



THÈSE DE DOCTORAT

Soutenue à Aix-Marseille Université

le 4 Février 2022 par

David Veillard

Evaluer la qualité des parcours de soins des patients atteints d'une Sclérose En Plaques en France :

Une approche holistique intégrant le point de vue des patients, de leurs proches aidants et des professionnels de santé impliqués dans ce parcours de soins.

Discipline : Biologie Santé

Spécialité : Recherche clinique et Santé Publique

École doctorale

ED 62 – Sciences de la vie et de la Santé

Laboratoire/partenaires de recherche : Centre d'Etudes et de Recherche sur les Services de Santé et la qualité de vie (CEReSS) – Aix Marseille Université

Equipe Neurosciences Cliniques CIC 1414 Rennes



Composition du jury

Leila Moret Rapporteur·se

PU-PH Université Nantes

Patrick Vermersch Rapporteur·se

PU-PH Université Lille

Gilles Edan Président·e du jury

PU-PH Université Rennes

Karine Baumstarck Directeur·rice de thèse

PH Aix Marseille Université

Pascal Auquier Co-directeur·rice de thèse

PU-PH Aix Marseille Université

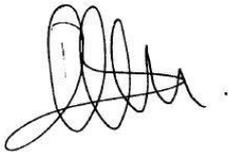
Affidavit

Je soussigné, David Veillard, déclare par la présente que le travail présenté dans ce manuscrit est mon propre travail, réalisé sous la direction scientifique de Me Karine Baumstrack et Mr Pascal Auquier, dans le respect des principes d'honnêteté, d'intégrité et de responsabilité inhérents à la mission de recherche. Les travaux de recherche et la rédaction de ce manuscrit ont été réalisés dans le respect à la fois de la charte nationale de déontologie des métiers de la recherche et de la charte d'Aix-Marseille Université relative à la lutte contre le plagiat.

Ce travail n'a pas été précédemment soumis en France ou à l'étranger dans une version identique ou similaire à un organisme examinateur.

Fait à Rennes, le 30 novembre 2021

Signature :



Cette œuvre est mise à disposition selon les termes de la [Licence Creative Commons Attribution - Pas d'Utilisation Commerciale - Pas de Modification 4.0 International](https://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/).

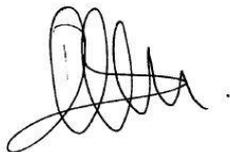
Affidavit

I, undersigned, David Veillard, hereby declare that the work presented in this manuscript is my own work, carried out under the scientific direction of Mrs Karine Baumstarck and Mr Pascal Auquier, in accordance with the principles of honesty, integrity and responsibility inherent to the research mission. The research work and the writing of this manuscript have been carried out in compliance with both the French national charter for Research Integrity and the Aix-Marseille University charter on the fight against plagiarism.

This work has not been submitted previously either in this country or in another country in the same or in a similar version to any other examination body.

Place Rennes, date 1er novembre 2021

Signature :



Cette œuvre est mise à disposition selon les termes de la [Licence Creative Commons Attribution - Pas d'Utilisation Commerciale - Pas de Modification 4.0 International](https://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/).

Liste de publications et participation aux conférences

1) Liste des publications¹ réalisées dans le cadre du projet de thèse :

1. Veillard D, Baumstarck K, Edan G, Debouverie M, Wiertlewski S, De Sèze J, Clavelou P, Pelletier J, Verny C, Chauvin K, Cosson ME, Loundou A, Auquier P. Assessing the experience of the quality of care of patients living with multiple sclerosis and their caregivers: The MusiCare questionnaire. *Eur J Neurol* 2021 Mar;28(3):910-920.
2. Veillard D, Le Page E, Epstein J, Wiertlewski S, Gallien P, Hamonic S, Debouverie M, Edan G. Evaluation of the quality of the care pathway for patients with multiple sclerosis in France: Results of an original study of a cohort of 700 patients. *Rev Neurol (Paris)*. 2021 Dec 7:S0035-3787(21)00766-9. doi: 10.1016/j.neurol.2021.09.008.
3. Veillard D, Deburghgraeve V, Le Page E, Debouverie M, Wiertlewski S, Gallien P, Edan G. Developing tools to evaluate quality of care management for patients living with Multiple Sclerosis: an original French initiative. Article accepté par *Revue Neurologique* Decembre 2021

