

Novembre 2019

La recherche française sur le polyhandicap : éléments d'état des lieux et perspectives de développement

Synthèse des travaux menés à l'IReSP en 2018 et 2019 dans le cadre de l'axe recherche du volet polyhandicap de la Stratégie quinquennale d'évolution de l'offre médico-sociale, relatif à la mise en place d'un consortium de recherche (fiche action 22) et à la préfiguration d'une cohorte de personnes polyhandicapées pour la recherche (fiche action 23)



Hommage

Le docteur Elisabeth Zucman, activiste pionnière de la cause des personnes polyhandicapées, nous a quittés dans la nuit du 13 au 14 septembre dernier. Elle a consacré sa vie et sa formidable énergie à l'amélioration de la condition des personnes polyhandicapées et de leurs familles. Confrontée au dénuement des proches, elle a activement participé à l'élaboration à la fin des années 60 d'un système de prise en charge embrassant tout à la fois les dimensions sociale et sanitaire de l'accompagnement.

Nous tenons ici à saluer sa mémoire et son engagement au long cours ; elle a participé à l'élaboration de cet axe recherche du volet polyhandicap et tenait encore le rôle de grand témoin lors du séminaire de restitution en juin dernier.

Assurément, sa disparition invite à porter un regard plein d'espérance sur le chemin déjà parcouru et sur les grands chantiers à poursuivre.

Sommaire

Introduction générale.....	5
1Le polyhandicap : la construction française d'un champ d'action publique et de recherche.....	9
1.1 Le polyhandicap : une catégorie spécifiquement française et un appel continu à la recherche pour la légitimer.....	9
1.2 Interroger l'opportunité d'une recherche spécifique sur le polyhandicap	11
1.3 Discussion : la recherche française sur le polyhandicap, quelle maturité ?	12
2Regards sur le positionnement et sur la visibilité de la recherche française sur le polyhandicap.....	15
2.1 Méthodologie du travail à partir de la base <i>Web of Science</i>	15
2.2 Les résultats de l'étude bibliométrique dans le <i>Web of Science</i>	16
2.3 Une autre littérature francophone	26
2.4 Discussion : éléments de bilan et pistes d'action	27
3Quelles priorités de recherche pour le polyhandicap ?	29
3.1 Les questions transversales au champ de la recherche sur le polyhandicap : quels besoins de recherche ?	30
3.2 Les besoins de recherche par clés d'entrée thématiques	39
4Tour d'horizon des données disponibles ou à venir sur le polyhandicap..	47
4.1 Le repérage des situations de polyhandicap dans les données internationales.....	48
4.2 Le repérage des situations de polyhandicap dans les données françaises.....	49
4.3 Discussions : l'existence de données partielles, dispersées et difficilement exploitables par la recherche sur le polyhandicap	65

5 Réflexion sur l'opportunité de la mise en œuvre d'une cohorte de personnes polyhandicapées	69
5.1 Quel projet de cohorte « polyhandicap » ?.....	69
5.2 Monter un projet de cohorte : prérequis, difficultés et points de vigilance	73
Conclusion.....	75
Annexes	77
Annexe 1 – Composition du groupe de travail chargé de la réalisation de l'état des lieux de la recherche sur le polyhandicap en France	77
Annexe 2 – Programme de travail du groupe de travail chargé de la réalisation de l'état des lieux de la recherche sur le polyhandicap en France et liste des intervenants par thématique ..	78
Annexe 3 – Composition du groupe de travail chargé de l'étude d'opportunité d'une cohorte de personnes polyhandicapées	80
Annexe 4 – Listes des documentalistes ayant pris part aux travaux au cours d'une séance de travail sur les ressources documentaires sur le polyhandicap	81
Annexe 5 – Liste des documents annexes à ce rapport	82

Introduction générale

Dans le cadre de la stratégie quinquennale de l'évolution de l'offre médico-sociale (2017-2022) annoncée le 19 mai 2018 à l'occasion de la Conférence nationale du handicap, un volet polyhandicap a défini les priorités d'action de l'État pour améliorer l'accompagnement et la qualité de vie des personnes polyhandicapées. Ce volet est le résultat d'un travail collectif qui a associé l'ensemble des parties prenantes et qui a permis d'identifier quatre axes stratégiques :

- > axe stratégique 1 : accompagner en proximité en assurant la continuité des parcours de vie et de soins ;
- > axe stratégique 2 : renforcer et valoriser l'expertise de l'accompagnement du polyhandicap ;
- > axe stratégique 3 : promouvoir la citoyenneté, la participation et l'accès aux droits des personnes en situation de polyhandicap ;
- > axe stratégique 4 : outiller et développer la recherche sur le polyhandicap.

Ainsi, le développement de la recherche sur le polyhandicap constitue un des axes prioritaires d'action, les travaux préliminaires à l'écriture du volet polyhandicap ayant révélé que des chercheurs avaient bien investi ce champ de recherche en France, mais que, pour autant, de nombreux besoins subsistaient, parmi lesquels :

- > un besoin de synthèse ;
- > un besoin de connaissance des bonnes pratiques à l'étranger ;
- > un besoin de coordination et de partage des travaux ;
- > un besoin de données ;
- > un besoin d'approches pluridisciplinaires.

Pour répondre à ces besoins identifiés par l'ensemble des parties prenantes, cinq actions prioritaires ont été retenues au titre de l'axe stratégique dédié à la recherche :

- > créer un consortium de recherche sur le polyhandicap ;
- > préfigurer une cohorte de personnes polyhandicapées pour la recherche ;
- > lancer des appels à projets de recherche sur le polyhandicap¹ ;
- > réaliser une expertise collective INSERM (Institut national de la santé et de la recherche médicale sur le polyhandicap)² ;
- > organiser des voyages d'études à l'étranger³.

¹ Dans le cadre du programme « Handicap et perte d'autonomie » financé par la CNSA, l'Institut de recherche en santé publique (IReSP) a lancé le 31 janvier 2019 un appel à projets « Polyhandicap », dont les lauréats seront connus à la fin de l'année 2019.

² Le pôle Expertises collectives de l'Institut national de la santé et de la recherche médicale (INSERM) devrait commencer l'expertise collective à l'automne 2019.

³ Des voyages d'études ont été organisés dans le cadre de l'appel à projets « Et nos voisins européens, comment font-ils ? » lancé par la CNSA en 2017. [Les rapports finaux de ces voyages d'études sont disponibles sur le site de la CNSA.](#)

En partant de ce programme de travail, l'Institut de recherche en santé publique (IReSP) a proposé de mettre en place deux groupes de travail : un premier pour dresser l'état des lieux de la recherche sur le polyhandicap en France (groupe de travail « recherche ») et un second chargé de porter une réflexion collégiale sur l'opportunité d'une infrastructure de recherche de type cohorte pour développer les connaissances sur le polyhandicap (groupe de travail « cohorte »). Ce sont les principaux enseignements de ces deux démarches de réflexion partagée qui sont restitués dans le présent rapport. L'ensemble de ces travaux a notamment permis la définition d'un appel à projets de recherche.

Fonctionnement des groupes de travail

Les objectifs fixés au consortium de recherche (ou groupe de travail « recherche ») étaient de réfléchir aux moyens de structurer et de développer la recherche sur le polyhandicap dans toutes ses composantes – recherche biomédicale, sciences humaines et sociales, sciences technologiques et informatiques – et d'assurer une meilleure diffusion de la recherche au sein du monde académique et auprès des parties prenantes (personnes concernées, professionnels et familles). Pour avancer dans ce sens, le groupe de travail mis en place à l'IReSP a été placé sous la responsabilité scientifique de Régine Scelles (professeure de psychopathologie à l'université de Nanterre) et de Thierry Billette de Villemeur (professeur des universités-praticien hospitalier – PU-PH – en neuropédiatrie à l'Assistance publique-Hôpitaux de Paris – AP-HP). Avec le support de l'IReSP, ils ont tous deux animé des séances de réflexion et d'échange thématiques ou méthodologiques afin de partager des constats sur les forces et faiblesses de la recherche sur le polyhandicap en France et d'identifier des pistes de développement de cette recherche.

Le groupe de travail pluridisciplinaire de chercheurs et d'acteurs associatifs qui ont participé activement à l'ensemble des séances était composé de Frédéric Blondel, Anne-Marie Boutin, Yanis Constantinides, Gérard Courtois, Sabine Delzescaux, Alexandre Duropt, Alain Paraponaris et Joël Roy (voir l'annexe 1). Isabelle Raynaud puis Gaylord Boussaud, chargés de mission à l'IReSP, ont assuré le support technique de ces séances (organisation, préparation documentaire, comptes rendus). La liste des personnes auditionnées qui ont nourri ces échanges se trouve en annexe de ce rapport (voir l'annexe 2). Enfin, une analyse de la diffusion des publications scientifiques ou professionnelles sur le polyhandicap a été produite grâce au concours du département d'évaluation et de suivi des programmes (DESP) de l'INSERM chargé des études bibliométriques sous la responsabilité d'Elizabeth Adjadj, ainsi que d'institutions spécialisées.

L'émergence des réflexions autour d'une infrastructure de recherche sous la forme d'une cohorte pour développer les connaissances sur le polyhandicap tient à l'évolutivité des situations de polyhandicap et à la nécessité de décrire ces situations selon de nombreuses dimensions : fonctionnelles, médicales, sociales, de prise en charge... Pour évaluer l'opportunité d'une cohorte de personnes polyhandicapées à des fins de recherche, un autre groupe de travail (groupe de travail « cohorte ») a été chargé de documenter l'existence ou non de tels dispositifs ou d'un recueil systématique de données non spécifiques au polyhandicap pouvant être utiles et répondre aux besoins de recherche identifiés par les acteurs du champ (et notamment par le groupe « recherche », que ce soit en France ou à l'international). Il s'est notamment agi de recenser les données immédiatement disponibles ou celles à venir dans la perspective du Système national des données de santé (SNDS). Placé sous la responsabilité scientifique de Pascal Auquier (PU-PH en santé publique, Assistance publique-Hôpitaux de Marseille – AP-HM), il a réuni Murielle Bègue, Thierry Billette de Villemeur, Cyrille Delpierre, Jean-Claude K. Dupont, Yann Mikaeloff, Marie-Christine Rousseau et Régine Scelles et a pu bénéficier du travail de Mariem Raho, chargée de mission à l'IReSP (voir l'annexe 3).

La Caisse nationale de solidarité pour l'autonomie (CNSA) a rendu possibles ces travaux par son concours financier. Sa Direction scientifique a suivi les groupes de travail, et Claudia Marquet (chargée de mission recherche à la Direction scientifique) a constitué le présent rapport en mettant en cohérence les différentes contributions écrites et les constats partagés au cours des travaux des groupes de travail, en approfondissant l'analyse des sources de données et en mettant en relief les différents éléments de conclusion.

Ce rapport restitue donc les travaux conduits à l'IReSP en 2018 et 2019. Il a principalement un objectif de synthèse pour clore ce premier cycle de réflexion sur la recherche sur le polyhandicap.

À noter qu'il a fait l'objet, dans une version de travail, d'une discussion ouverte lors d'une demi-journée de présentation sous forme de synthèse le 28 juin 2019 en présence de l'ensemble des personnes ayant participé aux travaux ou associées à l'axe « recherche » du volet polyhandicap ayant pu se rendre disponible. Nous tenons ici à toutes et tous les remercier, ainsi que les intervenants, pour leur présence, la qualité de leurs interventions et de leurs réactions, riches, qui assurément ont permis de finaliser le présent rapport.

Plan du rapport

Avant toute chose, nous souhaitons indiquer au lecteur que ce rapport peut faire l'objet d'une double stratégie de lecture. Bien entendu, nous l'invitons à le parcourir dans son intégralité ; mais un lecteur plus informé des sujets traités pourra s'il le souhaite approfondir sa lecture sur une partie ou sur une autre, celles-ci étant en partie indépendantes.

Il nous a paru nécessaire de revenir rapidement dans une première partie sur la difficile caractérisation du polyhandicap selon le cadre d'action considéré. Le polyhandicap est tout à la fois une catégorie d'action publique et un objet de recherche : comment la recherche française peut-elle se positionner en référence à cette catégorie d'action ?

Sont ensuite présentés en partie 2 les travaux du DESP de l'INSERM chargé des études bibliométriques et les constats posés par les services de documentation spécialisés. Dans l'attente de l'expertise collective à venir, ils donnent un aperçu de la visibilité de la recherche française sur le polyhandicap à l'international.

Partant des enseignements de la bibliométrie, le travail de synthèse de l'état des lieux de la recherche française sur le polyhandicap en sciences humaines et sociales (SHS), fruit du groupe de travail « recherche », est ensuite exposé en partie 3. Ce travail a conduit à l'identification de besoins de recherche prioritaires.

La restitution des travaux conduits à l'IReSP se poursuit (partie 4) par l'étude des données disponibles permettant de qualifier les situations de polyhandicap à domicile, en établissement et en soins de suite et de réadaptation (SSR). Un bref détour par les données disponibles à l'international permet de donner du relief aux différentes conclusions. La difficulté de dénombrer ces situations, de qualifier les soins reçus (volet sanitaire et médico-social) et de documenter des profils fonctionnels est exposée.

L'ensemble de ces constats sur les données et sur les besoins de connaissance ont nourri la réflexion du groupe de travail « cohorte » qui s'est réuni pour traiter de l'opportunité de la mise en place d'une cohorte de personnes polyhandicapées. Cette réflexion est restituée en dernière partie et ouvre des pistes de *design* pour une infrastructure de recherche.

Le lecteur trouvera en annexe la liste des documents annexes à ce rapport, fruit de tout le travail préparatoire qui l'a rendu possible (revue de littérature, rapport intermédiaire, document de travail...).

1 Le polyhandicap : la construction française d'un champ d'action publique et de recherche

L'existence d'un volet polyhandicap dans la Stratégie quinquennale d'évolution de l'offre médico-sociale distingue une catégorie spécifique d'action publique dans le champ des politiques du handicap qui mérite que l'on s'y attarde un instant en interrogeant ses conditions d'émergence. Cette nouvelle mise à l'agenda du polyhandicap s'inscrit dans une histoire de plusieurs décennies très bien étudiée par M. Wynance et L. Bertrand⁴. L'objectif n'est pas de retracer ici cette histoire, mais de la poser comme un élément contextuel important de la réflexion sur la recherche.

En effet, les travaux des groupes (recherche et cohorte) ou de bibliométrie ont très souvent insisté ou achoppé sur le caractère très singulier de l'approche française. Sans prétendre expliciter l'ensemble des tenants et aboutissants de cette « approche française », il est important de la décrire à grands traits en préambule d'une réflexion sur les perspectives de recherche.

1.1 Le polyhandicap : une catégorie spécifiquement française et un appel continu à la recherche pour la légitimer

Les termes de plurihandicap, multihandicap, surhandicap, handicap rare ou polyhandicap sont parfois utilisés pour qualifier une diversité de situations de handicaps complexes, caractérisées par des tableaux cliniques très sévères, brouillant ainsi les frontières de ce que chacun de ces termes recoupe et rendant problématique leur prise en charge.

Associations, unions et fédérations ont de longue date porté un discours visant à faire reconnaître la spécificité des besoins, notamment en matière d'accompagnement, des personnes polyhandicapées.

Ce terme apparaît pour la première fois dans la littérature grise dans les années 60 avant d'être consacré par la publication d'un article sur la guidance parentale par Elisabeth Zucman en 1969⁵. C'est en 1979 que les termes de plurihandicap, de surhandicap et de polyhandicap sont précisés (Salbreux, *et al.*⁶) en insistant sur le caractère circonstanciel de l'association de deux déficiences n'entraînant pas de lien de cause à effet entre elles pour le plurihandicap, sur la surcharge progressive d'une déficience par rapport à une autre pour le surhandicap et sur une situation de handicap sévère à expressions multiples avec restriction extrême de l'autonomie pour le polyhandicap.

Un rapport publié en 1985⁷ par le Centre technique national d'études et de recherches sur les handicaps et les inadaptations (CTNERHI) affine la définition du polyhandicap, participant de sa reconnaissance officielle : le polyhandicap suppose des lésions cérébrales majeures et diffuses, une altération mentale sévère ou profonde s'accompagnant d'une infirmité motrice cérébrale et la présence de déficiences associées (comitialité, déficience sensorielle, troubles respiratoires...).

⁴Dans le cadre du programme « Handicap et perte d'autonomie » financé par la CNSA, l'IReSP a financé en 2012 (AAP Handicaps rares) le projet de Miriam Wynance et de Louis Bertrand intitulé *Entre logique de places et logique de soin spécialisé. L'évolution du secteur médico-social, dans le champ du handicap, à travers l'usage de deux catégories : « polyhandicap » et « handicap rare »*. 1960-2014.

⁵ Zucman E. « La guidance parentale », *Réadaptation*, 1969.

⁶ Salbreux R., Deniaud J.-M., Tomkiewicz S., Manciaux M. « Typologie et prévalence des handicaps sévères et multiples dans une population d'enfants. Premiers résultats de l'enquête épidémiologique sur les inadaptations sévères dans la population juvénile de la région parisienne », *Neuropsychiatrie de l'enfance*, 1979.

⁷ Zucman E., Spinga J.-A. *Les enfants atteints de handicaps associés : les multihandicapés*, PUF, 1985.

En 1993, poursuivant ses travaux, le CTNERHI propose une nouvelle définition du polyhandicap comme étant une « association de déficiences graves avec retard mental moyen, sévère ou profond (QI inférieur à 50) entraînant une dépendance importante à l'égard d'une aide humaine et technique permanente, proche et individualisée. »

C'est enfin en 2002 que le groupe Polyhandicap France (GPF) propose une définition qui se veut plus complète. Le polyhandicap est « une situation de vie spécifique d'une personne présentant un dysfonctionnement cérébral précoce, ou survenu en cours de développement, ayant pour conséquence de graves perturbations à expressions multiples et évolutives de l'efficacité motrice, perceptive, cognitive et de la construction des relations avec l'environnement physique et humain. Il s'agit d'une situation évolutive d'extrême vulnérabilité physique, psychique et sociale au cours de laquelle certaines de ces personnes peuvent présenter de manière transitoire ou durable des signes de la série autistique. » Avec cette définition, le caractère précoce de l'atteinte encéphalique est affirmé.

Le décret n° 2017-982 du 9 mai 2017 relatif à la nomenclature des établissements et services médico-sociaux (ESMS) accompagnant des personnes handicapées ou malades chroniques reprend en grande partie cette définition du GPF : « personnes polyhandicapées, présentant un dysfonctionnement cérébral précoce ou survenu au cours du développement, ayant pour conséquence de graves perturbations à expressions multiples et évolutives de l'efficacité motrice, perceptive, cognitive et de la construction des relations avec l'environnement physique et humain, et une situation évolutive d'extrême vulnérabilité physique, psychique et sociale au cours de laquelle certaines de ces personnes peuvent présenter, de manière transitoire ou durable, des signes de la série autistique ».

Il en résulte que les politiques de santé et les politiques du handicap se sont en partie construites autour de cette reconnaissance de la spécificité des besoins de prise en charge sanitaire et médico-sociale de cette population aux frontières mouvantes au cours du temps. En effet, en même temps que la recherche avance et permet d'apporter des connaissances plus nombreuses sur cette population, il s'agit de la définir avec plus de précision et ainsi de restreindre la population cible. L'introduction du caractère précoce de la lésion comme définissant une situation de polyhandicap entendue au sens strict en est un bon exemple, tout comme l'introduction de critères qui visent à qualifier le caractère profond de la déficience intellectuelle (QI inférieur à 30).

Les acteurs de la construction de cette catégorie « polyhandicap » en tant que catégorie d'action publique ont toujours été des acteurs en contact avec les personnes polyhandicapées. Ils ont très tôt mobilisé les leviers de la connaissance scientifique et épidémiologique pour justifier cette catégorie : en témoigne l'existence d'un axe recherche dans le volet polyhandicap de la stratégie quinquennale d'évolution de l'offre médico-sociale. Ce sont les acteurs de terrain – familles, médecins et professionnels de l'accompagnement – qui, de façon originale dans le champ du handicap, en appellent à la science pour étayer l'action publique.

Il semble donc y avoir un relatif consensus au sein de cette communauté de personnes, d'organisations et d'institutions concernées par le polyhandicap pour tout à la fois faire du polyhandicap une situation de handicap à part et réclamer des travaux de recherche spécifiquement centrés sur cette situation.

1.2 Interroger l'opportunité d'une recherche spécifique sur le polyhandicap

L'approche française du polyhandicap est très cohérente : elle fait valoir le caractère singulier de cette situation de handicap qui appelle des réponses spécifiques en matière d'accompagnement et des réponses institutionnelles. Cependant, cette catégorie d'action n'a pas son équivalent au niveau international. Se pose alors la question de l'intérêt de fixer des objectifs de recherche strictement sur ces situations dans un contexte de recherche internationale qui ne les distingue pas de façon aussi fine. Le polyhandicap n'est pas un objet de recherche partagé internationalement.

La recherche médicale et la recherche relative à la clinique « médico-sociale » internationales paraissent être centrées sur d'autres entrées populationnelles.

Elles portent principalement sur les *profound intellectual and multiple disabilities (PIMD)*. Ce terme désigne des personnes pour lesquelles il n'est pas possible de définir un niveau intellectuel par des tests standardisés, qui n'ont que peu ou pas accès aux interactions d'ordre symbolique ou à la compréhension du langage verbal, qui présentent un risque élevé de complications liées à leur état de santé allant de pair avec une forte médication, qui présentent par ailleurs des comportements excessifs (stéréotypés) et qui ont un risque de mortalité précoce important. Compte tenu de la diversité des situations concernées, certains auteurs préfèrent parler de *PIMD spectrum*.

Un autre champ de recherche actif porte lui sur les paralysies cérébrales (*cerebral palsy*) qui intègrent tout autant les infirmités motrices cérébrales (IMC), à savoir une déficience motrice associée ou non à une déficience intellectuelle légère, que les infirmités motrices d'origine cérébrale (IMOC), à savoir l'association d'une déficience motrice et d'une déficience intellectuelle moyenne, et le polyhandicap.

Enfin, le Japon comme la France semble avoir défini un champ de recherche calé sur un champ d'action publique et parle de *SIMD (severe motor and intellectual disabilities)*.

Pour la partie de la recherche qui vise très directement le soin, l'accompagnement, l'éducation et les apprentissages et la communication, le positionnement atypique de la recherche française est donc porteur de risques en termes de reconnaissance ou de visibilité. Un tel constat ne doit pas délégitimer cette approche, mais appelle une réflexion sur les stratégies de recherche et de publication.

Pour la partie de la recherche non clinique ou non interventionnelle, notamment en sciences humaines et sociales, le positionnement de la recherche sur le polyhandicap soulève des questions différentes : en quoi est-il intéressant de singulariser cette forme de handicap ? Est-ce pertinent pour toutes les questions de recherche ou, au contraire, faut-il pour certains champs ou objets de recherche travailler sur des situations plus transverses, comme le handicap en général, la grande dépendance, quelle que soit son étiologie, ou la vulnérabilité ?

À cet égard, l'expertise collective Handicaps rares de l'INSERM publiée en 2013⁸ insiste bien sur le fait que les situations de polyhandicap sévère représentent un défi d'envergure : « reconnaître l'Autre et son humanité, et ce, malgré ses déficiences profondes. » Ce sont là des situations qui réinterrogent des pratiques d'accompagnement et de prise en charge éprouvées.

⁸ [Handicaps rares – Contextes, enjeux et perspectives, disponible sur le site internet de l'INSERM.](#)

Certes, la question de la prise en charge de la grande dépendance se pose au-delà des situations de polyhandicap – on pense aux maladies neurodégénératives qui aboutissent à des situations similaires d'absence totale d'autonomie, mais c'est bien l'intrication des déficiences qui caractérise le polyhandicap et qui vient tout changer.

La sévérité du tableau clinique naît de la précocité de la lésion cérébrale. Les processus habituels d'apprentissage sont rendus impossibles ; les lésions se constituent sur des aires cérébrales en pleine maturation entraînant un processus de développement autre. Il n'est pas possible dans l'organisation de la prise en charge de se reposer sur de quelconques acquisitions.

Le polyhandicap est donc l'une des formes « limite » du handicap ; il permet de questionner ses définitions mêmes, les façons de le définir socialement et politiquement, les façons dont les solidarités institutionnelles ou familiales s'expriment en théorie et en pratique, la notion de citoyenneté et de participation sociale... Dans cette optique, la recherche sur le polyhandicap peut nourrir une recherche critique sur le champ plus large du handicap.

1.3 Discussion : la recherche française sur le polyhandicap, quelle maturité ?

L'émergence de la terminologie spécifique de polyhandicap a répondu à un besoin de qualifier des tableaux cliniques exclus du système de prise en charge médico-social parce que trop complexes et ne relevant donc pas des nomenclatures alors usitées ; nous sommes là dans les années 60. La reconnaissance des besoins spécifiques de cette population s'est faite par l'introduction d'une nouvelle catégorie d'action publique, qui a permis au secteur de se structurer et aux familles de trouver des réponses en matière d'accompagnement de leurs proches. Pour que des actions ciblées puissent se mettre en place, il était donc nécessaire de se doter d'un vocable spécifique.

Or, l'usage par les acteurs de la recherche de ce même vocable peut être interrogé.

Autrement dit, alors que le polyhandicap désignait originellement une population en lien avec une offre de soin qui ne la prenait pas en charge – les personnes polyhandicapées en étaient les « exclues » – progressivement, le terme est utilisé pour qualifier un ensemble populationnel que l'on cherche à homogénéiser ; d'une définition large et contextuelle du polyhandicap, on arrive à une définition populationnelle stricte reprise telle quelle par les chercheurs en France dans leurs travaux.

