films. All 3 participants had apraxia, which has been shown to predict the comprehensibility of gesturing regardless of aphasia severity [17]. Apraxia may have prevented participants from benefiting from the passive intervention, but the repetitive step-by-step use of gestures in VAT enabled learning of

gestures in the presence of apraxia. This suggestion supports growing evidence for the use of gesture in treating aphasia [16,18], use of gesture training protocols [2] (here VAT) and the need for intensive treatments (here weekly sessions) [1]. However, to achieve better results, other modalities of training (e.g., drawing, music) should be included. On-going studies should confirm that multimodal approaches (as opposed to Constraint-Induced Aphasia Therapy limited to spoken modality) are the most effective for patients with severe aphasia [18].

Participant 1, who had started with the passive intervention, showed improved gesture scores and nonverbal communication just by watching movies, although this improved further with VAT. Watching mute films, which use intensive nonverbal communication, may constitute a useful add-on to speech therapy for aphasia, because movies allow for more ecological use of communication (as opposed to VAT, which requires more artificial imitation of gestures). Generalization to spontaneous discourse is a major challenge in aphasia rehabilitation [2]. The use of films may enhance this generalization because it is closer to the natural situations of communication, which is key in gesture treatments [19]. Future studies could explore the effectiveness of this approach as an add-on to speech therapy.

Improving naming in severe and chronic aphasia may not always be feasible, and more effort could be devoted to improving gesture-based compensatory communication and nonverbal aspects of communication.

Disclosure of interest

The authors declare that they have no competing interest.

Acknowledgements

We thank Alison Potok from University of California San Diego for feedback on the final version of this paper.

Appendix A. Supplementary data

Supplementary data associated with this article can be found, in the online version, at <https://doi.org/10.1016/j.rehab.2019.12.010>.

References

- [1] Brady MC, Kelly H, Godwin J, Enderby P, Campbell P. Speech and language therapy for aphasia following stroke. *Cochrane Database Syst Rev* 2016;CD000425. <http://dx.doi.org/10.1002/14651858.CD000425.pub4>.
- [2] Rose ML, Raymer AM, Lanyon LE, Attard MC. A systematic review of gesture treatments for post-stroke aphasia. *Aphasiology* 2013;27:1090–127.
- [3] Sekine K, Rose ML, Foster AM, Attard MC, Lanyon LE. Gesture production patterns in aphasic discourse: in-depth description and preliminary predictions. *Aphasiology* 2013;27:1031–49.
- [4] Rose ML, Mok Z, Sekine K. Communicative effectiveness of pantomime gesture in people with aphasia. *Int J Lang Commun Disord* 2017;52:227–37.
- [5] de Beer C, et al. How much information do people with aphasia convey via gesture? *Am J Speech Lang Pathol* 2017;26:483–97.
- [6] Hogrefe K, Ziegler W, Weidinger N, Goldenberg G. Comprehensibility and neural substrate of communicative gestures in severe aphasia. *Brain Lang* 2017;171:62–71.
- [7] Helm-Estabrooks N, Fitzpatrick PM, Barresi B. Visual action therapy for global aphasia. *J Speech Hear Disord* 1982;47:385–9.
- [8] Ertelt D, Binkofski F. Action observation as a tool for neurorehabilitation to moderate motor deficits and aphasia following stroke. *Neural Regen Res* 2012;7:2063–74.
- [9] Bonifazi S, et al. Action observation as a useful approach for enhancing recovery of verb production: new evidence from aphasia. *Eur J Phys Rehabil Med* 2013;49:473–81.
- [10] Levin JR, Ferron JM, Gafurov BS. Comparison of randomization-test procedures for single-case multiple-baseline designs. *Dev Neurorehabilitation* 2016;0:1–21.
- [11] Tate RL, et al. Revision of a method quality rating scale for single-case experimental designs and n-of-1 trials: the 15-item Risk of Bias in N-of-1 Trials (RoBiNT) Scale. *Neuropsychol Rehabil* 2013;23:619–38.
- [12] Rousseaux M, Daveluy W, Kozłowski O. Communication in conversation in stroke patients. *J Neurol* 2010;257:1099–107.
- [13] Darrigrand B, et al. Communication impairment and activity limitation in stroke patients with severe aphasia. *Disabil Rehabil* 2011;33:1169–78.
- [14] Tarlow KR. An improved rank correlation effect size statistic for single-case designs: baseline corrected Tau. *Behav Modif* 2017;41:427–67.
- [15] Gafurov BS, Levin JR. ExPRT (Excel Package of Randomisation Tests): statistical analyses of single-case intervention data; 2017.
- [16] Pierce JE, O'Halloran R, Togher L, Rose ML. What is meant by 'multimodal therapy' for aphasia? *Am J Speech Lang Pathol* 2019;28:706–16.
- [17] Hogrefe K, Ziegler W, Weidinger N, Goldenberg G. Non-verbal communication in severe aphasia: influence of aphasia, apraxia, or semantic processing? *Cortex J Devoted Study Nerv Syst Behav* 2012;48:952–62.
- [18] Rose ML, et al. Constraint-induced or multi-modal personalized aphasia rehabilitation (COMPARE): a randomized controlled trial for stroke-related chronic aphasia. *Int J Stroke* 2019. <http://dx.doi.org/10.1177/1747493019870401> [Epub 2019 Sep 7, 1747493019870401].
- [19] de Ruiter JP, de Beer C. A critical evaluation of models of gesture and speech production for understanding gesture in aphasia. *Aphasiology* 2013;27:1015–30.