2) Participation aux conférences² et écoles d'été au cours de la période de thèse :

1. Congrès Ectrims 2017 : présentation de posters
2. Colloque HAS « la pertinence : du concept à l'action »
3. Congrès ARSEP : 2018 et 2019 : présentation orale
4. Congrès Choosing Wisely Canada 2018
5. Congrès Ectrims 2021 : présentation de poster

¹ Cette liste comprend les articles publiés, les articles soumis à publication et les articles en préparation ainsi que les livres, chapitres de livre et/ou toutes formes de valorisation des résultats des travaux propres à la discipline du projet de thèse. La référence aux publications doit suivre les règles standards de bibliographie et doit être conforme à la charte des publications d'AMU.

² Le terme « conférence » est générique. Il désigne à la fois « conférence », « congrès », « workshop », « colloques », « rencontres nationales et/ou internationales » ... etc.

Indiquer si vous avez fait une présentation orale ou sous forme de poster.

Résumé

Les maladies neurologiques, dont la Sclérose en Plaques (SEP), font partie des pathologies chroniques les plus fréquentes. La SEP présente plusieurs spécificités : elle touche des patients jeunes et, à ce jour, aucune thérapeutique ne permet de stopper l'évolution du handicap qu'elle provoque. Ces patients et leurs proches aidants sont de plus en plus reconnus comme des partenaires à part entière pour contribuer aux décisions relatives aux soins et aux parcours de soins. L'évaluation de la qualité de ces parcours représente pour eux et pour l'ensemble des acteurs de nos systèmes de santé, un enjeu de santé publique majeur. Pour que tous s'approprient les résultats de cette démarche, elle doit s'appuyer sur des méthodes et des outils validés, co construits, prenant en compte l'ensemble de leurs points de vue. Pour engager cette démarche dans le domaine de la SEP, aucun outil répondant à ces exigences n'était disponible en France ou transposable depuis d'autres systèmes de soins. Le but de ce travail a été de les élaborer et les expérimenter, en pratique. Il a été décliné selon 2 objectifs : Objectif 1 : Développer et déterminer l'intérêt d'un outil de mesure de la qualité des soins du point de vue des patients et de celui de leurs proches aidants ; Objectif 2 : Développer et déterminer l'intérêt d'outils de mesure de la qualité des soins élaborés selon le point de vue des professionnels de santé. Chaque objectif a été décliné en 2 étapes : une première pour la maîtrise de la mesure : il s'agit de mettre à disposition des acteurs des outils validés pour cette mesure selon une démarche intégrant le point de vue des patients, de leurs proches aidants et des professionnels de santé ; une seconde pour évaluer l'intérêt de cette mesure, par ces outils, dans la pratique des professionnels et dans le vécu des patients et de leur entourage. La réponse à l'objectif 1 s'est faite par le développement de questionnaires mesurant l'expérience des patients et de leurs proches aidants vis-à-vis de la qualité des parcours de soins, de façon identique et selon une démarche comprenant une étape qualitative de construction suivie d'une étape quantitative de validation. Ces questionnaires sont les premiers publiés dans ce domaine. Ils ont été mobilisés dans le cadre d'une étude exploratoire des enjeux de la dynamique du couple patient/proche aidant vis-à-vis de leur expérience de la qualité du parcours de soins, selon les stratégies de d'adaptation (I.e coping) qu'ils mobilisent pour faire face à la maladie. Les résultats mettent en évidence l'impact négatif des stratégies d'évitement et de support social à l'inverse de celles de pensée positive et de résolution de problèmes, ainsi qu'un effet partenaire, illustrant l'enjeu du soutien aux proches aidants de ces patients. La réponse à l'objectif 2 s'est faite par le développement d'indicateurs mesurant la qualité des pratiques et des organisations des professionnels de santé au regard des recommandations de pratique clinique. Quarante-huit indicateurs couvrant le parcours des patients, du diagnostic à la prise en charge en médecine physique et de réadaptation, ont été validés par des experts de la SEP, selon une approche consensuelle de la pertinence de chaque indicateur mobilisant évaluations individuelles et discussions collégiales. Ils ont été testés pour une cohorte de 700 patients dont les premiers symptômes dataient de 2000-2001 et sur une période de dix années d'évolution de la maladie. Les données nécessaires au calcul étaient disponibles pour 80% des indicateurs, et, sur la totalité de la période de suivi, pour 80% des patients inclus. Les résultats ont permis de mettre en évidence des axes d'amélioration de la qualité des parcours de soins dont l'accès plus rapide à un avis neurologique spécialisé pour le diagnostic et pour la mise en route d'un traitement de fond, et l'accès aux ressources de médecine physique et de réadaptation pour tous les patients concernés lors de l'aggravation de leur handicap.