Une telle démarche peut être pertinente dans les premiers temps d'émergence et de structuration d'une communauté de recherche autour d'un objet à construire en lien, dans le champ du polyhandicap, avec les acteurs de terrain : il existe un fort besoin de savoir de qui l'on parle. On constate ainsi qu'une part importante de la recherche française sur le polyhandicap, notamment en sciences humaines et sociales, est « commandée » par les acteurs de terrain. Mais est-ce d'une définition issue du terrain, répondant à des objectifs pratiques de structuration de l'offre, que la recherche a besoin pour se structurer ?

Très vite la recherche peut se retrouver bloquée dans un enfermement catégoriel alors même que les questions et les enjeux peuvent être transverses. Il peut être nécessaire de faire des ponts entre la recherche sur le polyhandicap et la recherche prenant pour objet la perte d'autonomie au sens large, mais également entre la recherche française sur le polyhandicap et la recherche internationale dans ce champ, qui s'est dotée d'un autre vocable pour désigner des situations tout aussi complexes.

La question reste donc de savoir à quel stade de maturité la recherche française sur le polyhandicap en est arrivée. Est-il possible, compte tenu des connaissances accumulées ces dernières années, de s'ouvrir aux définitions internationales qualifiant les situations de dépendance extrême et, au gré des comparaisons, de questionner l'intérêt de l'approche française et, le cas échéant, de la promouvoir à l'international ? Ou au contraire la recherche française doit-elle encore prendre le temps d'un questionnement spécifique du polyhandicap, tout à la fois objet de recherche et catégorie d'action publique ? L'enjeu est-il le même dans toutes les disciplines ?

Ce qu'il faut retenir

Un rapport du CTNERHI consacre officiellement en 1985 le terme de « polyhandicap » en vue d'une organisation de la prise en charge spécifique à cette population (isolée du reste de la population en situation de handicap), qui devient un axe à part entière de l'action publique en France. Cette définition relativement restrictive du polyhandicap, justifiée pour l'action par la nature et l'intensité de l'aide et de soin requises, est à interroger pour la recherche. Elle comporte peut-être le risque d'une recherche à part, peu reconnue sur la scène internationale ou insuffisamment en dialogue avec d'autres recherches sur le handicap. Autrement dit, la recherche sur le polyhandicap doit-elle, pour se structurer, s'en tenir à la définition légale du polyhandicap ?

2 Regards sur le positionnement et sur la visibilité de la recherche française sur le polyhandicap

L'objectif ici n'est pas de produire une revue de la littérature sur le polyhandicap, mais de faire une analyse du positionnement de la recherche française sur le polyhandicap à partir d'indicateurs bibliométriques issus d'une exploitation de la base de données *Web of Science*, d'une part, et du portail Cairn, d'autre part. L'expertise collective de l'INSERM a pour mission d'approfondir ces travaux et surtout d'expertiser le contenu des publications. Il s'agit ici de présenter des premiers éléments de réponse quant au positionnement de la recherche française.

Les travaux bibliométriques ont été réalisés par le département d'évaluation et de suivi des programmes (DESP) de l'INSERM. Une séance de travail avec les documentalistes du Centre de ressources multihandicap (CRM), de l'Institut national supérieur de formation et de recherche pour l'éducation des jeunes handicapés et l'enseignement adapté (INSHEA), de l'École des hautes études en santé publiques (EHESP), du Comité d'étude, d'éducation et de soins auprès de la personne polyhandicapée (CESAP) et de l'Association des paralysés de France (APF) a permis de compléter l'analyse sur la littérature grise (voir l'annexe 4).

2.1 Méthodologie du travail à partir de la base *Web of Science*

Le *Web of Science* est la base en ligne de données bibliographiques de référence à l'échelle internationale. Les productions scientifiques y sont répertoriées en 22 grands domaines et 251 thématiques selon leurs revues de publication. Référençant un contenu presque exclusivement en anglais (plus de 95 %), le *Web of Science* indexe les publications de plus de 13 000 revues académiques, mais également des contributions d'actes de colloques et de conférences (plus de 180 000 actes). Les références, notamment les titres et résumés des documents, sont indiquées en anglais même lorsqu'il s'agit de textes publiés dans une autre langue.

Une fois les données extraites du *Web of Science* sur la base d'une « requête », il est possible de réaliser une analyse bibliométrique, c'est-à-dire de produire des indicateurs quantitatifs pour mesurer et situer la production scientifique des chercheurs et des structures de recherche à l'échelle nationale et/ou internationale. Ces indicateurs sont restitués sous la forme de « figures » obtenues grâce aux logiciels VosViewer⁹ et InCIties¹⁰.

Pour ce qui nous concerne, une requête a été élaborée pour capter les articles de recherche (*articles*) et les recensions (*reviews*) relevant de la recherche sur le polyhandicap à partir des données référencées dans le *Web of Science*. Le terme « polyhandicap » est un terme français peu employé, y compris par les chercheurs nationaux ; la difficulté a consisté à trouver les mots clés employés à l'international relatifs aux situations de handicaps relevant de la définition française du polyhandicap.

⁹ Van Eck N.J. & Waltman L. (2010). "Software survey: VOSviewer, a computer program for bibliometric mapping". *Scientometrics*, 84(2), 523-538 (paper, preprint, supplementary material).

¹⁰ Logiciel développé par Clarivate Analytics.

Une requête¹¹ permettant de repérer le polyhandicap (association d'une déficience intellectuelle et motrice sévère) dans la littérature internationale a alors été validée, l'objectif étant de capter tout autant les *articles* que les *reviews* pour la période allant de 1970 à 2019.

2.2 Les résultats de l'étude bibliométrique dans le *Web of Science*

La requête permettant d'identifier les travaux de recherche portant sur le polyhandicap ou sur des situations proches qualifiées par un autre vocable à l'international a d'abord été appliquée à la France, avant qu'une étude de la littérature internationale soit réalisée.

2.2.1 Regards sur la recherche française sur le polyhandicap

D'abord limitée à la France (and cu=France), cette requête rapporte un total de 447 publications à la date du 19 mars 2019, pour une période allant de 1970 à 2019. Ces publications portent au moins une affiliation d'un laboratoire situé en France. On admet donc que ces publications relèvent de la recherche nationale.

Les mots de la recherche française sur le polyhandicap

Sur la base de la requête ayant fait apparaître 447 publications, il est possible d'établir une carte relationnelle des mots les plus fréquemment trouvés dans les titres et les *abstracts* des articles (sur la base d'une fréquence d'apparition d'au moins 10). Il ne s'agit donc pas des mots clés renseignés par les auteurs, mais des mots mentionnés dans les titres et *abstracts* rapportés par la requête. L'« affinité », autrement dit la proximité entre les mots, révèle la fréquence de leur apparition simultanée dans les mêmes publications. On obtient des réseaux de mots souvent mentionnés ensemble qui définissent le périmètre des problématiques d'intérêt des chercheurs.

Le lien entre deux mots de « groupes différents » signifie que chaque mot a un groupe préférentiel, mais que pour autant ces deux mots figurent ensemble dans des publications.

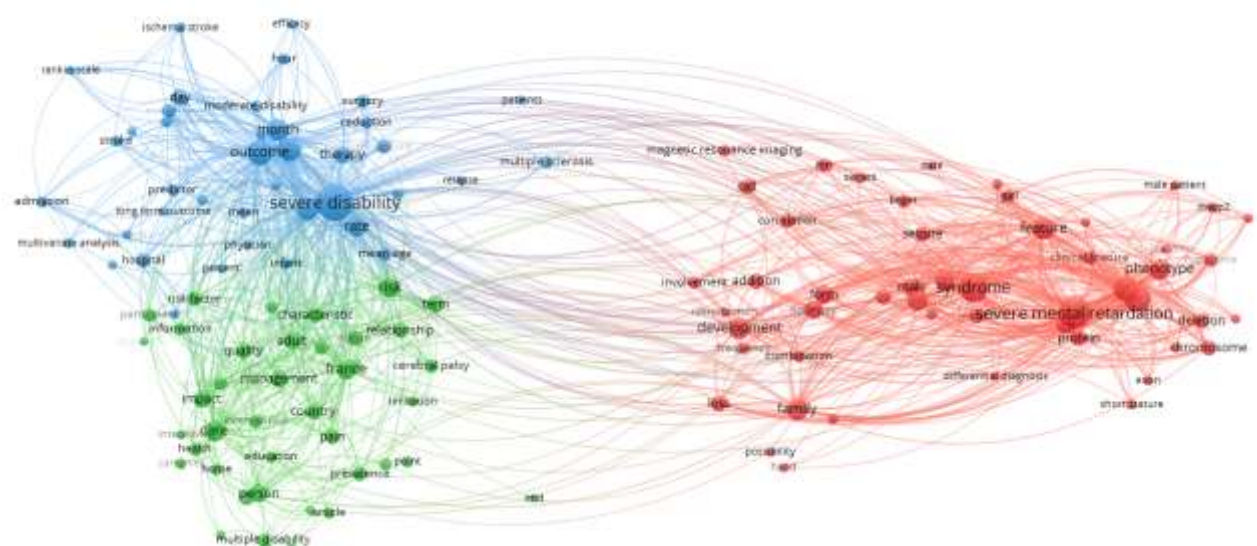
¹¹ ((TS= (("motor disabilit*" and "intellectual disabilit*") OR ("neurological disabilit*" and "motor disabilit*") OR ("mental retardation" and "motor disabilit*") OR ("cognitive disabilit*" and "motor disabilit*") OR ("Cerebral palsy" and "intellectual disabilit*") OR ("developmental disabilit*" and "intellectual disabilit*") OR "polyhandicap*" OR "multiple disabilit*" OR "severe disabilit*" OR "profound disabilit*" OR "complex disabilit*" or "severe mental retardation" or "severe mental-retardation" or "severe cognitive disorder*")) AND DT= (Article OR Review) and PY=1970-2019.

Dans la figure 1 ci-après, on peut constater que trois groupes de mots se distinguent :

- un groupe axé autour des « *severe mental retardation* », notamment ceux liés à des syndromes génétiques (couleur rouge). Il s'agit du groupe le plus important incluant sans doute des études qui ne tombent pas dans le périmètre strict du polyhandicap, mais les pathologies, notamment les syndromes génétiques, plutôt plus fréquentes peuvent être des portes d'entrée pour étudier des pathologies très rares comme celles très spécifiques qui conduisent à du polyhandicap ;
- un groupe axé autour de « *care, risk, management, multiple disability, cerebral palsy* ». Les mots suggèrent des problématiques de recherche en services de santé et en épidémiologie autour de la question du polyhandicap (couleur verte) ;
- un groupe axé autour de la thérapie, du devenir, de l'hôpital. Les mots suggèrent des problématiques cliniques de soins, de traitement, de survie... autour de la question du polyhandicap et des « *severe disability* », « *multiple sclerosis* »... (couleur bleu).

La liste complète des mots de chaque groupe est jointe aux documents annexes à ce rapport (voir l'annexe 5).

Figure 1 – Carte relationnelle des mots les plus fréquemment trouvés dans les publications françaises



Source : enquête bibliométrique réalisée à partir du Web of Science par le DESP de l'INSERM.

Note de lecture : Entre 1970 et le 19 mars 2019, le périmètre des problématiques traitées par les chercheurs dans les publications françaises recensées dans le Web of Science s'organise autour de trois « réseaux de mots » principaux, dont un (en bleu) autour de travaux sur la thérapie, le devenir et l'hôpital.

Les lieux de publication de la recherche française sur le polyhandicap

En cohérence avec les problématiques d'intérêt révélées par la carte relationnelle précédente, les thématiques de rattachement des journaux sont essentiellement médicales et orientées vers la neurologie, la pédiatrie et la génétique. Plusieurs journaux francophones figurent dans cette liste, notamment *Archives de pédiatrie* classé premier avec 17 publications, *Médecine palliative* avec 16 publications et *Revue neurologique* avec 11 publications.

Figure 2 – Les principaux journaux dans lesquels sont réparties les publications françaises



Source : enquête bibliométrique réalisée à partir du Web of Science par le DESP de l'INSERM.

Note de lecture : Entre 1970 et le 19 mars 2019, 17 des 447 publications françaises recensées dans le *Web of Science* ont été publiées dans la revue *Archives de pédiatrie*.

Les principaux acteurs de la recherche française sur le polyhandicap

Il ressort de l'étude des auteurs que ce sont essentiellement des cliniciens (PU-PH) qui publient sur le polyhandicap, qu'ils soient neurogénétiens, neuropédiatres ou neurologues.

Figure 3 – Les chercheurs français publiant le plus

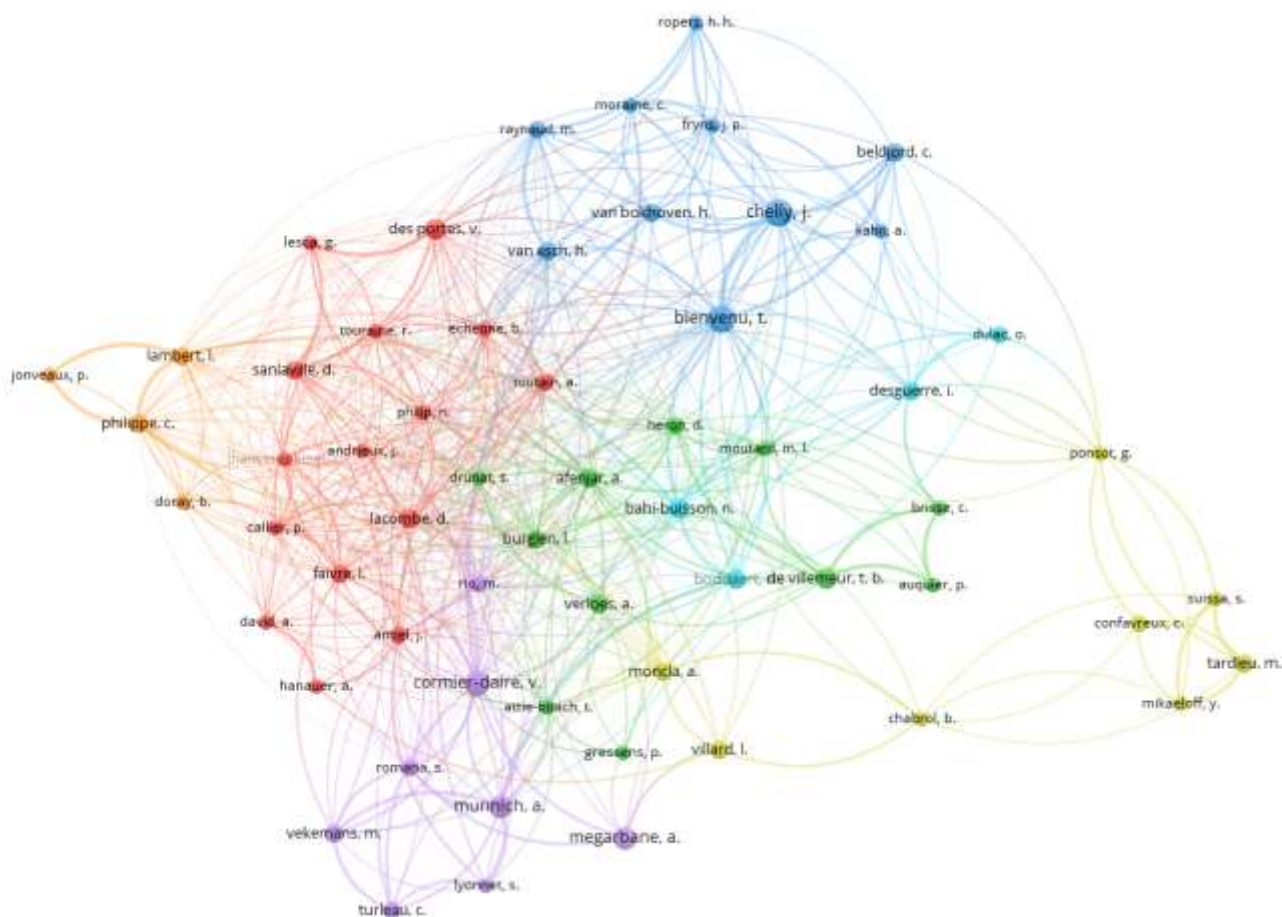


Source : Enquête bibliométrique réalisée à partir du Web of Science par le DESP de l'INSERM.

Note de lecture : Entre 1970 et le 19 mars 2019, J. Chelly est l'auteur (ou le coauteur) de 16 des 447 publications françaises recensées dans le *Web of Science*.

La figure 4 ci-dessous permet d'identifier des réseaux d'auteurs dans lesquels sont pris les chercheurs français. Elle est construite sur la base des cosignatures des publications permettant d'identifier les liens entre les différents auteurs français et éventuellement les liens entre les auteurs français et étrangers, mais aussi de révéler d'éventuelles approches pluridisciplinaires lorsque les coauteurs sont issus de différents champs disciplinaires.

Figure 4 – Les réseaux d'auteurs incluant des chercheurs français



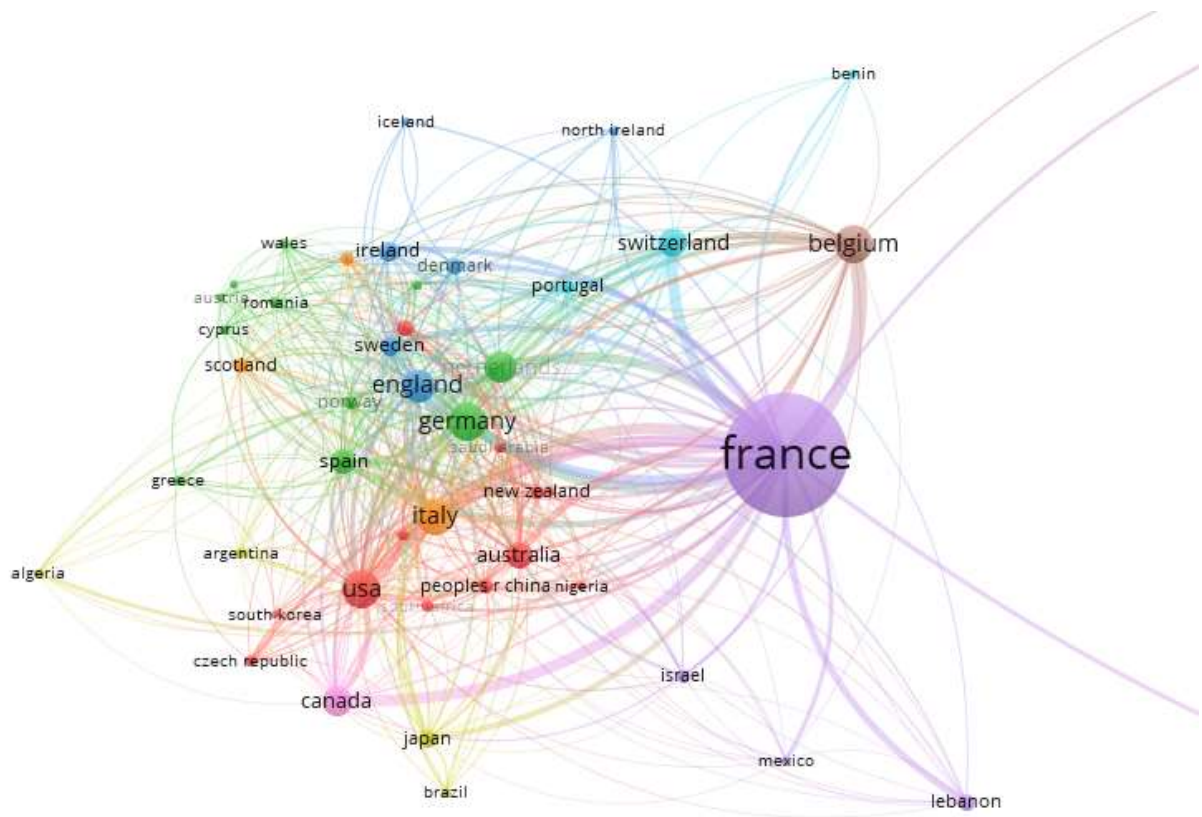
Source : Enquête bibliométrique réalisée à partir du Web of Science par le DESP de l'INSERM.

Note de lecture : Entre 1970 et le 19 mars 2019, J. Chelly et T. Bienvenu ont régulièrement cosigné des publications recensées dans le *Web of Science*.

Comme les acteurs français de la recherche sur le polyhandicap sont tous issus des mêmes grands secteurs disciplinaires (neuropédiatrie et génétique), les réseaux révélés par la carte ne font pas apparaître d'approche pluridisciplinaire. Les liens révélés résultent essentiellement de travaux conduits en commun au sein d'une équipe de recherche.

On retrouve les principaux auteurs identifiés précédemment, certains d'entre eux occupant une place particulière (T. Bienvenu, V. Cormier-Daire, A. Munnich, J. Chelly, V. Des Portes, T. Billette de Villemeur, G. Ponsot...) au carrefour de collaborations interéquipes.

Figure 5 – Carte relationnelle des pays avec lesquels la France collabore



Source : enquête bibliométrique réalisée à partir du Web of Science par le DESP de l'INSERM.

Note de lecture : Entre 1970 et le 19 mars 2019, les chercheurs français ont régulièrement publié des travaux cosignés par des chercheurs belges (d'après les publications recensées dans le *Web of Science*).

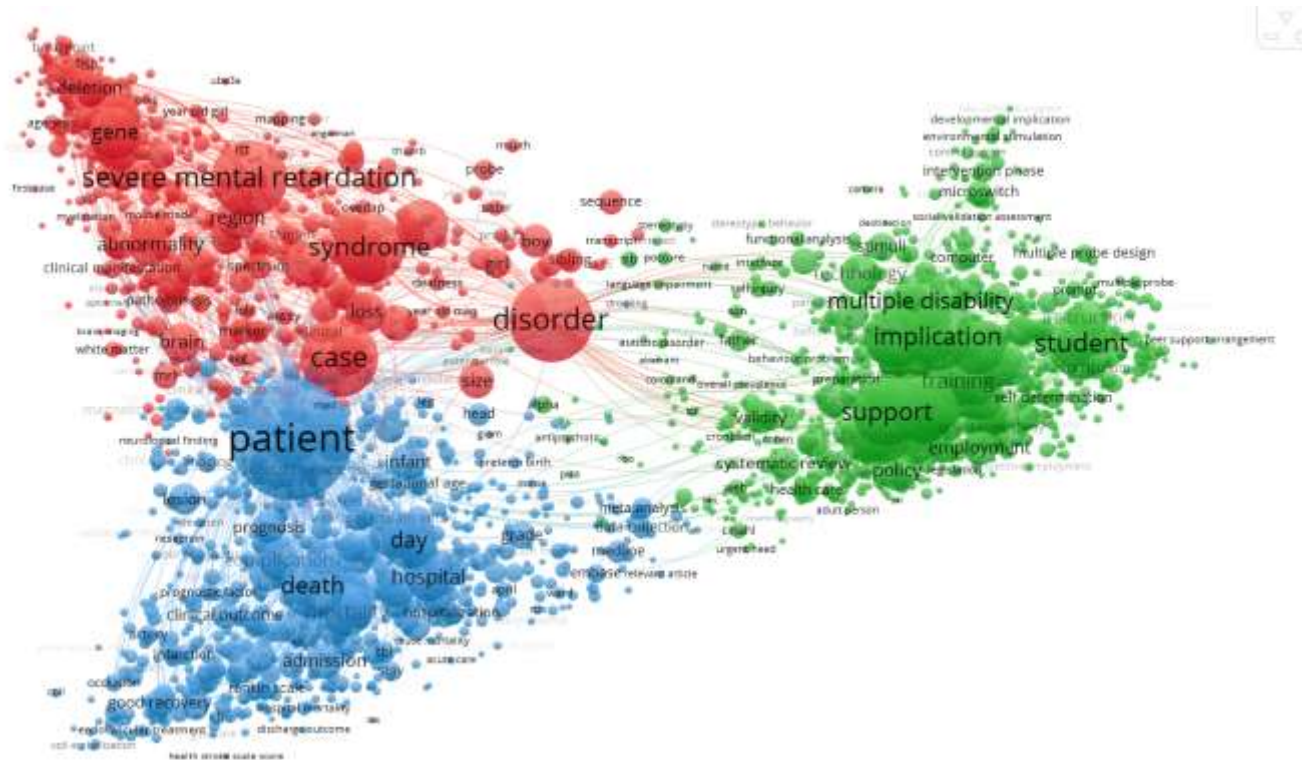
La carte ci-dessus est établie sur la base des publications cosignées (pour rappel, la requête a fait ressortir 447 publications). La taille de chaque bulle est proportionnelle au nombre de publications co-affiliées.

On peut constater que les chercheurs français travaillent avec de nombreux chercheurs étrangers, sans qu'un pays ressorte véritablement par la force de ses liens scientifiques avec la France : Italie, Allemagne, États-Unis, Angleterre et Belgique hébergent la plupart des chercheurs étrangers cosignataires.

2.2.2 Regards sur la recherche internationale sur le polyhandicap

Après avoir centré l'étude sur la recherche française sur le polyhandicap, les mêmes indicateurs bibliométriques sont repris ici, mais appliqués à la recherche internationale ; il s'agit donc de conserver la même requête sans y appliquer le filtre France. Au total, ce sont près de 10 000 publications qui sont rapportées.

Figure 6 – Carte relationnelle des mots les plus fréquemment trouvés dans les publications à l'international



Source : enquête bibliométrique réalisée à partir du Web of Science par le DESP de l'INSERM.

Note de lecture : Entre 1970 et le 19 mars 2019, le périmètre des problématiques traitées par les chercheurs dans les publications internationales recensées dans le *Web of Science* s'organise autour de trois « réseaux de mots » principaux, dont un (en bleu) autour de travaux sur le patient, l'hôpital et les conditions de vie et de survie.

La recherche internationale se répartit comme la recherche française autour de trois grandes problématiques, mais avec un arrangement spatial et des focus thématiques différents.

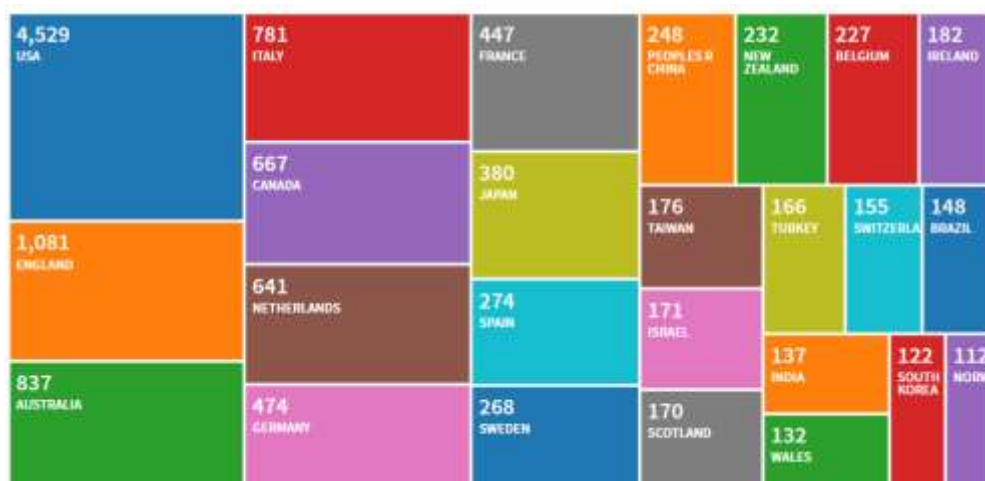
On retrouve des recherches autour des « *severe mental retardation* » et des syndromes génétiques (cluster rouge) et des recherches sur la prise en charge thérapeutique, sur l'hôpital, le patient et les conditions de vie et de survie (cluster bleu).

En revanche, le troisième groupe de travaux autour de « *multiple disability* » se différencie fortement de celui de la France. Il regroupe la plus forte densité de mots, et sa composition reflète une forte composante psychosociale avec une large part consacrée à l'éducation, au comportement et à la communication.

Ce constat différentiel peut appeler deux types d'explications, non exclusives :

- > les chercheurs français s'intéressant aux problématiques psychosociales publient dans des journaux peu indexés dans le *Web of Science* ;
- > l'approche psychosociale influence fortement la recherche internationale sur le polyhandicap, alors que la recherche française se focalise davantage sur une approche médicale à forte composante neuropédiatrique et neurogénétique.

Figure 7 – Les pays publiant le plus à l'échelle internationale



Source : enquête bibliométrique réalisée à partir du Web of Science par le DESP de l'INSERM.

Note de lecture : Entre 1970 et le 19 mars 2019, 4 529 des près de 10 000 publications internationales recensées dans le *Web of Science* ont été publiées par des chercheurs états-uniens.

Il est intéressant de voir que l'Italie, pays non anglophone, se situe en quatrième position en termes de nombre de publications (781), presque deux fois plus qu'en France (447). Le trio de tête se compose des États-Unis (4 529), de l'Angleterre (1 081) et du Canada (837).

Figure 8 – Les principaux journaux dans lesquels sont réparties les publications à l'international



Source : enquête bibliométrique réalisée à partir du Web of Science par le DESP de l'INSERM.

Note de lecture : Entre 1970 et le 19 mars 2019, 485 des près des 10 000 publications internationales recensées dans le *Web of Science* ont été publiées dans la revue *Research in Developmental Disabilities*.

En cohérence avec les problématiques d'intérêt révélées par la carte relationnelle précédente (figure 6), les thématiques de rattachement des journaux sont plus spécifiquement dédiées à la recherche sur le handicap.

Figure 9 – Les chercheurs publiant le plus à l'échelle internationale



Source : enquête bibliométrique réalisée à partir du Web of Science par le DESP de l'INSERM.

Note de lecture : Entre 1970 et le 19 mars 2019, G.E. Lancioni est l'auteur (ou le coauteur) de 261 des près de 10 000 publications internationales recensées dans le *Web of Science*.

La recherche sur le polyhandicap à l'échelle internationale est très concentrée sur un petit noyau de chercheurs qui, en réalité, cosignent régulièrement des articles.

Il est intéressant de noter qu'aucun d'eux n'est médecin et qu'ils publient souvent ensemble : Giulio E. Lancioni est professeur de psychologie générale, spécialiste du polyhandicap, Mark F. O'Reilly est professeur d'éducation et Nirbhay N. Singh, professeur en psychiatrie.

Focus sur l'Italie et la Belgique, deux pays non anglophones

Toujours en retenant la même requête (voir 2.1) et compte tenu de ce qu'a révélé la figure 6, il apparaît intéressant d'approfondir l'analyse de l'Italie et de la Belgique pour tenter d'expliquer leur bon classement parmi les pays qui publient le plus dans la recherche sur le polyhandicap.

La Belgique

Figure 10 – Les principaux journaux dans lesquels sont réparties les publications belges



Source : enquête bibliométrique réalisée à partir du Web of Science par le DESP de l'INSERM.

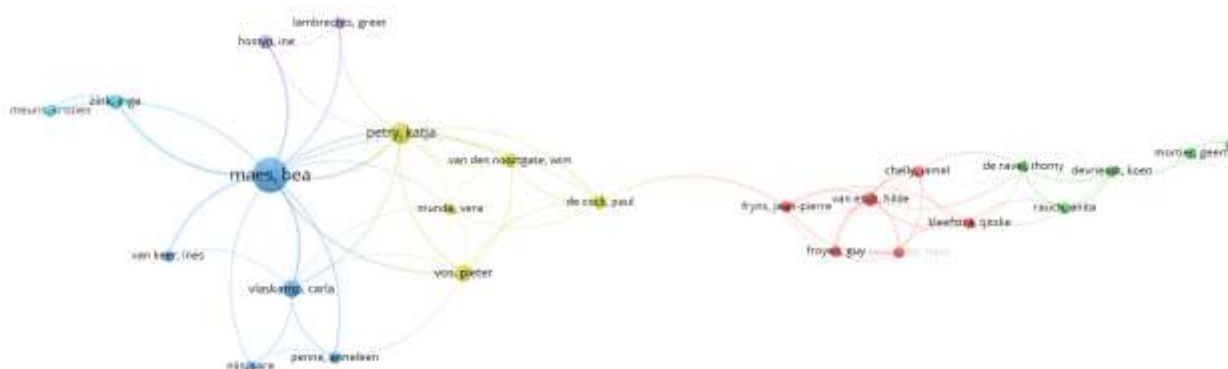
Note de lecture : Entre 1970 et le 19 mars 2019, 14 des 227 publications belges recensées dans le *Web of Science* ont été publiées dans la revue *Research in Developmental Disabilities*.

On constate que les 227 publications associées à la Belgique paraissent dans les journaux qui ressortent le plus à l'échelle internationale (similitudes avec la figure 8), ce qui n'est pas vrai pour la France.

La figure 11 ci-dessous, basée sur les cosignatures des publications, révèle que la recherche belge sur le polyhandicap s'organise autour de deux pôles distincts : un premier pôle centré sur Bea Maes et l'approche « psycho-éducative » du polyhandicap ; un second pôle incluant Jean-Pierre Fryns et les tenants d'une approche « génétique » du polyhandicap.

À noter : Carla Vlaskamp, très impliquée dans la recherche sur le polyhandicap et référence internationale majeure (voir la figure 9), se trouve dans le réseau de Bea Maes.

Figure 11 – Les réseaux d'auteurs incluant les chercheurs belges



Source : enquête bibliométrique réalisée à partir du Web of Science par le DESP de l'INSERM.

Note de lecture : Entre 1970 et le 19 mars 2019, B. Maes et C. Vlaskamp ont régulièrement cosigné des publications recensées dans le *Web of Science*.

Il est donc important de noter la forte présence de ces deux chercheurs, cosignataires de 20 % des publications associées à la Belgique pour Bea Maes et de 14 % pour Jean-Pierre Fryns. Bea Maes est notamment coauteure de 12 des 14 publications pouvant être affiliées à la Belgique parues dans *Research in Developmental Disabilities* et de 10 des 13 publications parues dans *Journal of Intellectual Disabilities Research*.

Figure 12 – Les principaux journaux dans lesquels sont réparties les publications italiennes

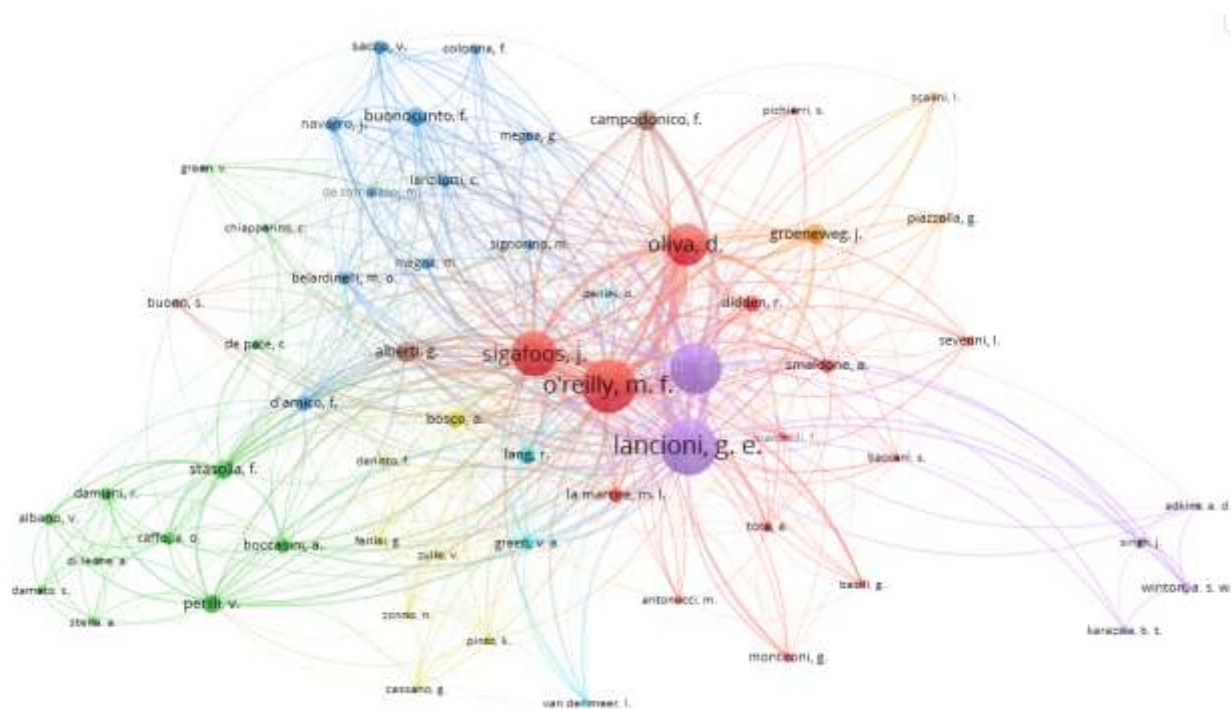


Source : enquête bibliométrique réalisée à partir du Web of Science par le DESP de l'INSERM.

Note de lecture : Entre 1970 et le 19 mars 2019, 75 des 781 publications belges recensées dans le *Web of Science* ont été publiées dans la revue *Research in Developmental Disabilities*.

Comme l'a bien montré la figure 7, la recherche italienne sur le polyhandicap est l'une des plus fertiles, puisque le pays se classe quatrième en nombre de publications dans ce champ de recherche à l'échelle mondiale, avec 781 publications au total. On note avec la figure ci-dessus, comme pour la recherche internationale, la place essentielle des journaux spécifiquement dédiés au handicap.

Figure 13 – Les réseaux d’auteurs incluant les chercheurs italiens



Source : enquête bibliométrique réalisée à partir du Web of Science par le DESP de l'INSERM.

Note de lecture : Entre 1970 et le 19 mars 2019, J. Sigafoos, M.F. O'Reilly et D. Oliva ont régulièrement cosigné des publications recensées dans le *Web of Science*.

Le groupe d'auteurs italo-américains occupe une place centrale dans cette carte qui représente la liste des cosignatures. Lancioni est le personnage central qui semble avoir instruit la recherche sur le polyhandicap en Italie. En effet, on constate par ailleurs qu'il représente 30 % des publications de l'Italie.

2.3 Une autre littérature francophone

En France, les chercheurs qui s'intéressent au polyhandicap et qui publient sur ce sujet ne sont pas toujours issus du monde académique, mais beaucoup sont des acteurs du monde associatif ou du monde paramédical. Ils publient pour l'essentiel dans des revues francophones peu répertoriées dans les bases internationales et au lectorat souvent limité. Ces recherches poursuivent bien souvent une visée pragmatique et répondent à un besoin social, celui d'améliorer l'accompagnement des personnes polyhandicapées ; leur ambition n'est pas de s'inscrire dans les circuits de publication à l'international.

Finalement, ces publications restent des « outils » essentiels pour les acteurs de terrain, mais ne trouvent malheureusement pas d'écho dans le monde de la recherche académique qui puise ses connaissances dans des journaux anglophones.

Une requête avec le mot « polyhandicap » sur le [site Cairn.info](https://www.cairn.info) (portail de revues en sciences humaines et sociales francophones) rapporte 855 résultats incluant 541 revues, 301 ouvrages, 11 *Que sais-je ?* et/ou *Repères* et 2 magazines. Cette production est rattachée à environ quatorze disciplines : psychologie, sociologie et société et sciences de l'éducation sont les disciplines qui regroupent le plus de publications, avec respectivement 542, 249 et 119 publications.

Même s'il faut admettre que les publications référencées dans Cairn.info ne sont pas d'un égal intérêt, le nombre impressionnant de ces publications autorise à penser que les travaux sur le polyhandicap en France sont nombreux (contrairement à ce que laisse à voir l'exploitation du *Web of Science*). Cette recherche est toutefois invisible à l'international et est encore trop cloisonnée.

Il ressort également des discussions avec les centres de documentation des associations et des centres ressources dédiés au multihandicap ou au polyhandicap la difficulté de « faire le tri » dans la somme de documents alimentant la réflexion sur le polyhandicap, cette littérature étant très peu indexée et les informations relatives à sa qualité difficiles à trouver. Pour autant, ces centres de documentation mènent de longue date une réflexion sur les moyens de valoriser cette littérature, qui pourraient par exemple prendre la forme d'une plateforme ressource sur le polyhandicap.

De plus, les acteurs de terrain, confrontés au quotidien de l'accompagnement et de la prise en charge des personnes polyhandicapées et constatant un manque de connaissances scientifiques, développent des espaces et des supports de réflexion et de discussion en marge de la recherche. A cet égard, les acteurs de la recherche académique et les acteurs de terrain pourraient travailler de concert pour développer un corpus théorique et pratique sur des thématiques communes.

Enfin, un passage en revue rapide des thèses (81 recensées au total depuis 1976, soutenues ou en cours de rédaction) traitant du polyhandicap entendu dans un sens non restrictif fait apparaître que ce thème de recherche n'est pas traité par des équipes de recherche travaillant de longue date sur le polyhandicap. Par ailleurs, seuls deux directeurs de thèse ont encadré plus d'une thèse dans ce champ.

On constate également que les thésards n'étudient bien souvent ce sujet que pendant leurs années de thèse et que leurs travaux ultérieurs, quand ils existent, portent sur d'autres champs de recherche.

Du point de vue de l'horizon disciplinaire des recherches effectuées en thèse, les thèses de médecine sont largement surreprésentées par rapport aux thèses en SHS.

Nous renvoyons le lecteur aux documents annexes à ce rapport, dans lesquels il pourra trouver un classeur Excel indexant les 81 thèses recensées (voir l'annexe 5).

2.4 Discussion : éléments de bilan et pistes d'action

Le travail bibliométrique exposé montre que la recherche française sur le polyhandicap se différencie fortement de la recherche internationale. Il suggère notamment que la recherche en France est principalement orchestrée par les neuropédiatres et les neurogénétiiciens alors qu'à l'étranger l'approche psychosociale est largement privilégiée. Pour autant, tant en France qu'en Belgique, les deux approches cohabitent, mais ne se « parlent pas ».

En France, les toutes premières publications rapportées par la requête mise au point pour la présente analyse sont parues à la fin des années 70, quand le polyhandicap a été porté puis reconnu comme devant faire l'objet d'une catégorie d'action publique spécifique ; la production n'a vraiment émergé qu'à partir du début des années 90. Elle croît régulièrement depuis, mais assez modestement.

Le terme « polyhandicap » relève donc d'une construction qui vise à qualifier une population concernée par l'intrication de plusieurs troubles engendrant une perte d'autonomie extrême. Il en résulte que la population ainsi dénommée est trop peu nombreuse pour permettre aux chercheurs français de publier dans les revues internationales. Autrement dit, il semblerait qu'afficher une clé d'entrée « polyhandicap » dans un article de recherche ne permette pas de publier aussi facilement qu'en choisissant une clé d'entrée par les différents troubles.

De plus, les publications référencées dans le *Web of Science* identifient des neuropédiatres et des neurogénétiiciens, spécialistes des situations de handicap (syndromes héréditaires, autisme...), qui se sont trouvés confrontés à des situations de polyhandicap, mais pour qui le « polyhandicap » n'est pas vraiment un axe de recherche spécifiquement ciblé et structuré, ce qui signifie qu'il n'est pas possible d'identifier un laboratoire de recherche particulièrement en pointe sur ces questions en France. Or, la Belgique et l'Italie se caractérisent par cette forte structuration de la recherche sur le polyhandicap, autour notamment de Bea Maes en Belgique et de Giulio Lancioni en Italie, avec des lieux institués pour faire de la recherche sur le polyhandicap.

Enfin, les chercheurs académiques en SHS ont des pratiques de publication qui diffèrent fortement des chercheurs d'autres disciplines. Ils publient des ouvrages ou publient dans des revues à portée nationale. Au-delà des spécificités liées aux disciplines, il faut également noter le cadre de publication contraignant des revues anglophones pour les chercheurs en SHS français (barrière de la langue, normes de présentation des articles, types de méthodologies acceptées...).

Les pistes d'actions envisagées

- > Amener les chercheurs à adopter un vocabulaire capable d'entrer en résonnance avec les mots clés retenus à l'international pour qualifier le polyhandicap « à la française » et se donner ainsi les moyens de dialoguer avec la communauté scientifique internationale.
- > Rendre visible la recherche des acteurs de terrain sur le polyhandicap en suscitant des collaborations avec des chercheurs académiques.
- > Favoriser le dialogue entre les disciplines et entre les parties prenantes (essentiellement les acteurs de terrain) et le monde académique.
- > Structurer la recherche sur le polyhandicap en faisant émerger des laboratoires de recherche pluridisciplinaires spécialisés sur cette problématique comme il en existe à l'international, notamment en Belgique.
- > Accompagner les chercheurs en sciences humaines et sociales pour les aider à publier en anglais dans les revues internationales.
- > Favoriser les collaborations internationales, notamment par des financements de postdoctorats dans les laboratoires américains, belges ou italiens.

3 Quelles priorités de recherche pour le polyhandicap ?

Face au constat d'une recherche française sur le polyhandicap active, mais insuffisante, peu coordonnée et encore trop peu accessible aux parties prenantes du champ, un groupe de travail « recherche » sur l'état des lieux de la recherche et les priorités de recherche a été mis en place avec l'ambition d'initier une structuration et une animation de ce champ de recherche (voir l'annexe 1 pour le détail de sa composition). Le groupe de travail « recherche » a cherché à :

- > analyser les forces et les faiblesses de la recherche sur le polyhandicap ;
- > identifier les freins et les leviers au développement de cette recherche ;
- > identifier les besoins de la communauté scientifique.

Pour mener à bien ces missions, le groupe de travail a arrêté une définition du polyhandicap sur la base de critères opérationnels pour être en mesure d'identifier les contours de la recherche. Les critères suivants ont ainsi été retenus pour qualifier les situations de polyhandicap caractérisé par :

- > une déficience cognitive sévère ;
- > une déficience motrice sévère et globale (d'origine centrale) ;
- > une dépendance extrême et une restriction importante de l'autonomie ;
- > l'intrication des déficiences.

En accord avec chacun des membres du groupe, le critère de précocité de la lésion n'a donc pas été retenu, afin de ne pas exclure d'emblée une partie des travaux de recherche du travail préparatoire aux réunions du groupe.

Sur cette base, le groupe de travail a conçu un programme de travail thématique à l'issue d'une première réunion. L'ensemble de ces thématiques a ensuite été traité lors de réunions de travail successives, avec la présence d'intervenants de divers horizons disciplinaires (voir l'annexe 2 détaillant le programme de travail et les intervenants).

Les différents échanges ont révélé un manque de coordination entre les chercheurs dans leurs travaux. Il est apparu que la plupart d'entre eux travaillaient séparément, y compris ceux travaillant sur une même thématique. Dans ce contexte, et conformément à sa mission, le groupe de travail a permis de lancer une dynamique qu'il conviendrait de pérenniser autour de réseaux structurés travaillant sur des thématiques jugées prioritaires.

L'objectif du propos qui va suivre n'est pas de restituer l'ensemble des discussions qui se sont tenues lors des réunions du groupe de travail, mais d'identifier les manques de la recherche sur le polyhandicap et les thèmes sur lesquels il serait opportun, au vu du besoin, de créer des réseaux de chercheurs et de laboratoires issus de divers horizons disciplinaires (y compris des disciplines qui jusque-là n'ont pas considéré le polyhandicap comme un objet de recherche).

Il ne s'agit pas non plus de développer et/ou de faire état des débats de fond sur les questions théoriques, cliniques, sociales, mais bien de donner des éléments factuels de l'état des recherches et d'ouvrir sur des perspectives.

La restitution ne suit pas le découpage thématique du programme de travail du groupe, les discussions ayant fait apparaître des questions récurrentes aux différents axes de travail (3.1). La restitution se poursuit en exposant les besoins de recherche par entrée thématique (3.2).

Des besoins de recherche ont été identifiés en vue de nourrir la discussion sur l'étude d'opportunité et sur la faisabilité d'une cohorte pour mieux connaître les personnes polyhandicapées, leur devenir et les effets des dispositifs sur ce devenir.

Les progrès de la médecine et des modalités de prise en charge ayant considérablement accru l'espérance de vie des personnes polyhandicapées, il est apparu qu'il était impératif pour tous les thèmes évoqués de ne pas oublier deux âges de la vie primordiaux, l'adolescence et l'âge adulte. Ceux-ci nécessitent des travaux ciblés, à la fois parce que l'état de santé et les besoins des personnes évoluent avec l'âge, mais aussi parce que les proches aidants vieillissent, voire décèdent. Cela appelle à une réflexion particulière sur l'aide à apporter et les structures, les dispositifs à proposer.

3.1 Les questions transversales au champ de la recherche sur le polyhandicap : quels besoins de recherche ?

Un certain nombre de questions transversales à la recherche sur le polyhandicap, quelle que soit la clé d'entrée thématique retenue, ont été identifiées et sont restituées ici.

3.1.1 Identifier, connaître et suivre la population tout au long de la vie

Les travaux sur la littérature et sur l'évolution de la population montrent la nécessité de se doter d'un « cadre » précis et partagé pour caractériser le polyhandicap. Un tel cadre suppose d'être en mesure de mieux repérer les situations de polyhandicap afin de mieux les connaître, à travers la conduite d'études systématisées.

Les discussions lors des séminaires ont révélé un besoin important de suivi des parcours de vie et des parcours de soin : impact à court, moyen et long terme des traitements, conséquences des prises en charge, effets des politiques publiques d'accompagnement et de soins...

De plus en plus de traitements et de techniques de rééducation et de de soin développés et validés sur des populations autres que les personnes polyhandicapées sont aujourd'hui utilisés pour l'accompagnement de ce public spécifique, sans que soit véritablement remis en question l'intérêt de ces transferts. Cela soulève donc la question de l'évaluation de la pertinence de ces pratiques qui peuvent être très coûteuses sans que l'on soit en mesure d'en évaluer le réel bénéfice pour la personne et pour ses proches. Cette évaluation suppose deux choses :

- que soit mis en place un suivi au long cours. Du fait d'un tableau clinique complexe, observer les effets des interventions suppose que soit considérée une temporalité longue qui doit permettre de conduire des évaluations à répétition pour essayer d'identifier une tendance. Il ne serait pas raisonnable de construire des recommandations de prise en charge sur la base d'une évaluation unique ou trop située dans le temps ; les progrès sont lents, et les tableaux cliniques peuvent s'améliorer ou se dégrader très vite ;

- > que soient développés des protocoles d'évaluation spécifiques qui ne peuvent être pensés selon les standards habituels, la démonstration de la preuve étant rendue compliquée par la complexité des tableaux cliniques, notamment par le processus de maturation de l'organisme affecté par l'intrication des déficiences chez les enfants et chez les jeunes adultes. Il faut parvenir à isoler les effets relevant de ce qui est évalué des effets autres, multiples et encore mal connus en l'absence de données nombreuses sur « l'histoire naturelle » du polyhandicap. Par ailleurs, cette évaluation se doit d'être multidimensionnelle : effets sur l'état de santé, mais qu'en est-il de la qualité de vie ?

Ce besoin est d'autant plus pressant qu'actuellement les professionnels de santé agissent de manière isolée sur la base de leurs connaissances propres et de leur environnement de soin local. Ils tentent de se construire une expertise reposant sur des expériences quotidiennes répétées, base d'un savoir cumulatif – du moins dans les services dédiés à la prise en charge et à l'accompagnement des personnes polyhandicapées –, le seul à faire valoir en l'absence actuelle de travaux de recherche.

Prenons l'exemple de la chirurgie du rachis pour corriger la scoliose. Une nouvelle technique moins invasive pouvant intervenir plus tôt dans le parcours de soin est aujourd'hui de plus en plus utilisée par certains praticiens. On peut légitimement se demander pourquoi choisir cette technique plutôt que l'ancienne (au-delà de son caractère moins invasif à court terme) ? Question qui ne peut être résolue qu'en mettant en place un suivi au long cours dans le cadre de protocoles évaluatifs spécifiques, inexistants aujourd'hui.