Abstract

Neurological diseases, including Multiple Sclerosis (MS), are among the most frequent chronic diseases. MS has several specificities: it affects particularly young patients and, to date, no therapy can stop the progressive handicap it causes. These patients, like their caregivers, are recognized as full partners in contributing to decisions relating to their care and their care pathway. Assessing the quality of care management for these patients is a major challenge for our healthcare systems. It needs to be carried out using tools that are recognized by professionals and patients and their caregivers alike. To initiate this approach, to date, no such tools are currently available in the field of MS in France or adaptable since other health care systems. The aim of this work was therefore to develop and test the advantage of these tools in practice. It has been developed according to 2 main objectives: Objective 1: To develop and determine the value of a tool for measuring the quality of care pathways from the point of view of patients and that of their caregivers; Objective 2: To develop and determine the value of tools for measuring the quality of care pathways from the point of view of health professionals

Each objective has been reached into 2 stages : 1st stage to guarantee the measurement : this involves providing parties with validated tools for this measurement, through a holistic approach integrating the point of view of patients, their caregivers and health professionals; 2nd stage to assess the value of this measure, with these tools, in the clinical practice of professionals and in the experience of patients and their caregivers.

To meet objective 1 we developed questionnaires measuring the experience of patients and their caregivers with regard to the quality of the care pathways of these patients, in the same way for both, according to an approach comprising two standard phases: 1) item generation, based on interviews with patients and caregivers; 2) validation, involving validity, reliability, external validity, reproducibility, and responsiveness measures. MusiCare is the first reliable and validated French-language self-report questionnaire probing the experience of care management quality in MS.

MusiCare was used for an exploratory study of patient and caregiver dyad interaction to improve their experience of the quality of the patient's care pathway, according to the coping strategies they use to face the consequences of disease. Results highlighted the negative impact of mobilizing avoidance and social support strategies as opposed to positive thinking and problem solving strategies. They also highlight a partner effect, underlying stakes in supporting caregivers of patients living with MS.

To meet objective 2 we developed indicators measuring the quality of the practices and organizations of health professionals with regard to practice guidelines. Forty-eight indicators covering the care pathway of these patients from diagnosis to the management of the symptoms of disability progression have been validated by MS experts, according to the Rand/UCLA Appropriateness Method, considering each expert agreement with the recommendations, and the agreement among the experts.