D'importants travaux sur les outils de communication sont également en cours, mais comment penser leur généralisation en dehors de tout protocole évaluatif ?

Ont également été évoquées les conséquences possibles de la politique de désinstitutionnalisation sur ce public particulier tout comme les effets de la modification des conditions de financement des établissements de soins de suite et de réadaptation (SSR). Il faut absolument pouvoir documenter les effets à long terme de ce déplacement de la prise en charge vers le domicile parce que ces enfants, adolescents et adultes ne peuvent en témoigner. Que signifie développer la prise en charge du polyhandicap au domicile ? Est-ce que cette prise en charge peut s'organiser en redéployant au domicile l'ensemble des prises en charge en ESMS et en SSR ? Ou bien suppose-t-elle une implication forte des aidants proches ? Finalement, à quelles conditions le domicile est-il un horizon possible et souhaitable, que ce soit sur le plan de la santé, de la communication, de la qualité de vie, y compris pour les familles ?

Aussi est-il nécessaire de connaître particulièrement le devenir des personnes polyhandicapées en termes de santé, d'accès aux soins, d'éducation et de rééducation.

Les aspects évaluatifs sont discutés plus en détail dans la suite du propos (voir *infra* « Évaluation des interventions et des dispositifs »).

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

- > Développer des éléments de connaissance ayant un caractère longitudinal (pratiques sanitaires et médico-sociales, politiques publiques...).
- > Développer des outils et des protocoles d'évaluation des pratiques et des techniques médicales, paramédicales, éducatives et rééducatives adaptés aux spécificités des personnes polyhandicapées, c'est-à-dire qui s'inscrivent dans un temps long et soient multidimensionnels.

3.1.2 Les questions d'ordre méthodologique : la mobilisation des savoirs expérientiels des tiers

La recherche sur le polyhandicap invite à remettre en question et, le cas échéant, à faire évoluer les techniques d'enquête mobilisées par les chercheurs. Enquêter auprès d'une personne polyhandicapée revient nécessairement à enquêter auprès de l'ensemble des personnes qui l'accompagnent au quotidien, proches et professionnels.

Il conviendrait donc d'identifier et, si nécessaire, de contrôler le biais de mesure lié à l'obtention de l'information par ce tiers, aidant ou non. Il s'agirait à la fois de diversifier les points de vue subjectifs et de réduire les biais pour ce qui relève de mesures objectives. La qualité du tiers et sa place au quotidien dans l'écosystème qui accompagne une personne polyhandicapée deviennent une information à renseigner de manière précise.

Ce point de vigilance d'ordre général est parfois repris dans le propos qui suit à côté des questionnements propres à chaque technique d'enquête.

L'observation

Il a été souligné que l'observation, qui passe par l'écoute des émissions vocales, par l'attention au souffle et aux manifestations diverses de la personne polyhandicapée, devait s'accompagner d'une mobilisation des savoirs expérientiels des tiers familiaux et professionnels pour décrypter de manière la plus juste possible cette communication non verbale. Chacun des tiers ayant une expérience différente, il est important de multiplier les points de vue.

Si l'observation est la méthode citée comme étant la plus pertinente pour saisir ce que peut penser, comprendre et vivre la personne polyhandicapée, elle est rapportée par des tiers et donne lieu à des interprétations parfois abusives dans lesquelles la personne polyhandicapée n'a pas toujours la possibilité d'intervenir.

Ainsi, un travail d'interprétation s'engage dès lors qu'il est question du recueil de la pensée, des besoins et des positionnements ou encore des préférences de la personne polyhandicapée. Cette interprétation suppose des « regards croisés », mais aussi une posture réflexive du chercheur. Il doit interroger ses prénotions, les valeurs qui sont les siennes, sa position sociale et les intérêts qui lui sont liés ; il doit prendre de la distance vis-à-vis de sa recherche.

Finalement, le chercheur doit créer des outils susceptibles de recueillir cette expérience en s'assurant le concours de plusieurs tiers, ce regard croisé devant permettre plus d'objectivité et de réflexivité dans les interprétations.

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

Mener des travaux sur l'observation fine de la personne, de ses expressions vocales, faciales, motrices, de son souffle, chacune de ces manifestations pouvant faire sens pour elle et ses proches et devenir un outil de communication non seulement singulier, intime, mais aussi compréhensible, transférable et transmissible.

L'enquête par questionnaire et par entretien

L'enquête par entretien ou par questionnaire vise la production d'un discours sur un thème donné à travers une interaction entre le chercheur et le sujet de l'enquête.

La complexité des formes de communication de la personne polyhandicapée rend difficile l'accès direct du chercheur à son discours : ce sont le plus souvent les tiers qui sont interrogés et amenés à restituer leur point de vue sur la personne polyhandicapée ou à lui prêter un discours.

Une grande diversité des questionnaires et des outils utilisés est notée, parfois créés par une équipe, pas toujours validés ni diffusés, ce qui rend malaisée la communication entre chercheurs et praticiens.

Lors des enquêtes par entretiens ou par questionnaires, les femmes sont davantage interrogées, qu'elles soient mères ou professionnelles ; les pères sont très peu impliqués, de même que les grands-parents et les frères et sœurs. Cela peut être problématique puisque ces proches sont tout autant dans l'interaction et par là même susceptibles d'aider à mieux saisir ce que vit la personne polyhandicapée.

Enfin, il est souvent reproché aux chercheurs conduisant des enquêtes par entretiens ou par questionnaires intégrant un volet quantitatif de ne pas constituer d'échantillons suffisamment grands et homogènes pour prétendre à une véritable représentativité statistique. Or, du fait même des caractéristiques du polyhandicap, il peut être plus difficile de mener ce type d'études. Par construction, il s'agit là d'une trop petite population plutôt hétérogène pour envisager de contrôler un grand nombre de caractéristiques.

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

- > Uniformiser et valider sur le plan scientifique les questionnaires et les outils utilisés. Cela permettrait une diffusion plus large des méthodologies d'enquêtes et donc une comparaison des résultats de recherche obtenus.
- > Veiller à davantage impliquer les pères, les frères et sœurs et les grands-parents dans les enquêtes, ainsi que les professionnels intervenant auprès de la personne polyhandicapée.
- > Créer des dispositifs de partage de données permettant d'inclure le plus grand nombre possible de sujets ou rendant possibles des méta-analyses.
- > Ouvrir pour la reconnaissance scientifique de la validité des recherches sur cette population sans nécessairement de groupe contrôle et sur la base de faibles effectifs.

L'étude de cas singuliers

On constate une grande diversité des tableaux cliniques des personnes polyhandicapées. Cette diversité doit conduire à réaliser des études approfondies de cas singuliers avec une approche longitudinale afin de mieux comprendre comment la personne, en lien avec ses proches, se construit et évolue.

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

Développer des études de cas approfondies s'appuyant sur des méthodologies précises et systématisées afin de favoriser la comparaison des résultats.

Mesures physiologiques

Afin d'accéder à ce que ressent la personne polyhandicapée, certains travaux mettent l'accent sur les possibilités qu'offrent les mesures physiologiques. En effet, lorsque les modes de communication sont complexes, il est possible d'accéder aux données physiologiques (rythme cardiaque, taux de cortisol...) pour repérer et interpréter des réactions.

Mais là encore, il faut être vigilant et ne pas calquer sans précaution des raisonnements et des interprétations validés sur d'autres types de population. Par certains aspects, la personne polyhandicapée est prisonnière d'un corps fonctionnant autrement, qu'il faut considérer comme tel et qui à chaque instant peut brouiller les pistes dans la compréhension de son état réel.

Se pose aussi la question éthique de la mise en place d'une recherche non thérapeutique sans le consentement de la personne.

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

Créer des consortiums de recherche avec des ingénieurs et des chercheurs en sciences humaines et sociales pour étudier comment il serait possible de mieux connaître ce que vit, ressent et comprend la personne polyhandicapée par des mesures physiologiques.

Évaluation des interventions et des dispositifs

La question de l'évaluation est récurrente et ce, quelle que soit la clé d'entrée thématique.

Il s'agit à la fois d'évaluer les outils utilisés, l'impact d'une intervention, d'un dispositif, d'une méthode, mais aussi le fonctionnement des institutions en déterminant leur adéquation aux spécificités du polyhandicap.

L'évaluation concerne donc tout à la fois les méthodologies d'enquêtes (voir *supra*), les interventions et les politiques publiques.

Par ailleurs, la diversité des outils d'évaluation, qui n'ont pas toujours fait l'objet d'une validation scientifique, a été soulignée.

Pour ce qui concerne les méthodologies d'intervention, ce processus évaluatif repose sur :

- > le croisement du regard des proches (famille, notamment) et des professionnels, ce qui suppose des outils d'évaluation qui peuvent être utilisés par les proches, les professionnels et les institutions ;
- > une démarche d'évaluation positive et dynamique et non normative pour la personne polyhandicapée (fiabilité test-retest...) ;
- > des méthodologies d'évaluation qui prennent en compte la diversité des situations dans une approche interdisciplinaire et multifactorielle.

Pour ce qui concerne les effets des politiques publiques, ce processus évaluatif repose sur :

- > une analyse par les professionnels de terrain et par les membres de la famille ;
- > une analyse micro et macro-institutionnelle ;
- > des comparaisons internationales.

L'évaluation réclame une certaine temporalité et doit tenir compte à la fois de l'environnement, de l'état de santé et des autres caractéristiques de la personne (son histoire, sa culture, son caractère...).

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

- > Recenser les outils d'évaluation actuellement utilisés, en faire une synthèse critique pour en créer de nouveaux validés scientifiquement et partagés entre les différents professionnels, les établissements, mais également entre les laboratoires de recherche.
- > Promouvoir des protocoles d'évaluation donnant toute leur place aux familles et aux professionnels afin de s'assurer de leur concours et de leur coopération.
- > Développer la connaissance des dispositifs évaluatifs à l'étranger.

3.1.3 Communication

Le polyhandicap est un défi pour la communication et pour le développement des modalités d'expression. Preuve en est que le volet polyhandicap prévoit dans son axe stratégique 3 de favoriser la communication des personnes polyhandicapées.

Il est important de distinguer la communication réceptive de la communication expressive et de développer des outils appropriés aux capacités de chacun.

Les personnes polyhandicapées et leurs proches ont besoin de se faire comprendre (expression) et de développer leur compréhension (réception) mutuelle. Évidemment, les travaux sur les interactions précoces, les prémisses à la communication, l'expression faciale et corporelle des émotions et des affects sont précieux, mais insuffisamment utilisés pour étudier la manière dont la personne polyhandicapée peut et veut communiquer.

Cette population invite à reconsidérer les modalités de la communication qui n'est pas qu'affaire de paroles ou de symboles partagés (gestes codés, pictogrammes...) ; il est possible de communiquer par le corps, le tonus, le regard, les émissions vocales, le souffle...

Les modes de communication utilisés par l'écosystème d'une personne polyhandicapée sont parfois multiples : il y a celui du proche, peu formalisé et difficilement accessible pour autrui, celui du professionnel parfois développé dans un but fonctionnel, celui propre à l'établissement d'accueil... C'est sur cette base que peuvent se construire des habitudes de communication propres à chacun. Il est donc important de mieux repérer et analyser ces modes de communication et de compréhension mutuelle pour venir en soutien aux proches au sens large, ainsi qu'à toutes les personnes souhaitant être en interaction avec la personne polyhandicapée.

Il est aussi possible de doter la personne polyhandicapée et ses proches d'outils d'aide à l'expression et à la communication. Ces outils doivent être d'un usage agréable et demander un minimum d'effort pour ouvrir sur les interactions les plus créatives possible.

La contribution des différentes disciplines est indispensable pour œuvrer dans ce domaine d'une manière efficace en veillant toujours à évaluer l'impact des aides sur la vie quotidienne et relationnelle de la personne polyhandicapée et de ses proches. Ces études doivent impérativement concerner tous les âges de la vie.

Il est important de garder à l'esprit que la personne polyhandicapée n'évolue pas toujours dans le même cadre spatio-temporel que tout un chacun : la comprendre et se faire comprendre d'elle demandent un temps important d'observation et de confrontation des expériences des différents proches, familiaux et professionnels.

Il est nécessaire d'instaurer précocement une culture de la communication avec la personne polyhandicapée afin de favoriser un travail au long cours autour des outils de la communication.

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

- > Repérer et analyser les modalités de communication non verbale et verbale de la personne (ce qui suppose une étude de la diversité des modalités de communication).
- > Valider les méthodes et les outils de communication utilisés auprès des personnes polyhandicapées.
- > Mener des travaux pluridisciplinaires pour connaître les prérequis cognitifs, psychiques et environnementaux de la communication pour la personne polyhandicapée.
- > Etudier l'impact à court, moyen et long terme des outils de communication sur la qualité de vie, la vie psychique et relationnelle des personnes polyhandicapées et de leurs proches.

3.1.4 Aspects éthiques

Depuis la fin des années 2000, de nombreux questionnements éthiques touchant à la personne polyhandicapée émergent, sous-tendus par la volonté d'intégrer dans la cité des personnes que l'on pouvait être jusque là tenté de déshumaniser et de marginaliser.

Les questions éthiques ne peuvent se comprendre qu'à la lumière de ce qui a été dit précédemment, en particulier sur les problèmes de communication. Elle se posent en particulier :

- > lors de l'annonce du diagnostic (point de vue du praticien, des proches et de la personne polyhandicapée) ;
- > au quotidien lors de toutes les interactions entre la personne en situation de dépendance extrême et celle qui la prend en charge (position d'emprise potentielle), notamment pour les soins ;
- > à chaque fois qu'est prise une décision importante pour la personne polyhandicapée, que cela concerne sa santé, sa vie affective, relationnelle ou sa prise en charge ;
- > sur la manière dont cette décision est mise en œuvre, ou non ;
- > lorsque s'ouvrent les questions relatives à la fin de vie ;
- > au moment de la mise en place d'une recherche qui suppose d'obtenir le consentement des personnes concernées.

Les difficultés d'expression, de communication, de compréhension, l'extrême dépendance de la personne polyhandicapée imposent de se poser des questions sur la délégation de prise de décision, à leur explicitation et à leur légitimité.

Il s'agit aussi pour les proches et les professionnels de réfléchir individuellement et collégialement à la manière de concevoir et de mettre en œuvre l'accompagnement dans le cadre de l'aide à la prise de décision. Les parents et les professionnels qui demandent conseil doivent être éclairés par des experts, eux-mêmes aux prises avec une tension plus ou moins forte entre conviction personnelle et responsabilité professionnelle.

Les débats éthiques associent rarement la personne polyhandicapée et les frères et sœurs, en particulier quand les parents sont vieillissants ou décédés.

Les questions éthiques ne concernent pas de la même manière les professionnels, selon qu'ils prennent les décisions ou les appliquent, et les membres de la famille, selon qu'ils sont parents, frères, sœurs ou membres d'une famille élargie.

Giorgio Agamben parle d'une « vie nue » dont le droit se serait retiré. Dans cette situation, il y aurait une asymétrie de position entre la personne polyhandicapée et les autres, la rendant vulnérable à la « tentation souveraine » de ceux censés l'aider.

Les questions relatives à la maltraitance se posent de manière particulière dans le polyhandicap du fait de l'asymétrie radicale dans la relation d'aide et du fait que la personne polyhandicapée ne peut bien souvent opposer son point de vue au traitement qui lui est réservé.

Par ailleurs, dans ces situations, il peut arriver par exemple que refuser de donner un soin soit vécu par les uns comme de la maltraitance et par les autres comme une prise de position légitime de bientraitance.

Aussi, l'épuisement des aidants, qu'ils soient familiaux ou professionnels, peut déboucher sur des conduites maltraitantes appelant un besoin de débat éthique sur la manière de « bien » faire. Ces risques sont bien souvent endogènes au fonctionnement des équipes professionnelles ou à celui des aidants familiaux. Il convient aussi de relever les difficultés de coordination entre les différents acteurs intervenant auprès de la personne, sources de tensions et de conflits pouvant conduire à de la maltraitance.

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

- > Expérimenter et évaluer des dispositifs permettant aux proches, aux professionnels de terrain et aux chercheurs de travailler sur leurs postures/positionnements éthiques en contextualisant ces décisions et en prenant en compte l'environnement social et économique.
- > Analyser les mécanismes décisionnels à l'œuvre à l'issue d'un débat éthique, qu'il soit ou non formalisé.
- > Etudier l'annonce du diagnostic selon les différents points de vue : quelle transmission de l'annonce ? Quel vécu pour la famille ? Quelle transmission à l'enfant ?

3.1.5 Représentations sociales

Se représenter, c'est parfois juger et évaluer. Ces représentations, qu'elles soient conscientes ou inconscientes, sont ambivalentes et influencent les actions et les choix des proches, des professionnels et des institutions.

Il est possible d'accéder aux représentations des individus à partir d'entretiens (l'individu se raconte tel qu'il se pense et pense l'autre) et d'observations (qui permettent d'interroger le discours dans une confrontation aux pratiques).

La littérature a mis en évidence un certain nombre de constats concernant les représentations sociales du polyhandicap :

- > les représentations associées au polyhandicap de naissance, acquis tardivement, suite à un accident ou à l'évolution d'une maladie ne sont pas les mêmes. Par ailleurs, ces représentations ont une influence sur la manière dont les professionnels se représentent leur travail (plus ou moins noble et valorisé) ;
- > la manière de se représenter l'adolescent et l'adulte polyhandicapé sont plus péjorative que celle de l'enfant ;
- > les personnes polyhandicapées peuvent être pensées comme des « purs vivants » et non comme des « existants » ;
- > les représentations du polyhandicap dépendent en partie de la position plus ou moins distanciée qu'a la personne, mais aussi de ses missions et de sa fonction : le personnel de crèche n'a par exemple pas les mêmes exigences en matière d'acquisition de compétences que l'instituteur. De ce fait, ces deux professionnels peuvent ne pas penser et regarder l'enfant polyhandicapé de la même manière ;
- > le polyhandicap est parfois pensé sous le seul prisme du manque, de la perte de chance, de la souffrance et plus rarement sous l'angle des bénéfices et des aspects positifs d'une telle situation (bénéfices et souffrances pouvant coexister chez une même personne).

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

- > Travailler sur les représentations chez les enfants, les frères et sœurs, les enfants à l'école, chez les professionnels de milieu spécialisé ou ordinaire et dans la société en prenant en compte leur caractère ambivalent.
- > Mener des études permettant de repérer ce qui peut faire évoluer les représentations dans un sens positif.
- > Mener des recherches pour repérer si les représentations varient selon le sexe de la personne polyhandicapée.

3.1.6 Qualité de vie de la personne polyhandicapée et de ses aidants

Les échelles visant une mesure de la qualité de vie de la personne polyhandicapée, utilisées par des acteurs de disciplines et d'horizons divers, sont trop nombreuses et trop variées ; elles manquent parfois de validité scientifique. Malgré tout, il existe un consensus au sein de la communauté scientifique sur les dimensions et les variables devant être prises en compte :

- > bien-être matériel et physique ;
- > développement personnel et autonomie, autodétermination ;
- > participation sociale et citoyenneté ;
- > qualité de l'environnement matériel et humain.

Notons tout de même que les travaux qui cherchent à évaluer la qualité de vie des personnes polyhandicapées se fondent encore trop souvent sur les dires des proches (essentiellement les mères et les professionnels).

Quant aux travaux portant sur la qualité de vie des proches, il s'agit pour l'essentiel de se doter de points de repère afin de juger de la pertinence de tel dispositif, tel outil... dont l'efficacité est jugée à l'aune d'une amélioration de cette qualité de vie.

Aussi, ces travaux traitent encore trop souvent de la seule qualité de vie des parents, notamment des mères qui, certes, assurent l'essentiel de l'accompagnement et de la prise en charge à domicile.

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

- > Identifier une ou deux échelles de référence pour permettre la comparaison des résultats des différents travaux.
- > Explorer des méthodologies permettant de limiter le passage par des tiers pour évaluer la qualité de vie des personnes polyhandicapées.

3.2 Les besoins de recherche par clés d'entrée thématiques

Les thématiques évoquées à présent ont été identifiées lors des séminaires comme insuffisamment explorées par la communauté scientifique, faisant donc apparaître d'importants besoins de recherche.

Ces thématiques sont davantage centrées sur la personne polyhandicapée, sur son fonctionnement psychique et cognitif ou sur son rapport aux autres et à la société.

Évidemment, ce découpage est arbitraire, et les problématiques sont souvent transverses à plusieurs thèmes.

3.2.1 Évaluation des processus individuels

Cognition

L'évaluation de la cognition est importante pour soutenir la personne dans ses capacités et ses potentialités à développer son intelligence. Les spécificités de cette situation conduisent à adopter un modèle d'intelligence complexe : il s'agit de prendre en compte la motricité, la sensorialité, les conditions d'installation, la complexité et l'évolutivité des liens de la personne polyhandicapée aux autres.

La cognition est au croisement de phénomènes impliquant tous les sens : motricité, odeur, vision centrale et périphérique, audition, sensorialité cutanée, proprioception... Selon les personnes, un « canal » sera plus adapté à la mise en place des apprentissages. Ceci suppose une observation fine de chacune des personnes pour repérer les canaux de stimulation les plus réceptifs. Il s'agit de saisir au mieux l'organisation sensorielle et motrice, affective et cognitive du sujet (modèle multidimensionnel, modèle clinique de Georges Saulus...).

Il est important dans tout apprentissage de tenir compte :

- > du degré d'engagement de la personne ;
- > de son attention, de son état d'éveil et de vigilance ;
- > de son état physiologique (douleur) ;
- > des conditions de la sollicitation afin de favoriser la participation des sens les plus faciles à mobiliser (l'installation, le niveau sonore, la luminosité...).

Par ailleurs, il est important de combiner intelligemment les répétitions et les habituations avec les changements.

Pour le psychologue, il faut considérer les cinq éléments suivants :

- > le soi différencié (discriminer ce qui correspond à soi et à autrui) ;
- > le soi organisé (perception du corps propre comme un tout organisé) ;
- > le soi agent (être un acteur sur l'environnement) ;
- > le soi situé (situer son propre corps par rapport à l'extérieur) ;
- > le soi animé (décider de se mettre en mouvement).

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

- > Développer les travaux cliniques s'intéressant aux processus de cognition dans une démarche pluridisciplinaire (science de l'éducation, ingénierie, psychologie, neuropsychologie...).
- > Etudier le plus finement possible les spécificités de l'organisation entre psyché et corps des personnes polyhandicapées.
- > Concevoir et évaluer des dispositifs d'éducation et de rééducation.

Vie affective, émotionnelle, relationnelle et comorbidités somatiques et psychiques

Le polyhandicap associe plusieurs pathologies somatiques, parfois intriquées à des pathologies psychiques, qu'il n'est pas aisé de repérer (dépression, problèmes gastriques...). De ce fait, les familles et les professionnels sont souvent en grande difficulté quand il s'agit de déterminer si une personne souffre dans son corps (douleur), si elle est triste, dépressive, si elle a des hallucinations... Cette méconnaissance a un effet sur la nature des aides qui lui sont proposées.

Les troubles du comportement, ou « comportements problèmes », peuvent être pensés comme des signes d'appel qu'il faut décoder comme tels. Ne pas le faire peut conduire à une médication dommageable pour la personne ou au contraire à une non-action tout aussi préjudiciable. Cette souffrance psychique peut avoir, comme pour toute personne, de multiples origines. Par exemple, une maltraitance peut provoquer des souffrances psychiques non identifiées comme telles, car elles s'expriment par des agitations, des colères inexpliquées.

Dans le domaine de la vie affective, il est important de mieux prendre en compte les proches de la personne polyhandicapée, non seulement en tant qu'aidants, mais aussi en tant que personnes contribuant par leur présence et leur affection au développement de la santé psychique de la personne.

Enfin, un énorme travail est à entreprendre sur l'accès à une vie sexuelle et à ce que signifie avoir une vie sexuelle en situation de polyhandicap.

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

- > Poursuivre les travaux sur l'étude de la douleur (douleur ressentie et expression de la douleur) et sur ses impacts sur la vie psychique, affective, relationnelle...
- > Créer des protocoles et des outils d'évaluation de la douleur physique et psychique qui tiennent compte de la complexité et de la temporalité imposées par les spécificités du polyhandicap, les évaluer et veiller à la création d'un consensus permettant l'échange de données entre praticiens.
- > Développer la recherche sur la santé psychique de la personne polyhandicapée et sur son évolution tout au long de la vie (ouverture sur la psychiatrie).
- > Dans les études, ne pas se concentrer uniquement sur le lien mère-enfant et tenter de mieux connaître et d'analyser l'impact et le fonctionnement des liens avec le père, avec les pairs et plus généralement avec les accompagnants de toute nature tout au long de la vie.
- > Développer les travaux s'intéressant plus spécifiquement aux populations d'adolescents et d'adultes.
- > Conduire des travaux sur la vie sexuelle et affective des personnes polyhandicapées.

3.2.2 Parcours de vie

Les parcours de soins et d'accompagnement médico-social des personnes polyhandicapées sont variés et souvent complexes ; les ruptures à l'adolescence et à l'âge adulte sont fréquentes, mais insuffisamment repérées. De fait, le passage du secteur enfant au secteur adulte questionne l'accompagnement, les relations parents-enfant et au sein de la fratrie. Son étude demande une bonne compréhension du fonctionnement des dispositifs proposés tout au long de la vie.

Compte tenu de l'augmentation récente et importante de l'espérance de vie des personnes polyhandicapées, des questions concernant plus spécifiquement les adultes se posent, dont les réponses nécessitent des recherches spécifiques. En particulier, la question de la fin de vie invite à distinguer cette étape du parcours de vie qui peut demander des réponses spécifiques à tous les âges.

Le parcours de vie est affecté :

- > par l'âge de la personne (rupture préscolaire/scolaire, soin de l'adolescent, de l'adulte) ;
- > par l'état de santé de la personne (évolution ou involution, épisode d'aggravation de l'état...) ;
- > par l'état de santé des proches (parents vieillissants...) ;
- > par l'évolution de la personne qui peut à un moment ne plus supporter l'aide proposée parce qu'elle ne correspond plus à ses intérêts ni à ses besoins.

La question des allers-retours du milieu ordinaire vers le milieu spécialisé est décrite dans la littérature, mais les processus de choix ne sont pas clairement explicités et leurs effets sur la personne pas suffisamment repérés et analysés.

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

- > Connaître et analyser des parcours de soins, d'éducation et plus généralement les parcours de vie des personnes polyhandicapées.
- > Evaluer les fondements des choix opérés par les familles et les professionnels quant aux modalités d'accompagnement des personnes polyhandicapées.
- > Analyser la participation possible de la personne polyhandicapée aux choix qui la concernent au premier chef.

3.2.3 Accès au droit et polyhandicap

Le droit du handicap est à l'intersection de différentes formes de droit, de sorte qu'il est nécessaire en France de s'adresser à différents professionnels selon ses démarches : droit civil, droit de la famille, des personnes et de leur patrimoine, droit du dommage corporel, droit de la santé, droit de la sécurité sociale et de la protection sociale... Ce n'est pas vrai dans tous les pays ; en Angleterre, il existe un corps d'avocat spécialisé dans la défense des droits des personnes en situation de handicap.

Par ailleurs, le droit du handicap n'est que peu présent dans les cursus universitaires (quelques heures) même si l'enseignement commence à se structurer, avec notamment la mise en place récente de deux diplômes universitaires (DU). Le droit du handicap est le plus souvent appris seul par des avocats intéressés.

Ainsi, l'écosystème accompagnant au quotidien la personne polyhandicapée, qu'il s'agisse des proches ou des professionnels, est laissé dans un certain dénuement qui oblige à une organisation en réseau, notamment grâce aux possibilités offertes par internet. Il pourrait être intéressant d'étudier l'émergence de ces réseaux et leur développement.

De plus, la situation de polyhandicap ouvre de nombreuses perspectives de recherche en droit, dont la discipline ne semble pas encore s'être complètement saisie. Par exemple, comment l'appareil législatif prend-il en compte les personnes polyhandicapées ? Est-il adapté ?

Aujourd'hui, une personne polyhandicapée ne peut accéder à ses droits, y compris les plus fondamentaux, sans recourir à des dispositifs de protection juridique (de type tutelle).

Par ailleurs, un nouveau dispositif est entré en vigueur au 1^{er} janvier 2016, « l'habilitation familiale » qui permet à un membre de la famille de disposer de droits équivalents à ceux accordés à un tuteur. Aucune recherche n'existe aujourd'hui sur ce dispositif, sur ce qu'il apporte, sur la manière dont l'entourage s'en est saisi...

figure Les besoins et les pistes de recherche identifiés

- > Etudier les nouvelles formes et stratégies d'organisation individuelles et collectives dans l'accès aux droits.
- > Analyser le droit relatif au handicap au prisme du polyhandicap, notamment les dernières lois, en étudiant leur applicabilité à cette situation particulière.
- > Développer des recherches sur l'effectivité du droit dans le cas particulier des personnes polyhandicapées et s'interroger notamment sur les dispositifs de protection juridique et sur les pratiques professionnelles.

3.2.4 Aidants professionnels et familiaux

Dans le cas particulier du polyhandicap, la question de la formation et de l'information, du soutien et de l'écoute de l'expérience des aidants professionnels et familiaux, prend une dimension de plus en plus importante.

Plutôt que de parler de « répit », ce qui sous-entend que familles et professionnels sont arrivés à un tel niveau d'épuisement qu'il leur faut un temps de repos, il serait plus intéressant de parler de « relais » et de « délégations », qui ne doivent pas être proposés uniquement en situation d'épuisement. Les familles et les professionnels doivent en effet être aidés au quotidien et pas uniquement lorsqu'une limite est atteinte.

L'immense besoin en formation du personnel travaillant auprès des personnes polyhandicapées est noté, ce qui suppose de mieux diffuser les travaux de recherche et de développer ce qui contribuerait à fournir des éléments permettant aux professionnels de travailler mieux et dans de meilleures conditions.

Ce besoin de formation peut être rapproché d'une nécessaire réflexion sur les dispositifs facilitant le processus de socialisation de la personne polyhandicapée tout au long de la vie puisque le polyhandicap est évolutif et que les enjeux liés à l'accompagnement de la personne ne sont pas les mêmes au fil du temps (enfance, adolescence, âge adulte, vieillesse). Il convient dans cette thématique de prendre en compte et d'analyser l'importance et les effets de la vie associative dans le soutien qu'elle offre aux membres de la famille.

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

- > Etudier les processus de socialisation de la personne polyhandicapée et de ses proches tout au long de la vie (membres de la famille restreinte et élargie et professionnels).
- > Analyser les dispositifs institutionnels de répit et/ou relais et leur adéquation aux besoins et aux attentes des proches.
- > Prendre en compte la dimension temporelle dans l'aide des familles et mettre l'accent sur l'âge adulte et l'adolescence, moins étudiés dans la littérature.
- > Prendre en compte les dimensions psychiques, économiques et sociales de l'implication des proches comme aidants.
- > Etudier la question du genre dans les fonctions aidantes suivant l'âge de la personne ;
- > Etudier les fonctions aidantes des frères et sœurs à tous les âges de la vie.
- > Recueillir, analyser et inclure dans les formations l'expérience des aidants, mais aussi des proches familiaux pas nécessairement repérés comme aidants ou ne se reconnaissant pas comme tels.
- > Analyser et repérer ce qui fait obstacle à la formation du personnel et objectiver l'impact de ce manque de formation sur les pratiques.

3.2.5 Domotique et aides techniques

Poser la question de la domotique et des aides techniques dans le cas particulier de la personne polyhandicapée implique :

- une collaboration étroite des professionnels avec les proches pour évaluer les besoins, mais aussi la faisabilité et les possibilités d'utilisation de ces aides ;
- une évaluation fine des besoins et des capacités de la personne pour s'assurer de l'usage réel des solutions techniques mises en place ;
- un temps d'apprentissage, aussi bien pour la personne polyhandicapée que pour ses aidants familiaux et professionnels ;
- une évaluation à court, moyen et long terme de l'utilisation de l'aide technique.

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

- Développer des aides techniques susceptibles de faciliter aux aidants la réalisation de leur tâche d'accompagnement de la personne polyhandicapée.
- Evaluer les besoins d'aides techniques et l'adéquation des réponses à ces besoins.
- Evaluer l'utilisation des aides techniques, les freins et les leviers de cette utilisation.
- Avoir une approche dite au juste besoin en évitant toute surcharge cognitive et un surplus de fonctionnalités pouvant compromettre l'utilisation de ces aides et nuire au bien-être des usagers.

3.2.6 Approche économique du système sanitaire et médico-social français

Mesurer l'impact de la prise en charge du polyhandicap suppose dans un premier temps de pouvoir opérer un repérage systématique des personnes polyhandicapées dans les systèmes d'information et les bases de données. Il apparaît important de mettre à profit les initiatives existantes et de les harmoniser.

Une fois ce repérage effectué, une étude du coût de la prise en charge du polyhandicap semble nécessaire, qu'il s'agisse des dépenses de santé, d'accompagnement ou encore des coûts induits, des coûts évités... Au-delà de cette dimension monétaire, il faut considérer le coût social et sanitaire : impact sur la vie des proches et des professionnels dans toutes ses dimensions, qu'il s'agisse de la vie sociale, affective, culturelle, professionnelle, l'état de santé...

Classiquement, pareils coûts peuvent être mesurés à l'aide des pertes de productivité subies par les aidants familiaux (leurs absences du lieu de travail – mesurées en heures – multipliées par leur productivité par unité de temps considérée). Mais cela ne permet pas de saisir la totalité du coût d'opportunité de l'aide :

- qu'auraient pu faire de leur temps les aidants familiaux (travail certes, mais aussi loisirs, contributions à la vie sociale...) ?
- quelles sont les pertes de chance ou d'opportunité de carrière générées par un retrait total ou partiel du lieu de travail ?

Dans le même temps, on doit aussi considérer la possibilité que l'aide apportée par les aidants familiaux soit vécue comme une expérience positive et non exclusivement comme un fardeau. Pour se faire, il existe un besoin fort d'évaluation de l'utilité (au sens économique) ou du bénéfice retiré de l'activité d'aide par les aidants familiaux, interrogeant le fondement même de l'aide (sentiment de devoir, altruisme...), en recourant par exemple aux méthodes de l'évaluation contingente¹².

Comme dans toute initiative de ce type, il convient aussi de préciser le point de vue duquel l'analyse se place : le patient, l'aidant informel, l'aidant professionnel, l'assurance maladie ou enfin la société. Pour chacune de ces situations, il importe d'identifier et de mettre en œuvre la méthode de recueil d'informations et les modélisations économétriques associées les plus pertinentes.

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

- > Evaluer les conséquences de l'aide aux personnes polyhandicapées en incluant la santé (morbidity et mortalité), la participation sociale, l'emploi et la carrière, les revenus des aidants informels ; pour ce qui concerne les aidants professionnels : mesurer les risques professionnels spécifiques encourus. Cette évaluation peut être différenciée ou stratifiée en fonction d'un certain nombre de considérations, dont notamment le genre et la qualité de l'aidant (ascendant, conjoint, descendant, frère/sœur).
- > Mettre en œuvre les méthodes de l'apprentissage automatique (*machine learning*) à des fins d'identification des personnes polyhandicapées dans les bases de données médico-administratives lorsque cette information n'est pas implicitement contenue ou lorsqu'elle l'est, mais de manière insuffisante.
- > Colliger les coûts des soins et d'éducation des personnes polyhandicapées à partir des données du registre des maisons départementales des personnes handicapées (MDPH) et du système national d'information interrégimes de l'assurance maladie (SNIIRAM).

3.2.7 Politiques du handicap au prisme du polyhandicap

La vie sociale des personnes polyhandicapées interroge les normes sociales et les politiques du handicap qui visent actuellement l'inclusion définie selon une règle de participation, de citoyenneté, d'autodétermination et d'autonomie. Cette conception repose sur une socialisation qui implique que les personnes soient dans l'interaction : au sein de la famille, des lieux d'éducation, de loisirs et plus globalement de la société. Les freins potentiels à la participation sociale sont de diverses natures et appellent une approche pluridisciplinaire.

La question de la socialisation au polyhandicap ouvre sur celle, plus large, de la place faite aux personnes polyhandicapées dans la société (dans la « cité »), puisqu'être sensibilisé à la question du polyhandicap suppose d'être en mesure de concevoir des lieux de vie, des espaces de loisirs, d'éducation... tenant compte des spécificités de la personne polyhandicapée. Ces spécificités conduisent à une réflexion sur la restructuration de la conception de l'institutionnalisation et de sa mise en œuvre.

¹² Voir à cet effet le module d'évaluation contingente réalisé à l'occasion de l'enquête Handicap-Santé Aidants (HSA) à l'initiative de la CNSA en 2008 et couplée à l'enquête Handicap-Santé Ménages (HSM).

Le virage inclusif affirmé par les politiques de l'autonomie dans le secteur médico-social s'accompagne d'une remise en cause de la place de l'institution (établissement) dans le parcours de vie et le parcours de soins des personnes. Cette « désinstitutionnalisation » est présentée comme un horizon souhaitable plus respectueux des choix individuels pour tous les publics. Apparaît là un enjeu de connaissance des besoins spécifiques des personnes polyhandicapées, mais également de l'impact d'une telle politique sur leurs parcours. Dans quelle mesure les solutions construites pour tendre vers cet idéal de la société inclusive porté par le politique sont-elles respectueuses des besoins de chaque personne polyhandicapée ?

La recherche, en particulier en sociologie, doit aussi permettre de déconstruire et de comprendre ce qui se cache derrière certaines orientations sociales prônant l'inclusion.

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

- > analyser les normes de participation sociale au prisme du polyhandicap ;
- > étudier la place donnée et prise par les personnes polyhandicapées et par leurs proches dans la société (stratégies individuelles et collectives, modalités de participations...) ;
- > évaluer les différentes modalités du « vivre ensemble » et ses effets pour la personne polyhandicapée, les familles, les professionnels et la société dans son ensemble (accompagnement, participation sociale...) ;
- > interroger les pratiques dans les différents pays européens et les comparer avec le modèle français.

4 Tour d'horizon des données disponibles ou à venir sur le polyhandicap

À partir d'un travail de recension des sources de données, sont ici restituées les principales conclusions sur les potentiels d'exploitation de ces données pour produire des connaissances sur le polyhandicap en France.

Ce travail de recension a été réalisé dans le cadre des réunions et des discussions du groupe de travail « cohorte » chargé de l'étude d'opportunité d'une cohorte. Son objectif est de s'interroger sur la nécessité de mettre en place une telle infrastructure de recherche au regard des dispositifs de recueil de données existants susceptibles d'identifier des personnes polyhandicapées en France et à l'international, et des possibilités de leur exploitation. Autrement dit, compte tenu de ce que nous apprend l'état des lieux des données qui suit, est-il nécessaire de mettre en place une cohorte ? C'est à cette question qu'il s'agit de répondre.

Ainsi, sont ici présentées les principales sources de données internationales et françaises avant qu'elles ne soient discutées. On distingue plusieurs types de données :

- les données issues des registres constitués sur la base de l'enregistrement systématique de tout nouveau sujet porteur de la caractéristique recherchée (maladie, malformation, handicap...). Ces registres ont pour objectif principal de connaître la survenance d'une maladie ou d'un décès dans une population donnée sur un territoire géographique précis ;
- les données issues des enquêtes constituées sur la base d'un échantillon de sujets représentatif de la population ayant la caractéristique recherchée. Les données d'enquête permettent d'avoir une « photographie » d'une population donnée à un moment précis ;
- les données issues des cohortes constituées sur la base d'un suivi longitudinal (dans le temps) d'un échantillon de sujets représentatif de la population ayant la caractéristique recherchée. Contrairement aux données d'enquêtes, les données issues des cohortes permettent donc d'étudier l'évolution dans le temps d'une population donnée ;
- les données issues des bases médico-administratives constituées sur la base d'un recueil systématique de l'information, poursuivant le plus souvent un objectif autre que celui de la recherche (outils de tarification par exemple). Ces systèmes d'information centralisés présentent l'avantage de couvrir de façon exhaustive et permanente l'ensemble de la population.

Le lecteur intéressé pourra utilement se reporter au document de travail de l'IReSP ainsi qu'aux fiches de synthèses par source compilées (voir l'annexe 5 qui recense la liste des documents annexes à ce rapport).

4.1 Le repérage des situations de polyhandicap dans les données internationales

Le repérage des situations de polyhandicap dans les données internationales n'est pas chose facile, le terme même de polyhandicap n'ayant pas d'équivalent à l'étranger (voir *supra* 1.2 : « Interroger l'opportunité d'une recherche spécifique sur le polyhandicap »). Il est alors nécessaire de considérer des sources de données permettant de qualifier des situations induisant du polyhandicap pour conduire un travail de recension.

La *Millennium Cohort Study* (MCS) est une cohorte de naissance multicentrique britannique de plus de 19 000 enfants nés sur 398 sites différents du Royaume-Uni en 2000 et 2001. Cette cohorte permet de documenter les conditions de vie des enfants nés au début du siècle dans leur dimension sociale et économique, ainsi que leur état de santé et d'en analyser les conséquences tout au long de leur développement. Elle devrait notamment permettre de déterminer le poids du contexte familial sur le développement et les trajectoires de vie dans l'enfance, l'adolescence et à l'entrée dans l'âge adulte.

Les principales données disponibles concernent la santé de l'enfant, les déficiences, le recours à des structures d'hébergement médico-sociales, le type de ressources des familles (y compris les prestations sociales). Des évaluations régulières sur le développement cognitif, l'autonomie, l'anthropométrie, l'activité physique... permettent de collecter des données cliniques grâce auxquelles il serait possible de reconstruire des situations de handicap complexe et, probablement de manière imprécise, des situations de polyhandicap. Une vérification auprès des investigateurs de cette cohorte serait toutefois nécessaire pour confirmer cette possibilité.

D'autres questionnaires de cohortes de naissance ont été étudiés, qui recensent à quelques différences près le même type d'informations de manière plus ou moins précise, notamment sur le fonctionnement cognitif, moteur et sur les limitations :

- > l'étude longitudinale du développement des enfants du Québec (ELDEQ) réalisée sur plus de 2 000 nourrissons ;
- > l'étude Evaluating the Longitudinal Impact using Neurological and Nutritional Endpoints (BASELINE) réalisée sur plus de 2 000 enfants en Irlande.

Sous réserve de confirmation auprès des investigateurs, ces cohortes d'enfants constituées dans un grand nombre de pays (Danemark, Pays-Bas, Norvège, Espagne, Australie, Nouvelle-Zélande, Inde...) permettraient de repérer des situations de polyhandicap. À cet égard, il pourrait être intéressant de travailler à une meilleure représentativité des situations de polyhandicap dans les cohortes de naissance étrangères afin de disposer d'outils de comparaison à l'international.

Par ailleurs, ces cohortes se regroupant de plus en plus au sein de larges consortiums internationaux, une opportunité de suréchantillonner les enfants polyhandicapés sur la base de critères communs pourrait apparaître. Cela permettrait de bénéficier d'informations sur l'environnement familial, sur l'historique depuis la naissance, sur la santé maternelle, sur l'exposition à certains facteurs de risques..., mais surtout de disposer d'un suivi des enfants dans une perspective « vie entière ».

Enfin, un réseau européen de surveillance de la paralysie cérébrale¹³ constitué de 24 registres nationaux (dont 16 actifs) a été mis en place en 1998 avec l'objectif d'harmoniser les données d'enregistrement de cas d'enfants atteints de paralysie cérébrale et de développer des projets de recherche transnationaux. La base ainsi constituée recense plus de 18 000 cas d'enfants avec paralysie cérébrale nés entre 1976 et 2005 en Allemagne, Autriche, Belgique, Danemark, Espagne, France, Irlande, Norvège, Portugal... Elle permettrait l'étude de sous-populations spécifiques, ce que ne permet pas l'exploitation d'un registre national, faute de puissance statistique.

À l'international, avec des vocables PIMD ou SMID comme termes associés au polyhandicap, il n'existe pas véritablement de dispositif de recueil de données longitudinal autre que ponctuel dans le cadre d'études à visée descriptive ou de connaissance clinique.

On peut citer l'étude conduite en Écosse par J. Hogg¹⁴ dont les résultats ont été publiés en 2007 et qui s'intéressait aux causes de décès liées au PIMD sur la base de deux recueils de données à dix ans d'intervalle.

Au Japon, T. Hanaoka¹⁵ a publié en 2010 une étude de survie à partir d'un registre de population atteinte de SMID et vivant dans des institutions publiques ou privées entre 1961 et 2003, ce registre étant actualisé chaque année des événements de vie et de décès de ces personnes.

Ce qu'il faut retenir du repérage des situations de polyhandicap dans les données internationales

De nombreuses cohortes de naissance ou d'enfants existent à l'international. Elles permettraient peut-être des exploitations secondaires intéressantes, mais aucune infrastructure de recherche dans le champ du polyhandicap ou des situations apparentées n'a pu être identifiée.

4.2 Le repérage des situations de polyhandicap dans les données françaises

Le travail de recensement des sources de données pouvant documenter des situations de type « polyhandicap » a permis d'identifier quatre catégories de sources de données françaises :

- > des infrastructures de recherche à visée épidémiologique ;
- > des enquêtes de référence sur le handicap produites par la DREES : enquêtes en population générale ou auprès des établissements ;
- > des enquêtes et cohortes dédiées au polyhandicap ;
- > des bases de données médico-administratives et leur devenir dans le cadre du SNDS.

Il s'agit dans la suite du propos de détailler ces sources de données.

¹³ Surveillance of Cerebral Palsy in Europe (SCPE-Net)

¹⁴ Hogg J, Juhlberg K, Lambe L. Policy, service pathways and mortality : a 10-year longitudinal study of people with profound intellectual and multiple disabilities. *Journal of Intellectual Disability Research*, mai 2017 ; 51(5) : 366-76

¹⁵ Hanaoka T, Mita K, Hiramoto A, Suzuki Y, Maruyama S, Nakadate T, et al. Survival Prognosis of Japanese With Severe Mental And Intellectual Disabilities Living In Public And Private Institutions Between 1961 and 2003. *Journal of Epidemiology*. 2010 ; 20(1) : 77-91

4.2.1 Les infrastructures de recherche en santé de l'enfant et de l'adulte à visée épidémiologique

Ce type d'infrastructure doit permettre de suivre l'évolution de la prévalence de pathologies susceptibles de perturber le développement de l'enfant et/ou de dégrader sa santé, ainsi que celle de l'adulte, tout au long de la vie. Elle permet aussi d'éclairer les pouvoirs publics et les professionnels de terrain sur les actions de santé publique à mener.

Deux registres du handicap de l'enfant pour estimer la prévalence

Deux registres territoriaux des handicaps de l'enfant permettent une estimation de la prévalence pour quelques grandes catégories de combinaisons de déficiences, dont le polyhandicap : le registre RHEOP (Isère, Savoie et Haute-Savoie) et le registre RHE31 (Haute-Garonne). Il s'agit entre autres de décrire les caractéristiques des déficiences sévères de l'enfant, de surveiller leur évolution et leur prévalence, de décrire les prises en charge éducatives et médicales. La caractérisation du polyhandicap dans ces registres se fait sur la base de critère de mobilité et de déficiences intellectuelles. Il est possible de coller à une définition stricte du polyhandicap (grabataires avec un retard mental profond) ou élargie (en relâchant la sévérité motrice et/ou de la déficience intellectuelle), de même ces sources permettent d'estimer les recoupements entre différentes cibles populationnelles (polyhandicap, paralysie cérébrale, PIMD).

Des cohortes en population générale pauvres en données sur les situations (rares) de polyhandicap

Les investigations ont permis d'identifier plusieurs cohortes de naissance (dont la cohorte ELFE, et la cohorte EDEN) qui organisent le recueil d'informations relatives à la santé maternelle, à l'exposition à certains facteurs de risque, à l'environnement familial de l'enfant, à l'évolution de sa santé, tout ceci dans une perspective longitudinale. L'exhaustivité des informations disponibles devrait permettre d'identifier les enfants polyhandicapés (par la combinaison de variables, sur la base d'une déficience intellectuelle et d'une déficience motrice sévère). Mais, d'après les informations recueillies, ceux-ci y seraient beaucoup trop peu nombreux pour que les données collectées soient exploitables.

Conçue par l'INSERM, la cohorte CONSTANCES, grande cohorte épidémiologique longitudinale (plus de 200 000 inclusions) doit fournir des informations à visée de santé publique (estimation de prévalence de pathologies et de facteurs de risque ; surveillance épidémiologique) et contribuer au développement de la recherche et de la surveillance épidémiologique. Parmi les thèmes abordés, on peut citer les relations entre travail et santé, les trajectoires et les expositions professionnelles, le vieillissement et les maladies chroniques, les inégalités sociales de santé et la santé des femmes. Basée sur le volontariat, la participation à cette cohorte suppose des déplacements réguliers dans les centres de santé partenaires pour la réalisation d'évaluation médicale. Cet élément d'inclusion élimine de fait une frange importante de la population caractérisée par des handicaps lourds, dont les personnes polyhandicapées.

📌 Ce qu'il faut retenir des infrastructures de recherche française en santé de l'enfant et de l'adulte à visée épidémiologique

Les registres du handicap de l'enfant permettent tout au plus un dénombrement des situations de polyhandicap, leur objectif principal étant la simple étude de la prévalence.

Les cohortes en population générale, quoique riches par les données qu'elles produisent, ne permettent pas d'en apprendre plus sur les situations de polyhandicap, largement sous-représentées.

4.2.2 Les enquêtes de référence sur le handicap produites par la DREES

La Direction de la recherche, des études, de l'évaluation et des statistiques (DREES) a développé un appareil statistique autour de dispositifs d'enquêtes et de remontées de données administratives dans le champ de la perte d'autonomie (handicap et dépendance) pour répondre au double objectif de suivi des politiques publiques et de connaissance des populations en perte d'autonomie. On peut citer :

- les enquêtes auprès des établissements et services ;
- le suivi des bénéficiaires de prestation à partir des données administratives ;
- les enquêtes spécifiques auprès des usagers ou des bénéficiaires de dispositifs ;
- des enquêtes en population générale auprès des personnes.

Compte tenu de l'objectif qui est le nôtre, à savoir le repérage des situations de polyhandicap dans les données d'enquêtes, nous nous attacherons à restituer les résultats de nos investigations pour les enquêtes Handicap-Santé et Établissements et Services pour personnes en situation de handicap.

La connaissance des personnes et des situations de handicap : les enquêtes Handicap-Santé (HS)

Conduite par l'Institut national de la statistique et des études économiques (INSEE) et la DREES en 2008-2009, l'enquête Handicap-Santé comprend un volet « ménages » (HSM) et un volet « institution » (HSI) et poursuit un objectif de connaissance de la population en situation de handicap ou dépendante (nature, quantité et origine des aides existantes, besoins non satisfaits, date de survenance des incapacités...). Elle intègre également un volet « aidants informels » qui permet de caractériser les aidants non professionnels. Elle est réalisée en population générale sur la France entière :

29 931 répondants pour le volet HSM (personnes vivant en ménage ordinaire), 9 104 répondants pour le volet HSI (personnes résidant dans les 1 500 structures tirées au sort) et 5 000 répondants pour le volet HSA (les aidants ont été identifiés *via* le volet HSM).

Pour le volet HSM et HSI, hormis quelques particularités, les questionnaires sont presque similaires, et les données suivantes sont disponibles : un module de base traitant principalement des caractéristiques de la population (et de parcours dans HSI), un module sur l'état de santé et sur le recours au soin (B), un module sur les déficiences (par grande catégorie de déficience) et sur l'histoire de leur apparition (C), un module sur l'aide technique reçue (D), un sur les limitations fonctionnelles (E) et un autre sur les restrictions d'activité (F). D'autres modules viennent compléter ces éléments avec des informations sur l'environnement, les loisirs et les relations sociales, le soutien affectif, l'aide humaine apportée, l'aménagement des espaces de vie et l'accessibilité, les revenus et les prestations reçues, la connaissance des dispositifs d'aide et le sentiment de discrimination. Le volet HSI fournit en plus des informations sur les structures, les équipements, le taux de rotation des résidents...

Dans son volet aidant, l'enquête permet le recueil d'informations concernant : le mode de vie de l'aidant (A), la nature de la relation avec la personne aidée (B), la description de l'aide (C), la relation avec les aidants professionnels de santé et du secteur social (D), le vécu de l'aide et l'état de santé (E), les conséquences de l'aide sur les relations sociales (F), le parcours professionnel (G) et les activités (H), les besoins de l'aidant (I) s'il est aidant d'autres personnes ayant un problème de santé ou un handicap¹⁶ (J) et enfin l'estimation de la valeur subjective et monétaire de l'aide donnée (K).

Cette enquête ne retient pas d'item spécifique pour déclarer une situation de polyhandicap. Mais la combinaison des différentes informations présentes dans les différents modules – état de santé (B), déficiences et date d'apparition (C), aides techniques (D), limitations fonctionnelles (E), limitations d'activités (F) – permettrait *a priori* de reconstituer de manière assez précise des situations de polyhandicap (sur la base d'une déficience cognitive et d'une déficience motrice sévères et de restriction importante de l'autonomie apparues dans la prime enfance). De plus, ces données devraient permettre d'étudier l'éligibilité aux prestations de compensation du handicap (module L) et l'orientation en EMS.

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

- > Une exploitation secondaire de HSM et de HSI devrait produire des éléments de connaissance quantitatifs (estimation épidémiologique) et qualitatifs (profils) intéressants et surtout constituer une préparation utile à la future enquête Autonomie prévue en 2020/2021 pour actualiser ces enquêtes en population générale sur la perte d'autonomie. Ce travail permettrait d'affiner les questionnements les plus à même de correctement identifier les situations de polyhandicap.
- > Cette enquête étant appariée au SNIIRAM, une recherche sur les marqueurs du polyhandicap dans la consommation de soin serait très utile. En cas de marqueurs fiables, cela ouvrirait des pistes pour l'étude de la prévalence (voir *infra* SNDS).

Ce qu'il faut retenir de l'enquête Handicap-Santé

Dernière grande enquête de référence sur le handicap dont les données sont déjà anciennes (2008-2009), l'enquête HS permet de documenter à l'échelle individuelle des tableaux cliniques, fonctionnels et sociaux et également de caractériser les aidants et la relation d'aide.

Elle ne permet pas un repérage direct du polyhandicap. Pour autant, un repérage au moyen d'un algorithme (à définir) reprenant les informations des différents modules devrait être possible.

¹⁶ Pour rappel, l'enquête HSA a été réalisée auprès d'aidants de personnes identifiées dans l'enquête HSM ou HSI.

La connaissance des personnes polyhandicapées usagères des établissements et services médico-sociaux : l'enquête ES Handicap

L'enquête auprès des établissements et services pour enfants et adultes handicapés (ES Handicap) est conduite par la DREES tous les quatre ans auprès des directeurs des ESMS (dernier recueil en 2018). Ses objectifs principaux sont de décrire l'activité des ESMS, le profil des personnes accompagnées ou sorties au cours de l'année précédente, mais également du personnel en fonction. Ces informations constituent un outil précieux d'aide à la planification des places dans les structures médico-sociales (par l'État, les collectivités locales, les structures gestionnaires...) en décrivant, au moins quantitativement, les moyens mis en œuvre et les besoins couverts par ce système de prise en charge.

Ainsi sont récoltées des informations sur l'offre (type d'accueil ou d'accompagnement, lieu, capacité, agrément, taux d'encadrement...) et sur les usagers (département, âge, sexe, déficience principale et déficiences associées, étiologie du handicap, modalité d'accueil, scolarité, parcours...) leur situation antérieure à l'orientation et la situation à la sortie (si celle-ci est intervenue l'année de l'enquête).

Les derniers résultats d'enquête disponibles sont ceux de 2014. On y apprend que 5 700 places sont ouvertes en établissements pour enfants ou adolescents polyhandicapés (taux d'occupation de 100 %) ; pour la population adulte, la nomenclature ne faisant pas apparaître d'établissement spécialisé, on apprend que 3 200 places sont ouvertes en foyer d'accueil médicalisé (FAM) avec un agrément « Polyhandicapés », et 15 200 en maison d'accueil spécialisée (MAS), qui sont les principaux lieux d'accueil des populations adultes.

Les personnes polyhandicapées peuvent donc faire l'objet d'un premier repérage à travers la catégorie d'établissement pour les publics enfants et adolescents ou l'agrément de l'unité d'accueil. Il est également possible de les repérer plus finement dès lors que le polyhandicap est déclaré comme déficience principale ou associée dans le questionnaire (code 90). Ce code définit le polyhandicap comme une déficience mentale grave associée à une déficience motrice importante sans notion de restriction extrême de l'autonomie (cette définition est la même depuis l'enquête de 1995).

Nous avons néanmoins relevé des limites à ce codage. Le polyhandicap n'est codé comme déficience principale que pour 70 % des enfants/adolescents accueillis en établissements spécialisés. De plus, alors que 55 % des places ouvertes en MAS ont un agrément « Polyhandicapés », le polyhandicap n'est codé comme déficience principale que pour 27 % des adultes accueillis ; le même constat peut être fait pour les FAM, même si l'écart est de moindre ampleur (12 % des places ont un agrément « Polyhandicapés », mais le polyhandicap n'est déclaré comme déficience principale que pour 8 % des adultes accueillis).

Selon la DREES, les enfants polyhandicapés seraient assez bien repérés par l'enquête ; elle couvrirait sans doute moins bien les adultes, plus souvent hospitalisés ou pris en charge à domicile.

Enfin, cette enquête ne permet malheureusement pas d'opérer un suivi des individus d'une vague d'enquête à l'autre. Aussi, peu de données sont recueillies sur le contexte de vie initial et sur l'origine sociale des enfants et des adultes accueillis, autant d'éléments pouvant documenter des ruptures de parcours.

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

- > Une actualisation des travaux de 2005 sur les données 2001 de l'enquête ES (études et résultats de la DREES n° 391) sur l'ensemble des connaissances disponibles *via* les enquêtes ES sur le polyhandicap serait souhaitable.
- > Si l'enquête ne permet pas de constituer des données de panel (c'est-à-dire de suivre une même personne dans le temps), des comparaisons par vague pourraient cependant apporter des connaissances sur les profils des résidents, notamment sur leur âge et les modalités de prise en charge.
- > Des travaux démographiques sur les données de sortie pourraient fournir des données de mortalité par âge.
- > Enfin et surtout, un travail d'audit du codage des déficiences principales et du recours à la codification polyhandicap permettrait de mieux apprécier la façon dont les acteurs de terrain identifient le polyhandicap (ici les établissements, mais la question se pose aussi pour les MDPH – voir *infra*).

📌 Ce qu'il faut retenir de l'enquête Établissements et services pour enfants et adultes handicapés

L'enquête ES Handicap vise essentiellement la production de connaissances sur l'offre en ESMS – activité des structures, profil du personnel en fonction – et sur le public accueilli – pathologies, déficiences, incapacités... Il ne s'agit donc pas de données individuelles, mais de données agrégées, qui permettent néanmoins d'identifier des parcours types sur la base des dates d'entrée, de sortie et du mode d'accueil à la sortie.

Le repérage du polyhandicap s'opère au moyen de la déclaration du polyhandicap comme déficience principale.

À noter : il existe également une enquête administrative aujourd'hui non accessible en *open data* qui porte sur les enfants accompagnés par les centres d'action médico-sociale précoce (CAMSP). Les CAMSP ont pour mission de dépister et de proposer une prise en charge en ambulatoire et en rééducation aux enfants âgées de zéro à six ans présentant des déficits sensoriels, moteurs ou intellectuels et sont tenus de réaliser annuellement un rapport d'activité servant de base à la synthèse nationale publiée par la CNSA. Le repérage des situations de polyhandicap chez l'enfant est rendu possible par le codage de la déficience principale, dont le polyhandicap (la déficience principale n'est pas forcément celle qui est au premier plan ni forcément la plus ancienne, mais bien celle qui est à l'origine du handicap le plus invalidant présenté par l'enfant au moment de l'évaluation par les professionnels). Cette source sera nécessairement ouverte à terme (législation relative à l'ouverture des données) et offrira une base de connaissance supplémentaire sur la prise en charge des enfants polyhandicapés.

4.2.3 Les cohortes spécifiques

Ce type d'infrastructure doit permettre de suivre les effets d'une pathologie spécifique sur un certain nombre de dimensions de la vie de la personne, pathologie dont on suppose qu'elle peut avoir de forts enjeux de santé publique, d'où cette volonté de mieux en saisir toutes les implications.

Une cohorte dédiée aux complications orthopédiques dans la paralysie cérébrale : la cohorte PC

Portée par le groupement hospitalier Est, hospices civils de Lyon, la cohorte multicentrique d'enfants atteints de paralysie cérébrale (cohorte PC) a pour objectif principal d'estimer l'incidence d'une forme bilatérale sévère de paralysie cérébrale et d'en décrire les évolutions et les facteurs associés.

Les 300 enfants inclus (chiffres de 2017) avaient entre deux et dix ans à l'inclusion (premier recueil en 2009) et présentaient une paralysie cérébrale survenue avant l'âge de deux ans avec atteinte bilatérale sévère non évolutive, associée à la présence d'une déficience intellectuelle sévère. Il est prévu de les suivre annuellement pendant dix ans (sur la base d'un questionnaire standardisé).

L'objectif principal de cette étude est très ciblé : il s'agit d'établir l'incidence des complications orthopédiques (scoliose et excentration de hanche) en fonction de l'âge des patients et de décrire la séquence temporelle de survenue de ces complications et de la douleur associée, d'explorer l'impact de l'état nutritionnel, du traitement chirurgical, des postures asymétriques et des facteurs environnementaux et de décrire le suivi médical et rééducatif dont font l'objet ces patients.

Du fait de la gravité de la paralysie cérébrale, on compterait 75 % d'enfants polyhandicapés dans cette population.

Ce qu'il faut retenir de la cohorte paralysie cérébrale (PC)

La cohorte PC vise essentiellement le recueil d'information sur les complications orthopédiques (scoliose et excentration de hanche) en fonction de l'âge des patients.

Compte tenu des critères d'inclusion – atteinte bilatérale sévère non évolutive associée à une déficience intellectuelle sévère –, on compterait près de 75 % d'enfants polyhandicapés dans cette cohorte de 300 enfants.

La préfiguration d'une cohorte de personnes polyhandicapées : le projet Eval-PLH

Lancé en 2015, le projet Eval-PLH se conçoit comme la préfiguration d'un projet plus ambitieux de mise en place d'une cohorte nationale multicentrique de personnes polyhandicapées (enfants et adultes). Une première vague de recueil de données a été réalisée, qui en appelle d'autres pour pouvoir véritablement parler de « cohorte ».

Ce projet poursuit divers objectifs : identification des déterminants épidémiologiques, médicaux, médico-sociaux, économiques, comportementaux et environnement du polyhandicap, caractérisation de sous-populations selon la sévérité du polyhandicap, évaluation de la lourdeur des soins, de la qualité de vie et description de l'histoire naturelle du polyhandicap.

Actuellement, ce sont près de 900 personnes polyhandicapées (enfants et adultes), 441 aidants familiaux et plus de 321 aidants professionnels qui sont inclus dans cette étude à partir d'un recrutement dans les services de SSR, les établissements médico-sociaux des régions Île-de-France, Provence-Alpes-Côte d'Azur et Aquitaine et le domicile (consultations neuropédiatriques de l'hôpital Trousseau). La caractérisation du polyhandicap repose sur cinq critères :

- avoir une atteinte ou une lésion cérébrale survenue avant l'âge de trois ans ;
- présenter une déficience mentale profonde (quotient intellectuel – QI – inférieur à 40 ou non évaluable) ;
- présenter un handicap moteur (para-tétraparésies, ataxies, troubles moteurs extrapyramidaux, troubles neuromusculaires) ;
- avoir une mobilité réduite (mesure de la fonction motrice avec le score GMFCS III à V) ;
- présenter une restriction extrême de l'autonomie (mesure d'indépendance fonctionnelle – MIF – inférieure à 55).

Les investigateurs ont donc choisi de retenir des critères d'inclusion se rapprochant d'une définition stricte du polyhandicap (notamment l'âge de survenue de la lésion cérébrale).

À terme, il est envisagé que les participants soient suivis à l'hôpital (en services spécialisés de neuropédiatrie ou de médecine physique et de réadaptation – MPR) ou en établissement au rythme d'une visite annuelle (ou plus en cas d'événement intercurrent).

Les familles et les aidants professionnels sont fortement impliqués dans cette étude, adhérant aux objectifs et consentant aux exigences du suivi longitudinal.

Ce qu'il faut retenir du projet Eval-PLH

Cette étude qui ambitionne d'évoluer vers une cohorte entièrement dédiée à l'étude du polyhandicap et construite selon une définition stricte de celui-ci constitue une première expérience importante dans la perspective d'une infrastructure de recherche nationale ; elle a par ailleurs déjà fait l'objet de plusieurs publications dans des revues internationales. Cependant, il faut s'assurer de sa représentativité de toutes les situations de polyhandicap, que ce soit en SSR, en établissement ou à domicile.

4.2.4 Les bases de données médico-administratives et la perspective du SNDS

Le groupe de travail « cohorte » a cherché à évaluer ce que seront les possibilités offertes par le futur SNDS qui intégrera sous la forme d'une unique infrastructure de données les principales bases de données de santé nationales : les données de l'Assurance maladie (SNIIRAM), les données des hospitalisations (PMSI), les données des causes médicales de décès (CépiDC), les données relatives au handicap (SI harmonisé des MDPH), ainsi qu'un échantillon de données en provenance des organismes d'assurance maladie complémentaire.

Pour évaluer le potentiel de connaissance des situations de polyhandicap offertes par cette source, le groupe a d'abord examiné ce que sont les apports de chacune de ses composantes. Le diagnostic posé n'est pas totalement finalisé compte tenu de l'absence totale de connaissance des pratiques de codage sur bien des sources, notamment sur le futur système d'information des MDPH. Une autre incertitude porte sur le calendrier de mise à disposition effective de ces données.

Les données d'hospitalisation : le programme de médicalisation des systèmes d'information (PMSI)

C'est l'Agence technique de l'information sur l'hospitalisation (ATIH) qui est chargée du recueil et du traitement annuel des données du PMSI. Ce système d'information permet de décrire depuis 1998 de façon synthétique et standardisée l'activité médicale des établissements de santé (les données sont fiables depuis 2008). Il repose sur l'enregistrement de données médico-administratives normalisées dans un recueil standard d'information. Son objectif principal est de procéder à l'analyse de l'activité médicale des établissements hospitaliers à des fins d'allocation budgétaire.

Le PMSI recense les données des établissements sanitaires publics ou privés de court séjour en médecine, chirurgie et obstétrique (MCO), de soins de suite et de réadaptation (SSR), de psychiatrie (RIM-P) et d'hospitalisation à domicile (HAD) sur le territoire national. En 2017, cela représentait 3 308 établissements de santé et 12,7 millions d'hospitalisations.

Plusieurs types de données sont recueillies :

- > variables administratives ou médico-administratives : patient (identité, âge, sexe...), séjour (date d'entrée, mode d'entrée et provenance, unité médicale...) et code d'autorisation et type d'activité ;
- > diagnostics : caractéristiques du patient (antécédents personnels et familiaux, facteurs sociaux...), codage des maladies, diagnostic (principal, relié, associé) ;
- > actes médico-techniques ;
- > niveau de dépendance du patient : échelles AVQ et IK ;
- > consommables.

À noter : ce recueil de données ne vise pas la description du patient, mais bien des actes qui sont pratiqués et soumis à remboursements par l'Assurance maladie.

De plus, selon le secteur d'activité, ces actes ne sont pas soumis aux mêmes règles de tarification, et les données du PMSI ne sont pas toujours codées sur la base de la même nomenclature (la dépendance n'est pas codée dans champ MCO).

Un fichier de chaînage des séjours par patient est également disponible, qui permet une analyse statistique par patient et l'étude de leur trajectoire hospitalière (depuis 2001 pour les champs MCO et SSR, 2005 pour l'HAD, et 2008 pour le RIM-P).

L'ATIH identifie le polyhandicap lourd depuis 2013 via une combinaison de quatre codes de la Classification internationale des maladies (CIM-10), chacun issu des listes suivantes :

- > Liste 1 : déficiences mentales ou psychiatriques sévères ;
- > Liste 2 : troubles moteurs ;
- > Liste 3 : critères de mobilité réduite ;
- > Liste 4 : restrictions extrêmes de l'autonomie.

Au moins un code de chacune des quatre listes doit être présent dans le résumé de sortie standardisé (RSS) pour affirmer le polyhandicap lourd.

Cette combinaison de codes est très peu utilisée par les services, voire inconnue pour une majorité de professionnels médicaux qui ne prendront donc pas nécessairement le temps de renseigner au moins un code de chacune de ces listes alors même qu'ils prennent en charge une personne polyhandicapée. De plus, cet algorithme ne semble pas des plus robustes au regard des tableaux cliniques qu'il permet de qualifier, qui vont au-delà des situations de polyhandicap.

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

- > analyser la pertinence de l'algorithme de l'ATIH pour identifier des situations de polyhandicap et réaliser un audit de son usage ;
- > affiner l'algorithme qui pourrait être complété par l'apport des codages utilisés en SSR informant sur des interventions plus spécifiques liées à la prise en charge complexe du polyhandicap. De même, l'apport des échelles de dépendance permettrait d'affiner le repérage.

📌 Ce qu'il faut retenir du programme de médicalisation des systèmes d'informations

Le PMSI documente de manière exhaustive le passage à l'hôpital de toute personne ayant un numéro de sécurité sociale : diagnostic, actes médicaux et techniques, niveau de dépendance et consommables. En revanche, il n'offre aucune donnée clinique (c'est un outil de tarification).

L'ATIH a développé un algorithme de repérage du polyhandicap qui mériterait d'être évalué ; il est par ailleurs très peu utilisé et sans doute trop général.

Les données de l'Assurance maladie : le système national d'information interrégimes de l'assurance maladie (SNIIRAM)

Créé en 1999 par la loi de financement de la Sécurité sociale, et géré par la Caisse nationale d'assurance maladie des travailleurs salariés (CNAMTS), le SNIIRAM est un entrepôt regroupant sous forme pseudonymisée les données du PMSI gérées par l'ATIH relatives à l'activité hospitalière et les données de remboursements de soins effectués par l'ensemble des régimes de l'Assurance maladie. Ses objectifs sont de contribuer à une meilleure gestion de l'Assurance maladie et des politiques de santé (notamment par le suivi et l'analyse des dépenses), d'améliorer la qualité des soins et de transmettre aux professionnels de santé les informations pertinentes sur leur activité.

Le SNIIRAM constitue donc une base de données complète et détaillée (depuis 2002) sur le parcours des patients à travers le système de soins qui font l'objet d'un remboursement par l'Assurance maladie. Ces données sont disponibles sous trois formes :

- > quinze bases de données thématiques (données agrégées) ;
- > l'échantillon général des bénéficiaires (EGB) qui permet la réalisation d'analyses longitudinales chez 660 000 patients (tirés au sort sur la base de la clé de sécurité du numéro d'inscription au répertoire – NIR) ;
- > une base comprenant la totalité des personnes protégées par un régime d'assurance maladie, permettant la réalisation d'études sur la consommation de soins.

Plusieurs types de données sont recueillies :

- > sur le bénéficiaire : âge, sexe, bénéficie de la CMU-C, diagnostic de l'affection longue durée (ALD – si prise en charge à 100 %), commune et département de résidence et, le cas échéant, date de décès ;
- > sur la consommation de soins en ville : dates de soins et de remboursements, ainsi que les montants remboursés par l'Assurance maladie et payés par le patient, le codage détaillé des médicaments délivrés, des actes techniques, des dispositifs médicaux, des prélèvements biologiques ;
- > sur la consommation de soins en établissements : les séjours du PMSI pour les établissements sanitaires et les séjours facturés directement à l'Assurance maladie (dont une partie du secteur médico-social handicap) ;
- > sur l'offre de soins : spécialité du prescripteur et de l'exécutant, lieu d'exécution, comme d'implantation, département, statut conventionnel et juridique ;
- > sur les pathologies traitées : le diagnostic est systématiquement codé selon la CIM-10 pour les bénéficiaires ayant fait la demande d'une prise en charge à 100 % pour une ALD, ou pour les personnes hospitalisées (*via* les diagnostics PMSI).

Le repérage du polyhandicap est rendu complexe dans le SNIIRAM en l'absence de « traceur » spécifique et surtout en l'absence de toute information clinique : les données disponibles sont pour l'essentiel des données de remboursement.

Les difficultés liées à l'algorithme de l'ATIH dans le PMSI ont déjà été discutées.

Par ailleurs, il n'existe pas d'ALD polyhandicap, même si ce dernier est pris en charge dans le cadre de l'ALD 9 (formes graves des affections neurologiques et musculaires – dont myopathie, épilepsie grave), 17 (maladies métaboliques héréditaires nécessitant un traitement prolongé spécialisé) et 23 (affections psychiatriques de longue durée dans lesquelles est classé le retard mental).

À noter cependant qu'il existe une ALD « polypathologie » (ALD 32 – plusieurs affections entraînant un état pathologique invalidant), qui permettrait peut-être d'identifier le polyhandicap si l'on y ajoutait d'autres éléments discriminants.

Enfin, le ciblage par l'affection à l'origine du polyhandicap ne semble pas pertinent.

Au vu de ce qui vient d'être dit, on comprend que le repérage, qui n'est pas impossible, reposera nécessairement sur des choix méthodologiques compte tenu de la diversité des possibilités pour l'opérer.

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

Rechercher des traceurs du polyhandicap dans le SNIIRAM par rapprochement avec des données d'enquête (voir *supra* enquête HSM-HSI).

📌 Ce qu'il faut retenir du système national d'information interrégimes de l'assurance maladie

Le SNIIRAM documente de manière exhaustive le parcours des patients à travers le système de soins français (autrement dit la consommation de soins) dès lors que celui-ci fait l'objet d'un remboursement par l'Assurance maladie. Comme pour le PMSI, aucune donnée clinique n'est cependant recueillie.

Le repérage du polyhandicap peut s'effectuer *via* une ALD sous réserve de recoupements avec les autres données disponibles.

Le projet d'une base de données individuelle sur les personnes en établissement

À ce jour, sauf passage en établissements de santé ou dépenses propres en soins de ville, les personnes hébergées en établissement médico-social tarifié au forfait peuvent être absentes des bases de consommation de soins.

Le SNIIRAM étant une base de données historiquement construite pour tracer les dépenses imputables à un assuré, il n'identifie pas la part des soins faisant l'objet d'une facturation collective. L'ensemble des soins relevant des forfaits soins des ESMS n'est ainsi pas tracé. L'Assurance maladie a d'abord comblé cette lacune pour les EHPAD : l'identification individuelle des résidents est désormais possible *via* le dispositif Resid-EHPAD, dispositif de télégestion qui permet aux établissements de remonter les mouvements de leurs résidents à l'Assurance maladie. L'extension de cette remontée d'informations à l'ensemble des ESMS et donc aux établissements et services pour personnes handicapées est en cours. Toutefois, à ce stade, il ne s'agit pas encore d'une composante du SNDS prévue réglementairement, et son accès reste limité à la sphère administrative.

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

Demander l'intégration des données d'entrée et de sortie en établissement dans le SNDS.

Les données de mortalité : la base des causes médicales de décès (BCMD)

La BCMD est une base de données individuelle sur les causes médicales de décès gérée par le Centre d'épidémiologie sur les causes médicales de décès (CépiDC) rattaché à l'INSERM. Collectées depuis 1979, les données ont pour objectif l'élaboration de la statistique des causes médicales de décès, l'étude des évolutions et des disparités sociospatiales et la comparaison internationale.

Les données sont collectées à l'échelle nationale et sont exhaustives : tout décès conduit à ce que soit établi un certificat de décès qui vient ensuite alimenter la base. Pour autant, il reste en moyenne 5 % de causes de décès inconnues (impossibilité d'établir la correspondance avec l'état civil, certificat médical non communiqué...).

Sur la base d'un certificat médical qui identifie sous la forme d'un texte libre trois à quatre causes de décès (en moyenne), la codification de la cause principale de décès est réalisée au sein du CépiDC par des spécialistes de l'étude et de la classification des maladies (codeurs et nosologistes) sur la base de la classification internationale (CIM-10). La cause principale de décès est celle qui, si elle n'avait pas existé, n'aurait pas entraîné le processus morbide.

Le polyhandicap n'est pas une cause de décès en tant que telle, de sorte qu'il est difficile, voire impossible d'établir un repérage systématique des personnes polyhandicapées *via* cette base et de documenter ainsi de manière fine les causes médicales de décès de ces personnes.

Les données sur le handicap : le système d'information harmonisé des MDPH (SI harmonisé des MDPH)

La mise en place d'un SI harmonisé des MDPH doit permettre de se doter d'indicateurs d'activité harmonisés susceptibles de mieux renseigner les pouvoirs publics sur la réalité de l'activité des MDPH, mais également de disposer d'une meilleure connaissance des publics accompagnés afin d'améliorer les réponses apportées.

L'ensemble des MDPH du territoire national, soit 101 au total, doivent se doter d'un SI harmonisé et opérer une remontée de données exhaustives à la CNSA. Ce projet d'harmonisation est porté par la CNSA avec l'appui technique de l'Agence française de la santé numérique (ASIP Santé), en partenariat avec les MDPH. Il est en cours et atteindra en 2019 son palier 1 de remontée d'un premier ensemble de données. La loi relative à l'adaptation de la société au vieillissement (ASV) prévoit que ce SI alimente le SNDS.

Il est demandé aux MDPH qu'elles recueillent au minimum les informations suivantes nécessaires à l'évaluation des demandes :

- > éléments environnementaux : situation familiale, hébergement, logement, ressources, transports ;
- > éléments scolaires et professionnels : situation scolaire, temps de scolarisation, aménagement de la scolarité et résultat, formation professionnelle, situation par rapport au travail, aptitude actuelle au poste, perspective professionnelle ;
- > besoins et évolutions : besoin de compensation (en matière de santé somatique ou psychique, autonomie, pour la participation sociale) et évolution de situation envisagée et constatée ;
- > éléments personnels : pathologie principale, présence d'une maladie rare ou d'un handicap rare, type de déficiences, degré d'autonomie dans les différentes activités (sans difficulté, autonome avec difficultés, non autonomie, sans objet).

Par ailleurs, des données d'identification de l'usager sont recueillies (nom, prénom, adresse, sexe, âge, nationalité, lieu de naissance, numéro de téléphone, mesure de protection...), et l'identifiant univoque est leur NIR.

Dans un premier temps, il est attendu des MDPH qu'elles transmettent au minimum un codage (niveau 2 de la nomenclature) des déficiences, des pathologies et des besoins de compensation pour l'ensemble des dossiers de demande contribuant à une décision d'attribution de la PCH ou à une décision d'orientation en ESMS, ainsi que pour tous les dossiers concernant les usagers de moins de vingt ans.

Les MDPH renseigneront « les types de déficiences présentées par la personne », celles identifiées comme les plus importantes ou comme ayant un retentissement en termes de limitation d'activité. Douze déficiences sont identifiées (en référence à la Classification internationale des handicaps – CIH), dont le plurihandicap, le polyhandicap et l'état végétatif chronique.

En l'état actuel d'avancement du projet, il est impossible de se prononcer sur le nombre de personnes polyhandicapées potentiellement repérables à travers cette source ni sur la qualité de leur identification par les MDPH.

Les trois catégories exposées plus haut sont poreuses et relèvent de l'appréciation de l'équipe pluridisciplinaire (EP), sur la base du dossier de demande de l'usager. Or, les orientations en structures médico-sociales reposent encore sur un système d'autorisation construit selon la nomenclature des déficiences, de sorte que les usagers peuvent avoir intérêt à mettre en avant certaines caractéristiques plutôt que d'autres pour obtenir une place.

De plus, un premier retour d'expérience des MDPH pilotes ayant déjà mis en place le SI harmonisé révèle une difficulté d'appropriation de ces différentes catégories ; elles sont demandeuses d'un complément d'information. En effet, avant la mise en place du SI harmonisé, seule une MDPH sur deux codait en partie ou en totalité les déficiences, et seulement quatre les codaient systématiquement.

Enfin, l'alimentation effective du SNDS par le SI des MDPH n'interviendra pas avant 2021.

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

- > A court terme, analyser les pratiques de codage des MDPH pour les situations de polyhandicap.
- > Travailler sur l'accès aux droits des personnes polyhandicapées par l'étude du non-recours et des plans d'aide.
- > Etudier les inégalités territoriales d'accès aux droits.

📌 Ce qu'il faut retenir du système d'information harmonisé des MDPH

Les données recueillies dans le cadre du SI harmonisé des MDPH sont des données d'activité qui n'ont pas été construites à des fins de recherche. Les données seront partielles le temps du déploiement, et leur qualité devra être évaluée avant qu'elles puissent être exploitées par des chercheurs (conformité des saisies et bon usage des nomenclatures notamment).

Des éléments environnementaux, scolaires et professionnels, les besoins de compensation et des données sur l'évolution de la situation seront collectés à terme.

Le repérage du polyhandicap s'opère *via* le codage de la déficience principale (dont le polyhandicap) par les équipes pluridisciplinaires.

Discussion : les perspectives de recherche ouvertes par le SNDS

La complexité des situations de polyhandicap rend le parcours de santé des personnes concernées souvent délicat, avec une intrication entre les lieux de vie et de soins : recours aux ESMS, aux services d'hospitalisation en courts séjours, aux SSR et évidemment le domicile. Ce sont là autant de facettes de la prise en charge autour desquelles va se construire le parcours de la personne polyhandicapée selon son âge, la gravité de sa situation, son lieu de résidence, le positionnement de ses aidants familiaux dans la prise en charge, l'offre disponible... La personne polyhandicapée peut ainsi recevoir des soins à domicile, en ambulatoire, en cabinet de ville, en externat, en internat, en centre spécialisé ou à l'hôpital. Le suivi médical peut quant à lui être assuré par de multiples professionnels : médecin traitant, médecin de l'ESMS, neuropédiatre, pédopsychiatre, les paramédicaux, les cliniciens des services hospitaliers.

L'étude de chaque composante existante (PMSI, SNIIRAM, CépiDC), à venir (SI MDPH) et en cours de réflexion (RESID ESMS), laisse penser que le SNDS présente un potentiel important d'apport de connaissances sur les parcours de soin et de prise en charge médico-sociale du polyhandicap, voire d'épidémiologie.

Tout son intérêt réside dans sa capacité à mettre à disposition de la communauté scientifique des données presque exhaustives relatives à l'accompagnement sanitaire et médico-social des personnes, avec cette opportunité offerte de multiplier les possibilités de repérage et de les affiner par l'information apportée par chacune des bases prise individuellement.

Plusieurs repérages du polyhandicap pourraient permettre une consolidation in fine relativement fiable pour un individu donné :

- > repérage fonctionnel/médical à l'occasion d'une hospitalisation *via* le ou les algorithmes de l'ATIH ;
- > repérage fonctionnel par un codage de déficience en MDPH ;
- > repérage administratif *via* une notification d'orientation en établissement ou service spécialisé ;
- > repérage prédictif *via* un profil de consommation ou de dépenses de soins.

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

- > Produire des connaissances nouvelles sur les parcours de soins et d'accompagnement médico-social des personnes polyhandicapées suppose et appelle un travail important d'audit des données et de leur mode de production (exhaustivité et fiabilité des codages) et des travaux exploratoires pour tester les algorithmes d'imputation sur des personnes dont on est assuré, grâce au recours à des sources externes, qu'elles sont polyhandicapées.
- > Travailler à un accès effectif aux données individuelles du SNDS ; il semble que, pour l'heure, seules les données de l'EGB sont effectivement accessibles.

📌 Accéder aux données du SNDS

Toute personne ou structure, publique ou privée, à but lucratif ou non lucratif, peut accéder aux données du SNDS sur autorisation de la Commission nationale de l'informatique et des libertés (CNIL) en vue de réaliser une étude, une recherche ou une évaluation présentant un intérêt public.

Il revient de formuler toute demande d'accès aux données auprès de l'Institut national des données de santé (INDS) chargé d'engager la procédure d'évaluation des demandes (comité d'expertise pour les recherches, les études et les évaluations dans le domaine de la santé – CEREES – et CNIL) et d'accompagner les équipes dans la prise en main de ces données.

Pour plus d'information, nous renvoyons le lecteur vers le site internet du SNDS.

Un délai raisonnable d'une année semble nécessaire entre le montage du dossier et le début de l'exploitation des données.

De plus, quand les données sont traitées sur le portail de la CNAM, l'accès à ces données est subordonné au suivi de formations (certaines sont obligatoires, d'autres optionnelles).

Si tel n'est pas le cas, le système d'information accueillant ces données doit être conforme au référentiel de sécurité du SNDS, qui détaille les exigences quant à la confidentialité, à l'intégrité et à la traçabilité des accès et des traitements statistiques.

4.3 Discussions : l'existence de données partielles, dispersées et difficilement exploitables par la recherche sur le polyhandicap

Le tour d'horizon des sources de données françaises et internationales pouvant potentiellement servir à la recherche sur le polyhandicap ouvre de nombreuses pistes de discussion. D'abord, les éléments de bilan des dispositifs de type cohorte existants en France et à l'international, y compris dans d'autres champs de recherche, documentent l'intérêt d'un tel dispositif, en lien avec des questions de santé publique. Cependant, un constat de difficile repérage des situations de polyhandicap, que ce soit dans ces dispositifs spécifiques qui recoupent en partie des situations de polyhandicap ou plus largement dans les registres, cohortes, enquêtes et bases de données administratives qui ont l'ambition d'être représentatifs de la population générale, a été dressé. Il est aussi noté la difficulté des systèmes de données existants à éclairer les thématiques de recherche étudiées par le groupe de travail « recherche » puisqu'ils n'ont pas le plus souvent été constitués pour cela.

4.3.1 L'existence en France et à l'international d'infrastructures de recherche de type cohorte pour d'autres champs de recherche que le polyhandicap

Dans la réflexion qui nous anime ici sur l'opportunité de la mise en place d'une infrastructure de recherche de type cohorte pour outiller les chercheurs dans la conduite de leurs travaux, le premier constat qui peut être dressé est celui de l'existence, en France et à l'international, de ce type de dispositif de repérage et de suivi d'une population caractérisée, ou non, par une maladie, une malformation, un handicap ou autre.

Ainsi, on a pu identifier pour la France :

- > deux registres des handicaps de l'enfant : RHE31 et RHEOP ;
- > trois cohortes en population générale : deux cohortes de naissance (EDEN et ELFE) et la cohorte CONSTANCES ;
- > deux cohortes en population spécifique : une cohorte d'enfants atteints de paralysie cérébrale et une « cohorte » de personnes polyhandicapées.

Ainsi, l'existence de nombreuses cohortes, même si leurs périmètres sont différents, légitime la démarche de réflexion autour de la mise en œuvre d'une telle infrastructure de recherche, d'autant plus si l'on considère le difficile repérage des situations de polyhandicap à partir de dispositifs qui n'ont pas été conçus pour « attraper » de telles situations complexes et certains besoins de connaissance spécifiques à cette population.

4.3.2 Un repérage des situations de polyhandicap qui demeure complexe

Sous l'impulsion des pouvoirs publics, et dans un objectif de connaissance, que ce soit de l'activité du secteur sanitaire ou médico-social (bases de données médico-administratives) ou des situations de handicap (enquêtes, registres), la collecte de données s'organise depuis quelques années déjà, et cette structuration se poursuit avec un objectif ambitieux d'interopérabilité de ces données. Ainsi, le recours aux données issues des bases médico-administratives avec changement de finalité est en plein essor : la mise en place du SNDS est à ce titre un cas exemplaire par la richesse des données qu'il contient et par la possibilité de le « chaîner » avec des données d'enquête¹⁷. Le recours à ces bases permet de constituer de larges cohortes et de répondre à de nombreuses questions de recherche de santé publique ou d'épidémiologie. Des cohortes sont d'ores et déjà constituées *via* le PMSI-SNIIRAM (demain le SNDS ?) à l'aide d'un « traceur » spécifique permettant de caractériser une population cible. Ces traceurs peuvent être, selon l'objectif de la recherche, un médicament (ou une combinaison de médicaments), un dispositif médical ou matériel associé, une affection particulière (code CIM-10 ou ALD), des actes médicaux et chirurgicaux... ou encore une combinaison de traceurs permettant de qualifier une population cible.

Dès lors, le repérage de situations de polyhandicap dans ces grandes bases de données permettrait de disposer de données presque exhaustives, notamment sur les parcours de santé et d'accompagnement médico-social et sur la consommation de soins, de médicaments et d'aides techniques.

Ceci ouvre alors la question de la difficulté d'identifier cette population dès lors que la donnée recueillie n'est pas propre aux personnes polyhandicapées, faute d'un item spécifique dans les nomenclatures habituellement utilisées ; il faut nécessairement passer par une combinaison de variables, qui associe le plus souvent une déficience intellectuelle et une déficience motrice sévère. Ainsi, repérer le polyhandicap dans les cohortes existantes en France suppose de faire ce travail si tant est que des situations de polyhandicap puissent être approchées (ce qui n'est par exemple pas le cas pour la cohorte CONSTANCES, comme nous l'avons vu plus haut).

On peut ensuite s'interroger sur la robustesse de ces algorithmes de repérage, qui mériterait sans doute d'être évaluée, notamment si l'on cherche à repérer la population de personnes polyhandicapées entendue selon une définition stricte (comme le fait la « cohorte » Eval-PLH).

À l'inverse, lorsqu'un code « polyhandicap » existe, s'ouvre la question de son usage, que ce soit dans les enquêtes déclaratives ou dans les systèmes d'information. Ce code est-il connu et utilisé ? Comment est-il interprété par les acteurs qui le codent ? Évidemment, le polyhandicap est défini dans la loi, mais celle-ci est-elle suffisamment précise pour stabiliser un codage ?

Par exemple, dans l'enquête ES qui est une enquête déclarative sous la responsabilité des directeurs d'ESMS, le polyhandicap ne peut être identifié que s'il est déclaré en pathologie principale ou en diagnostic secondaire sans qu'il soit possible de l'affiner par un critère de sévérité ou par l'âge d'apparition de la lésion. Quel type de situation de polyhandicap permet alors de documenter cette enquête ?

En pratique, à quelle condition une catégorie, pour peu qu'elle existe et qu'elle soit signifiante pour les acteurs, est-elle saisie ?

¹⁷ C'est-à-dire la possibilité offerte de rapprocher les informations d'une même personne provenant de différentes sources.

L'ATIH a construit dans le PMSI une variable « polyhandicap lourd » qui est nécessairement source d'information, mais qui n'a pas pour autant de contrepartie dans la tarification des établissements hospitaliers, de sorte que les acteurs n'ont qu'un intérêt relatif à coder ces situations.

Pour finir sur ce point, on voit donc que la plupart des systèmes d'information ont été construits autour de la notion de « pathologie spécifique » à l'origine d'un diagnostic ou d'un acte avec une finalité de régulation et de gestion financière qui ne coïncide pas toujours avec les enjeux de prise en charge liés au polyhandicap.

Les besoins et les pistes de recherche identifiés

Un axe de travail important pour la recherche et, demain, pour la pleine exploitation des sources médico-économiques, mais aussi des enquêtes de la statistique publique sur le handicap est l'approfondissement du repérage du polyhandicap dans ces différentes sources.

4.3.3 Des données qui restent insuffisantes pour éclairer les thématiques de recherche étudiées par le groupe de travail « recherche »

Lorsqu'il est possible de repérer des situations de polyhandicap, les données disponibles sont bien souvent des données de cadrage ou des données agrégées qui ne permettent pas de creuser en profondeur une thématique de recherche. De plus, toutes les thématiques de recherche qui ont été identifiées par le groupe de travail « recherche » ne peuvent être documentées et approfondies par les données disponibles.

Par ailleurs, les données disponibles sont dispersées au sein de nombreuses sources et ne sont pas construites selon une même méthode (voir *supra*) de sorte qu'il est difficile de savoir si l'on qualifie la même population lorsque l'on construit des recherches qui ont pour ambition de mobiliser de manière transverse toutes ces données.

On constate également que les sources de données existantes permettent essentiellement des éclairages sur l'axe de recherche « Identifier, connaître et suivre la population tout au long de la vie », « Les parcours de vie », « Les aidants familiaux et professionnels » et « Le système sanitaire et médico-social français : approches économiques ».

À n'en pas douter, la production de données nouvelles au-delà de l'amélioration du recueil médico-administratif est nécessaire pour mieux qualifier les situations de polyhandicap dans toutes leurs dimensions : fonctionnelles, médicales, psychosociales, sociales, environnementales, éthiques, économiques... ; mais aussi pour disposer de cadres évaluatifs sur les alternatives de soin et d'accompagnement des personnes.

Le tour d'horizon des données confirme donc le besoin pressenti dès la définition de l'axe recherche que la production de données nouvelles est nécessaire. Reste à apprécier si la constitution d'une infrastructure de recherche de type cohorte serait une bonne réponse à ce besoin. Cette discussion est l'objet de la partie suivante.

5 Réflexion sur l'opportunité de la mise en œuvre d'une cohorte de personnes polyhandicapées

L'état des lieux présenté a montré qu'il existait en France peu d'études et de bases de données permettant de constituer une population homogène de personnes en situation de polyhandicap susceptibles de répondre de façon satisfaisante aux besoins de recherche mis en avant par le groupe de travail « recherche » et, plus généralement, de s'inscrire dans des thématiques de recherche en sciences humaines et sociales tenant compte de l'environnement des personnes et de la connaissance détaillée de leur parcours. L'opportunité et la faisabilité de la constitution d'une infrastructure de recherche de type cohorte pour développer les connaissances sur le polyhandicap sont donc bien à examiner.

Sur la base des discussions qui se sont tenues dans le cadre des réunions du groupe de travail, une proposition de *design* d'une cohorte de personnes polyhandicapées est exposée dans cette partie, avant que ne soient rapidement évoqués les risques et les contraintes propres au montage d'un tel projet.

5.1 Quel projet de cohorte « polyhandicap » ?

5.1.1 Un besoin d'évaluation des pratiques d'accompagnement et de soins

Il n'y a pas toujours de légitimité à constituer des cohortes : il existe pour certaines questions de recherche des dispositifs moins coûteux de recueil d'informations à mettre en œuvre. Pour autant, les discussions conduites au sein du groupe de travail « recherche » ont fait ressortir un certain nombre de thématiques de recherche pour lesquelles la cohorte apparaît comme l'infrastructure de recherche la plus pertinente. En effet, elle permet ce suivi dans le temps, absolument nécessaire compte tenu de la diversité et du caractère évolutif des pathologies liées au polyhandicap, mais également des pratiques médicales, et des nombreuses questions qui se posent tout au long de la vie, qui ne peuvent être complètement comprises qu'en adoptant une perspective diachronique. Elle permet également de déployer un dispositif de recherche unique et centralisé auprès d'une population trop peu nombreuse et d'éviter ainsi une sursolicitation pour l'inclusion dans diverses études.

Plus largement, un besoin de caractérisation des parcours de vie, mais également de la vie au quotidien, des causes et des moments de rupture, ainsi que des transitions a été évoqué. Quels sont les éléments déterminants des parcours et des protocoles de prise en charge ? Quelles en sont les conséquences à long terme ? Quels sont les retentissements des situations socio-économiques des familles sur le parcours de leurs proches ? Sur cette base, il pourrait être possible d'établir des profils types qui guideraient la réflexion.

Cette connaissance plus fine de la réalité des parcours pourra servir de base à des études évaluatives suivant diverses perspectives : effet des actes médicaux sur la qualité de vie, effets des protocoles de prise en charge sur les parcours, des dispositifs de soutien sur la qualité de vie des aidants... dans le double objectif d'améliorer les réponses apportées aux personnes polyhandicapées et, par là même, à leur entourage et d'améliorer l'efficacité des pratiques d'accompagnement et de soin.

Sont également évoqués des besoins de connaissance des consommations de soins et de leur coût liés à la prise en charge de ces situations de handicap lourdes. Le « chaînage » de la cohorte aux données du SNDS permettrait de récupérer une information riche déjà collectée et ainsi de centrer le recueil d'informations sur des données d'état et d'environnement des personnes.

5.1.2 Quel polyhandicap ?

Le groupe de travail « cohorte » insiste sur la nécessaire restriction du champ à une population de personnes polyhandicapées entendue au sens strict, avec un critère d'exclusion fort concernant l'âge d'acquisition de la lésion cérébrale afin de ne pas englober des pathologies et des situations de handicap proches tels que les états végétatifs ou les états paucirelationnels.

En effet, l'âge d'acquisition de la lésion est déterminant de l'intrication des déficiences, élément caractéristique du polyhandicap. C'est parce que la lésion cérébrale est intervenue sur un cerveau en pleine maturation que le développement s'en est trouvé altéré (les acquisitions se construisent sur cette base altérée). Autrement dit, la précocité des lésions implique un tableau clinique plus sévère que si elles étaient survenues sur des aires cérébrales matures.

De ce point de vue, il pourrait être intéressant de poursuivre le travail réalisé dans le cadre du projet Eval-PLH qui reprend ces critères d'inclusion stricts (voir ci-dessous).

5.1.3 Échantillonnage et inclusion

L'objectif de disposer d'une base de connaissances sur les parcours et sur l'impact des traitements, mais aussi sur l'impact des modalités d'accompagnement, n'impose pas l'exhaustivité des données (recensement de toutes les personnes polyhandicapées), pour peu que la base constituée soit représentative de la population cible, en l'occurrence les personnes polyhandicapées.

En effet, il y a un enjeu fort de représentativité de tous les âges, des étiologies, des territoires (pour traiter de la problématique de l'accès aux soins) et des lieux de vie (établissement ou domicile). Cette diversité dans les données (on parle aussi de diversité « interne ») est nécessaire pour identifier les différents parcours types évoqués plus haut et également pour être en mesure de documenter les différentes thématiques de recherche selon toutes les configurations possibles. Autrement dit, il faut disposer d'une base d'analyse suffisamment étendue pour pouvoir identifier des sous-populations et comparer leur devenir.

Le groupe de travail n'a pas abordé de manière précise la question du dimensionnement de l'infrastructure de recherche (taille de l'échantillon), mais il a discuté de la stratégie d'inclusion qui serait à même de répondre à l'objectif de représentativité évoqué plus haut.

Deux types de centres d'inclusion sont ainsi préconisés :

- > les SSR spécialisés : ce sont des passages souvent obligés en vue de la restauration de l'autonomie, de la consolidation ou de la réorientation de la prise en charge après une situation aiguë. C'est sans doute à l'occasion de ces passages que les situations de polyhandicap sont les mieux qualifiées. Ainsi pourrait être incluse toute personne effectuant un séjour en SSR, quel que soit le motif (long séjour, sortie d'hospitalisation, bilan évaluatif, vacances du secteur médico-social...), dès lors qu'elle répondrait aux critères d'inclusion (notamment celui de la précocité de la lésion) ;
- > les consultations neuropédiatriques : cela permettrait d'inclure les personnes dès que le diagnostic est posé et ainsi de pouvoir suivre leur évolution dès le plus jeune âge selon les différentes dimensions retenues.

En partant de ce scénario d'inclusion, l'étude épidémiologique visant à recenser la population adulte de personnes polyhandicapées vivant à domicile dans la région des Hauts-de-France¹⁸ pourrait quant à elle apporter des propositions complémentaires pour ne pas « manquer » une frange de la population qui ne recourrait jamais aux consultations neuropédiatriques ni au SSR et resterait donc « invisible ».

5.1.4 L'ambition de développer une infrastructure de recherche à visée internationale

Une infrastructure de recherche de type cohorte correspond nécessairement à un investissement lourd et durable. Le groupe s'est interrogé sur le paradoxe qu'il pourrait y avoir à défendre un tel projet restreint à une cible d'étude qui ne trouve pas son équivalent à l'international. Comme nous l'avons déjà évoqué, le terme « polyhandicap » désigne une population caractérisée par une association de déficiences multiples, au premier plan desquelles une déficience intellectuelle et une déficience motrice, à l'origine d'une restriction extrême de l'autonomie. Cette définition peut recouvrir en partie des tableaux cliniques désignés à l'international sous les termes de *cerebral palsy (CP)*, *profound multiple disabilities (PMD)*, *severe intellectual and multiple disabilities (SIMD)*..., mais en partie seulement.

Finalement, même si le terme français de « polyhandicap » n'est pas spontanément usité dans ce domaine de recherche à l'international, dès lors que la population identifiée sous le terme de polyhandicap est décrite à partir des échelles validées à l'international, il est possible de créer un consensus sur les situations décrites et d'ouvrir à des comparaisons.

Par ailleurs, le recours à des standards pour l'inclusion permet d'identifier parmi les personnes suivies des sous-populations recoupant les autres familles d'étude (CP, PMD...) qui, elles, font l'objet de travaux internationaux. L'hypothèse est donc faite qu'en partant de travaux sur les personnes polyhandicapées telles que définies en France, il est possible de produire des connaissances « compétitives » en adoptant les bonnes stratégies de publication, dès lors que les inclusions sont correctement qualifiées.

Enfin, l'installation d'une infrastructure de recherche d'envergure pourrait être le support naturel de la constitution d'une équipe ou d'un pôle de recherche, dont on a vu qu'il manquait à la recherche française, et sans doute participer de la légitimation de l'usage de cette catégorie « polyhandicap » sur la base de travaux de recherche venant objectiver l'intérêt scientifique d'une telle catégorie.

¹⁸ Dans le cadre du volet polyhandicap et plus particulièrement de la fiche action n° 1 « Réaliser un diagnostic des besoins en vue d'adapter l'offre territoriale aux besoins recensés », l'ARS Hauts-de-France finance un projet intitulé « Évaluation socio-épidémiologique relative aux personnes polyhandicapées adultes vivant en milieu ordinaire dans la région Hauts-de-France (HdF) », réalisé par l'Association ressources polyhandicap Hauts-de-France (ARP-HdF).

5.1.5 L'expérience d'Eval-PLH : quels enseignements et quelle exploitation possible dans une perspective de mise en place d'une cohorte ?

Le projet Eval-PLH présenté plus haut a permis de démontrer l'intérêt et la faisabilité de la mise en place d'une infrastructure de recherche de type cohorte et peut être envisagé comme la préfiguration du projet de cohorte discuté par le groupe de travail.

Pour rappel, en partant d'une définition « stricte » du polyhandicap, ce sont pour l'heure 875 personnes polyhandicapées qui ont été incluses dans l'étude, 441 aidants familiaux et 321 aidants professionnels. Concernant les différents modes de prise en charge, la population se répartit comme suit :

- > 410 personnes sont prises en charge en SSR, soit 47,3 % de l'échantillon, quand cette modalité de prise en charge concernerait 60 à 70 % des personnes polyhandicapées ;
- > 372 personnes sont prises en charge dans des structures d'accueil médico-social en Île-de-France, soit 43 % de l'échantillon, quand cette modalité de prise en charge concernerait 2,7 % des personnes polyhandicapées ;
- > 84 personnes sont prises en charge au domicile, soit 9,7 % de l'échantillon, sans que l'on dispose de données sur le nombre de personnes polyhandicapées prises en charge à domicile.

Il est ainsi possible de s'interroger sur la représentativité de certaines populations ; il y aurait là un travail à entreprendre si un projet de cohorte tirait parti de cette première étude. En effet, elle semble suffisamment représentative des personnes suivies en SSR, mais le recueil de données est plus faible pour ce qui concerne la prise en charge en institution médico-sociale (inclusion dans la seule région d'Île-de-France auprès d'un questionnaire unique) ou en ambulatoire (inclusion *via* une unique consultation neuropédiatrique).

Organiser un recueil dynamique supposerait également de réfléchir au modèle économique d'un projet plus ambitieux, ainsi qu'à sa gouvernance, autant de points sans objet pour l'heure compte tenu du projet dans sa forme actuelle.

Ainsi, un travail préparatoire important a été réalisé dans le cadre de ce projet, qu'il semblerait tout à fait pertinent de mettre à profit, l'inclusion étant en partie déjà réalisée. D'un point de vue réglementaire, cette étude a déjà fait l'objet d'un avis favorable du comité de protection des personnes (CPP), chargé de l'évaluation des projets de recherche impliquant la personne humaine. Du côté de la validation scientifique de la démarche, des publications dans des revues internationales ont déjà eu lieu¹⁹, signe que les analyses tirées de ces données peuvent intéresser des chercheurs au-delà des frontières.

¹⁹ Rousseau MC, Baumstarck K, Leroy T, Khaldi-Cherif C, Brisse C, Boyer L, Resseguier N, Morando C, Billette De Villemeur T, Auquier P, (2017). ["Impact of caring for patients with severe and complex disabilities on health care workers' quality of life: determinants and specificities" \(PDF, 372 Ko\)](#). *Developmental Medicine & Child Neurology*. 2017 Apr 22. doi : 10.1111/dmcn.13428.
Rousseau M.C., Karine B., Maria V., Khaldi S., Brisse C., Felce A., Haddadou S., Willocq D., Laracca E., Mathieu S., Brisse C., Arditi M., Lenormand S., Billette de Villemeur T., Auquier P. "Adequacy of care management of patients with polyhandicap : The features of the French healthcare system" July 2018. *Annals of Physical and Rehabilitation Medicine* (Volume 61, Supplement) P : e269.

▮ Ce qu'il faut retenir du projet de cohorte porté par le groupe de travail

La mise en place d'une infrastructure de recherche de type cohorte dédiée à l'évaluation médico-économique de l'accompagnement et des soins permettrait de concilier plusieurs objectifs :

- répondre à un besoin de connaissance de l'histoire naturelle du polyhandicap (évolutivité médicale), mais également de l'impact social (aidants familiaux et professionnels) et économique (sur le système de soins français) et, par là même, améliorer les réponses ;
- stabiliser une définition de la population d'étude fondée sur des standards reconnus ;
- animer autour de l'infrastructure de recherche une communauté de recherche participative ;
- permettre un accroissement quantitatif et qualitatif de la recherche sur le polyhandicap et sa reconnaissance sur la scène internationale.

Le travail déjà accompli dans le cadre du projet Eval-PLH semble à cet égard devoir être considéré, si ce n'est comme la première étape de la mise en place de l'infrastructure de recherche, du moins comme une base d'apprentissage importante.

5.2 Monter un projet de cohorte : prérequis, difficultés et points de vigilance

Une petite enquête « Partage et retour d'expérience » a été conduite dans le cadre du groupe de travail « cohorte » avec l'objectif d'identifier les principales contraintes associées au montage d'une telle infrastructure de recherche et les leviers pour contourner certains obstacles identifiés : quelles sont les difficultés rencontrées en pratique par les responsables de cohortes ? Quels sont les points de vigilance à considérer dans le montage d'un tel projet ? Ce sont là les principaux points documentés dans cette partie.

Nous renvoyons le lecteur aux documents annexes de ce rapport s'il souhaite prendre connaissance des résultats détaillés et de la méthodologie de cette enquête (voir l'annexe 5).

En France, les recherches impliquant la personne humaine doivent répondre à un certain nombre d'exigences principalement d'ordre méthodologique, scientifique, éthique et réglementaire. Les axes de recherche et les retombées ont une forte implication sociale, notamment lorsqu'il s'agit de populations vulnérables. Les infrastructure de recherche de type cohorte doivent également être en mesure de répondre à un protocole d'étude prédéfini nécessitant d'importants moyens humains, matériels et financiers. Certaines questions de recherche impliquent des contraintes supplémentaires d'ordre technique et logistique. Il est de plus en plus attendu des porteurs de projets qu'ils soient capables de produire de la connaissance valorisable et de pouvoir développer des partenariats académiques et/ou industriels sur le long cours. Tous ces enjeux sont primordiaux pour la viabilité des projets, et les prendre en considération dès la réflexion permettrait de ne pas aboutir à une réponse inadéquate entre la demande sociale et le projet proposé, l'objectif final étant de pouvoir proposer des projets d'infrastructure de recherche à la fois scientifiquement pertinents et faisables.

Une première difficulté identifiée dans la mise en place d'une cohorte est d'en assurer le financement, qu'il s'agisse de la recherche initiale de financement pour lancer le projet ou pour en assurer la pérennité. De plus, ont été relevées des difficultés récurrentes de sous-dimensionnement des budgets alloués par rapport aux besoins réels, notamment en matière de ressources humaines.

Au-delà de ces difficultés de dimensionnement et d'obtention des financements, le *turn-over* important du personnel apparaît comme un élément potentiellement déstabilisateur, ce qui s'explique notamment par le statut précaire des postes (la plupart du temps en contrat court).

La bonne information des centres investigateurs, c'est-à-dire des sites chargés du recrutement des personnes à inclure et de la production des données, doit être effectuée en amont du lancement du projet afin de s'assurer de leur implication. Il ne faut pas sous-estimer le temps nécessaire à la réalisation des évaluations auprès des volontaires, ainsi que les difficultés de recueil des données en provenance des structures non hospitalières (structures médico-sociales, MDPH, hôpitaux communaux, structures médicales de petite taille...) ; il ne faut pas non plus écarter le possible manque de motivation ou d'adhésion au projet des investigateurs sur site, tout comme le manque de connaissances des bonnes pratiques associées à la conduite d'une recherche de type épidémiologique impliquant la personne humaine.

Un autre élément, en lien avec ce qui vient d'être dit, tient aux difficultés potentielles de recrutement des personnes auprès de qui le projet doit susciter l'adhésion au risque de ne pas obtenir leur consentement. Dans le cadre d'une cohorte de personnes polyhandicapées, cela suppose de travailler de façon étroite avec les familles.

Il faut également documenter de façon fine l'ensemble des aspects réglementaires auxquels devra se conformer le projet, tout comme le temps non négligeable qui devra être consacré aux aspects administratifs, autant d'étapes bloquantes (ne pas sous-estimer les délais d'instruction des soumissions réglementaires).

Enfin, la mise en place de tels dispositifs est aujourd'hui à considérer en lien avec l'ensemble des dispositifs de recueil de données médico-administratives, en particulier le SNDS. Ce dernier organise un recueil de données fiables et exhaustives dans un certain nombre de champs dont il n'est pas raisonnable de se priver, notamment celui des données ambulatoires (qui sont toujours plus compliquées à recueillir dans une démarche prospective).

Ce qu'il faut retenir des risques liés au montage d'une infrastructure de recherche de type cohorte

Dans la perspective de la mise en place d'une cohorte de personnes polyhandicapées, les investigateurs devront s'assurer des financements pérennes sur la base d'un modèle économique réaliste s'assurant la fidélité du personnel par des conditions d'emploi attractives.

Il est important de faire acte de pédagogie auprès de l'ensemble des acteurs impliqués dans le projet afin de s'assurer de leur égale mobilisation et implication tout au long de la durée du projet, gage de la qualité scientifique des résultats qui pourront en être tirés. Il faut donc impliquer au plus tôt les acteurs du champ, notamment les associations et les autorités (CNIL), y compris dans la conception du projet.

Il est également nécessaire de privilégier les centres habitués à réaliser des recherches épidémiologiques et de recourir le plus possible à du personnel support pour améliorer le recueil de données et entretenir la motivation.

Une cohorte de personnes polyhandicapées doit nécessairement être pensée en lien avec les nouvelles opportunités de recherche offertes par les bases médico-administratives, en particulier le SNDS, en veillant à une interopérabilité.

Conclusion

Tout au long de ce rapport, nous avons tenté de synthétiser et de restituer avec justesse la richesse des travaux et des discussions qui les ont accompagnés, conduits dans le cadre du groupe de travail « recherche » et du groupe de travail « cohorte » réunis à l'IReSP en 2018 et 2019.

Ainsi, nous sommes revenus sur la construction française d'un champ d'action publique et de recherche autour du polyhandicap. C'est en 1985 qu'un rapport du CTNERHI consacre officiellement le terme de « polyhandicap » en vue de l'organisation d'une prise en charge spécifique à cette population, qui devient alors un axe à part entière de l'action publique en France. L'usage de ce terme dans la communauté scientifique francophone, terme qui n'a pas d'équivalent à l'international, interroge sur le positionnement de la recherche française sur le polyhandicap : difficilement visible et donc reconnue à l'international, elle semblerait également en marge d'une recherche plus générale sur le handicap. La recherche française sur le polyhandicap doit-elle pour se structurer s'en tenir à la définition légale du polyhandicap ? La question reste ouverte.

Pour accompagner cette réflexion, une étude bibliométrique examinant le positionnement et la visibilité de la recherche française sur le polyhandicap à l'international a été conduite. Il en ressort que la recherche française se distingue fortement de la recherche internationale. Principalement orchestrée par les neuropédiatres et les neurogénétiiciens, elle s'inscrit dans les disciplines médicales ; à l'international, la recherche en sciences humaines et sociales est plus visible et davantage structurée autour de chercheurs ou d'équipes de recherche. Est-ce à dire qu'il n'existe pas de recherche française en SHS ? Non, et un bref recensement de la littérature francophone référencée sur le portail Cairn révèle une toute autre richesse des travaux, plus nombreux et parfois réalisés par des acteurs de terrain. Partant de ces constats, des pistes d'action ont été proposées, parmi lesquelles structurer la recherche sur le polyhandicap à travers l'émergence de laboratoires de recherche pluridisciplinaires spécialisés sur ces problématiques, ou encore favoriser les collaborations internationales en amenant les chercheurs à adopter un vocabulaire capable d'entrer en résonance avec les mots-clés retenus à l'international pour qualifier le polyhandicap « à la française ».

Le groupe de travail « recherche » s'est attaché à réaliser la première étape d'un état des lieux plus général qui sera approfondi par l'expertise collective INSERM, étape nécessaire pour être en mesure d'identifier des besoins et des pistes de recherche prioritaires. Ce travail a d'abord mis en évidence les enjeux méthodologiques et éthiques autour de l'enquête auprès de personnes polyhandicapées et de leurs proches, avec des besoins de travaux de recherche pour analyser et, le cas échéant, adapter les méthodologies d'enquête. Un inégal développement des différents champs de recherche sur le polyhandicap a également été noté, certaines thématiques étant plus documentées que d'autres qui mériteraient de l'être, compte tenu notamment des enjeux liés au vieillissement de la population, à l'évolution des techniques médicales et aux orientations des politiques publiques (vers la désinstitutionnalisation notamment).

Pour accompagner le groupe « cohorte » dans sa réflexion sur l'opportunité de mettre en place une telle infrastructure de recherche pour outiller la recherche, un travail de documentation des bases de données médico-administratives et des données d'enquêtes susceptibles d'être sources de connaissances du polyhandicap a été conduit parallèlement à ce travail de recensement des besoins de recherche. Il en ressort que des exploitations secondaires de bases de données existantes présenteraient un intérêt certain. Toutefois, la confrontation de cet état des lieux des données disponibles et des besoins de recherche identifiés révèle l'existence de données partielles, dispersées, difficilement exploitables et mobilisables pour répondre aux enjeux de connaissance et de suivi de la population tout au long de la vie tels que développés ci-dessus. Le principal manque identifié tient à l'absence de données cliniques.

En se basant sur ce besoin de données longitudinales, le groupe de travail « cohorte » a réfléchi au *design* qui devrait être celui d'une future cohorte de personnes polyhandicapées. Cette cohorte devrait poursuivre un objectif d'évaluation des pratiques d'accompagnement et de soins auprès des personnes polyhandicapées, enfants et adultes ; l'inclusion des personnes dans la cohorte serait faite sur des critères stricts, notamment au regard de l'âge d'apparition des lésions, au moment des consultations spécialisées en SSR ou des consultations neuropédiatriques.

En partant du travail de préfiguration d'une telle infrastructure de recherche entamé par le projet Eval-PLH, le groupe estime que la mise en place d'une cohorte devrait, sinon poursuivre le travail déjà effectué, au moins tirer parti ce projet.

Enfin, au-delà de l'intérêt du point de vue des connaissances que pourrait apporter une telle infrastructure de recherche, cette cohorte permettrait de structurer et d'animer toute une communauté de recherche qui n'existe pas en tant que telle en France comme l'a révélé l'étude bibliométrique ; elle permettrait de stabiliser une définition de la population d'étude fondée sur des standards reconnus et non plus simplement sur une définition légale.

Annexes

Annexe 1 – Composition du groupe de travail chargé de la réalisation de l'état des lieux de la recherche sur le polyhandicap en France

Responsables scientifiques

BILLETTE DE VILLEMEUR Thierry, professeur en neuropédiatrie, AP-HP.

SCELLES Régine, professeure de psychopathologie, université de Nanterre (Paris 10).

Membres permanents

BLONDEL Frédéric, maître de conférences en sociologie, université Paris-Diderot (Paris 7).

BOUTIN Anne-Marie, docteur en pédiatrie, Groupe Polyhandicap France (GPF).

CIPRIANO Marion, chargée de mission, pôle Expertises collectives (INSERM).

CONSTANTINIDES Yannis, professeur en philosophie, Espace éthique Île-de-France.

COURTOIS Gérard, secrétaire général adjoint, Groupe Polyhandicap France (GPF).

DELZESCAUX Sabine, maître de conférences en sociologie, université Paris Dauphine.

DURUPT Alexandre, maître de conférences en génies mécanique et industriel, université de technologie de Compiègne (UTC).

PARAPONARIS Alain, professeur d'économie de la santé, Aix-Marseille université.

ROY Joël, docteur en pédopsychiatrie, centre hospitalier universitaire (CHU) de Nîmes.

Responsables techniques/suivi CNSA

MARQUET Claudia, chargée de mission recherche, CNSA

MICHEAU Julie, directrice scientifique, CNSA

RAYNAUD Isabelle, cheffe de projet, IReSP

Annexe 2 – Programme de travail du groupe de travail chargé de la réalisation de l'état des lieux de la recherche sur le polyhandicap en France et liste des intervenants par thématique

THÉMATIQUE	SOUS-AXES THÉMATIQUE	INTERVENANTS
Aspects socio-économiques du polyhandicap	<p>Les coûts directs et indirects de la prise en charge du polyhandicap.</p> <p>La mesure des conséquences sanitaires, sociales et économiques de l'aide apportée aux personnes polyhandicapées par les proches.</p>	<p>Bérangère DAVIN</p> <p>Alain PARAPONARIS</p>
Accès aux droits	<p>Les questions relatives à l'accès à la loi, au droit et à la citoyenneté pour les personnes polyhandicapées et leurs proches.</p> <p>La question de la solidarité de l'institution envers les personnes et comment la personne polyhandicapée se saisit de cette solidarité.</p>	<p>Alexandra GREVIN</p> <p>Évelyne FRIEDEL</p>
Qualité de vie	<p>La qualité de vie de la personne polyhandicapée et celle de ses proches.</p> <p>La problématique de l'autodétermination (l'expérience suédoise).</p>	<p>Ève GARDIEN</p> <p>Beas MAES</p>
Le parcours de vie de la personne polyhandicapée	<p>Parcours de vie : moments clés des transitions (enfance, adolescence, adulte).</p> <p>Effets du type de prise en charge (domicile, internat, externat, internat séquentiel) sur la personne polyhandicapée et sur ses proches (famille nucléaire, fratrie, famille élargie).</p> <p>Dispositifs d'accompagnement et d'éducation et problématique de l'inclusion au prisme du polyhandicap.</p> <p>Parcours milieu inclusif/milieu spécialisé à l'école et dans les lieux d'inclusion de la petite enfance.</p>	<p>Esther ATLAN</p> <p>Jean-Yves BARREYRE</p> <p>Patrick COLLIGNON</p> <p>Sabine DELZESCAUX</p> <p>Martine JANNER</p>
Les processus de fonctionnement cognitifs et psychiques	<p>Fonctionnement psychique, cognitif, sensoriel, moteur.</p> <p>Processus d'adaptation et d'apprentissage (problématique de l'évaluation et compréhension des processus de fonctionnement et de leurs évolutions).</p> <p>Souffrance psychique : troubles du comportement ; intrication/différenciation entre souffrance d'origine somatique (douleur) et psychique.</p> <p>Maltraitance et bientraitance.</p>	<p>Vincent GUINCHAT</p> <p>Lisa OUSS</p> <p>Geneviève PETIT-PIERRE</p> <p>George SAULUS</p>

THÉMATIQUE	SOUS-AXES THÉMATIQUE	INTERVENANTS
Les questions éthiques : questions des aidants, des proches, de la personne elle-même et des professionnels	Éthique de la relation : rapport à l'autre, au plaisir, au corps (sexualité). Éthique du quotidien à l'hôpital. Question de la fin de vie. Annonce du diagnostic.	Thierry BILLETTE DE VILLEMEUR Patrick COLLIGNON Yannis CONSTANTINIDES
Les aidants professionnels et non professionnels	Problématique du besoin de répit/ressources/relais pour les aidants. Le travail à domicile et en institution.	Frédéric BLONDEL Sabine DELZESCAUX
Aides techniques, communication	Les aides techniques électroniques et informatiques, leurs objectifs finaux, leurs évolutions et leurs utilisations tout au long de la vie. Plateformes techniques et nouvelles technologies. Conception centrée sur l'utilisateur. Aide technique à domicile et en institution. Évaluer et faciliter la communication : évaluation, outils...	Dominique CRUNELLE Jean-Paul DEPARTE Samuel POUPLIN Nadine VIGOUROUX
Méthodologie de recherche et méthodologie de l'évaluation	Méthodologie des évaluations des dispositifs, des méthodes d'accompagnement, de soins pour les personnes polyhandicapées. Approches qualitatives et quantitatives concernant les familles, les personnes polyhandicapées, les professionnels et les institutions. Interrogation des proches pour connaître la vie psychique et relationnelle de la personne polyhandicapée. Observation et interprétation. Langage privé, non verbal.	Frédéric BLONDEL Muriel DELPORTE Sabine DELZESCAUX Alexandre DURUPT Alain PRAPONARI Régine SCHELLES
Représentations sociales et place dans la cité	Représentations sociales et personnelles (et leurs liens) du polyhandicap chez les proches, les professionnels et les institutions.	Frédéric BLONDEL Sabine DELZESCAUX Myriam WINANCE

Annexe 3 – Composition du groupe de travail chargé de l'étude d'opportunité d'une cohorte de personnes polyhandicapées

Responsable scientifique

AUQUIER Pascal, professeur en santé publique, Aix-Marseille université.

Membres permanents

BÈGUE Murielle, sociologie, École normale supérieure (ENS).

BILLETTE DE VILLEMEUR Thierry, neuropédiatrie, AP-HP.

DELPierre Cyrille, épidémiologie sociale, université de Toulouse III.

K. DUPONT Jean-Claude, éthique & économie de la santé, école d'économie de Paris (PSE)/AP-HP.

MIKAELOFF Yann, neuropédiatrie, AP-HP.

ROUSSEAU Marie-Christine, médecine physique et de réadaptation, AP-HP – hôpital San-Salvador.

SCELLES Régine, psychopathologie, université de Nanterre (Paris 10).

Responsables techniques/suivi CNSA

BOUSSAUD Gaylord, chargé de mission, IReSP.

MARQUET Claudia, chargée de mission recherche, CNSA

MICHEAU Julie, directrice scientifique, CNSA

RAHO Mariem, chargée de mission, IReSP.

RAYNAUD Isabelle, cheffe de projet, IReSP.

Annexe 4 – Listes des documentalistes ayant pris part aux travaux au cours d'une séance de travail sur les ressources documentaires sur le polyhandicap

DECUP Laurence, Centre de ressources multihandicap (CRM).

BARBIER Thérèse, Institut national supérieur de formation et de recherche pour l'éducation des jeunes handicapés et l'enseignement adapté (INSHEA).

DORMEAU Léna, École des hautes études en santé publiques (EHESP).

COMBALUZIER Évelyne, Comité d'étude, d'éducation et de soins auprès de la personne polyhandicapée (CESAP).

MALISSARD Suzanne, APF France Handicap.

Annexe 5 – Liste des documents annexes à ce rapport

Le travail préparatoire à la rédaction de ce rapport a produit un certain nombre de documents de diverses natures (revue de littérature, compte-rendu de réunion, rapport intermédiaire...), listés ci-dessous et mis à la disposition du lecteur qui souhaiterait aller plus loin.

Documents relatifs aux investigations du groupe de travail « recherche » chargé de la réalisation de l'état des lieux de la recherche sur le polyhandicap en France

En lien avec la préparation des réunions de travail du groupe dont le programme est détaillé en annexe 2, des revues de littérature thématiques ont été réalisées. On y trouve des références bibliographiques françaises et étrangères (non exhaustives), recensées de manière plus ou moins détaillée selon les thèmes (avec parfois une description du contenu de l'article/ouvrage). Les thématiques sont les suivantes :

- > aides techniques, communication et inclusion ;
- > le parcours de vie de la personne polyhandicapée tout au long de la vie ;
- > les aspects socio-économiques liés à la situation de polyhandicap ;
- > les processus de fonctionnement cognitifs et psychiques ;
- > les questions éthiques tout au long de la vie, questions des aidants, des proches, de la personne elle-même, des professionnels ;
- > représentation sociale familiale et professionnelle et place dans la cité ;
- > méthodologie de recherche et évaluation des dispositifs d'accompagnement ;
- > qualité de vie et accès au droit.

Les comptes rendus réalisés à l'issue des réunions de travail sont également disponibles (seulement pour les cinq premières réunions). Ces derniers permettent de prendre connaissance du contenu des interventions des intervenants identifiés en annexe 2, ainsi que des échanges qui les ont suivis.

Enfin, dans le cadre de ce groupe de travail, une cartographie inachevée des acteurs de la recherche française sur le polyhandicap a été réalisée. Ce travail est mis à disposition sous la forme d'un document de travail (base Excel) qui identifie entre autres des équipes et des laboratoires de recherche, ainsi que leurs axes de recherche.

Documents relatifs aux investigations du groupe de travail « cohorte » chargé de l'étude d'opportunité d'une cohorte de personnes polyhandicapées

Les comptes rendus des réunions de travail sont là encore mis à disposition (seulement pour les deux premières) pour que chacun puisse prendre connaissance du contenu des interventions, ainsi que des échanges qui s'en sont suivis.

Le lecteur est également invité à consulter le rapport de Mariem Raho sur la préfiguration d'une infrastructure de recherche de type cohorte, qui offre, sous la forme d'un document de travail, des éléments de diagnostic repris et synthétisés dans le présent rapport. Ce document détaille davantage le travail de repérage des sources de données pouvant documenter les situations de polyhandicap, ainsi que l'analyse des contraintes de montage d'une infrastructure de recherche de type cohorte. En particulier, ce document revient sur la méthodologie de récolte des informations sur ces différents points.

Sur la base de ce document de travail et d'un travail d'investigation plus poussé, des fiches de présentation de certaines sources de données pouvant permettre le repérage du polyhandicap ont également été réalisées par l'IReSP et la CNSA. Ces documents de travail sont mis à la disposition du lecteur qui pourra y retrouver des informations générales (opérateur, objectifs, champ, informations disponibles...) et des informations spécifiques à l'identification du polyhandicap, la fiabilité de cette identification et, le cas échéant, le nombre de personnes identifiées. Ces fiches ont été réalisées pour les sources suivantes :

- > base de causes médicales de décès (BCMD) ;
- > centre d'action médico-sociale précoce (CAMSP) ;
- > enquête handicap-santé (HS) ;
- > programme de médicalisation des systèmes d'informations (PMSI) ;
- > système d'information commun des MDPH ;
- > système national des données de santé (SNDS) ;
- > système national d'information interrégimes de l'assurance maladie (SNIIRAM).

Documents relatifs à la demi-journée de synthèse du 28 juin 2019

Afin de finaliser les travaux conduits à l'IReSP dans le cadre de l'axe recherche du volet polyhandicap, à savoir les travaux portant sur l'état des lieux de la recherche sur le polyhandicap et l'étude d'opportunité de la mise en place d'une cohorte de personnes polyhandicapées, une réunion de synthèse s'est tenue le vendredi 28 juin 2019 à l'IReSP. Les documents suivants ont été produits pour cette réunion :

- > le programme de la demi-journée ;
- > les supports de présentation des intervenants, à savoir les responsables scientifiques des groupes de travail ;
- > le compte-rendu des échanges réalisé par l'IReSP.

www.cnsa.fr
www.pour-les-personnes-agees.gouv.fr