These indicators were tested to measure, retrospectively, the quality of the care pathway in a population-based cohort of 700 patients with the first manifestations of the disease occurring between January 1, 2000 and December 31, 2001 and during the first 10 years of disease. The data necessary to calculate the indicators were available for 80% of them and over the entire follow-up period for 80% of the patients included. In addition, results highlighted several areas for improving the quality of patient care pathway: access to neurologist for initial assessment and first administration of immunomodulatory treatment, underuse of functional rehabilitation.

Remerciements

Je remercie très sincèrement et chaleureusement toutes les personnes qui m'ont aidé et soutenu tout au long de ce parcours de thèse.

Je remercie particulièrement ma directrice de thèse Me Karine Baumstarck pour tous ses conseils, sa disponibilité, son écoute, sa patience et son soutien indéfectible à chaque étape de ce travail.

Je remercie également le Pr Pascal Auquier, qui a accepté dès l'initiation de ce projet de m'encadrer et de m'accompagner pour ce travail.

J'exprime toute ma gratitude à Me Le Pr Leila Moret et Mr le Pr Patrick Vermersch qui ont accepté d'être rapporteurs au sein de ce jury et me font ainsi l'honneur de juger mon travail.

Je dois également toute ma gratitude au Pr Gilles Edan qui a accepté de présider ce jury et pour son soutien tout au long, non seulement de ce travail, mais depuis de longues années pour tous les travaux que nous avons pu réaliser ensemble et avec son équipe. Sans cette collaboration continue et enthousiaste, ce travail n'aurait pu se concrétiser.

Je remercie les patients, leurs proches aidants qui ont accepté de consacrer du temps pour contribuer à la réalisation de ce projet ainsi que toutes les associations et leurs équipes (Fondation ARSEP, ligue française contre la SEP) qui m'ont spontanément ouvert leurs portes et continuent de soutenir ma réflexion dans ce domaine.

Je remercie toutes les équipes de neurologie et de médecine physique et de réadaptation, tous les réseaux Sclérose en Plaques qui ont accepté de contribuer à cette recherche et particulièrement celles des CHU de Rennes, Nantes, Nancy et du pôle Saint Hélier à Rennes.

Je remercie l'ensemble de l'équipe de santé publique du CHU de Rennes qui m'a soutenu au-delà même de ce travail, en particulier Mes Emilie Chrétien et Stéphanie Hamonic, ingénieures, pour leur implication, leur professionnalisme et leur soutien permanent à mes côtés, ainsi que le Dr F Riou sans qui il n'aurait pu s'initier.

Et bien sûr je remercie mon conjoint, ma famille et mes amis sans qui tout cela ne serait pas arrivé !

Table des matières

AFFIDAVIT	1
AFFIDAVIT	2
1 INTRODUCTION :.....	10
2 SITUATION DU PROBLEME	12
2.1 LA SCLEROSE EN PLAQUES ET SES SPECIFICITES :	12
2.1.1 <i>Contexte et état actuel de la prise en charge de ces patients</i> :.....	12
2.1.1.1 L'histoire « naturelle » de la maladie et son contexte épidémiologique :	12
2.1.1.2 Une maladie incurable marquée par des progrès diagnostiques et thérapeutiques récents :	13
2.1.1.3 Une maladie à l'impact financier important :	15
2.1.1.4 Une maladie qui s'inscrit dans le contexte de l'explosion des maladies chroniques et de son impact pour tous les systèmes de santé :.....	15
2.1.2 <i>Les parcours de soins des patients atteints d'une SEP dans les pays occidentaux</i> :.....	17
2.1.2.1 Des parcours complexes et impliquant de nombreux professionnels de santé :.....	17
2.1.2.2 Des organisations de soins qui s'adaptent pour améliorer ces parcours :	18
2.1.2.3 Des patients et leur entourage qui contribuent également à ces nouvelles organisations :	20
2.2 LA PLACE ET LE ROLE DES AIDANTS DE PATIENTS ATTEINTS D'UNE PATHOLOGIE CHRONIQUE :	21
2.2.1 <i>L'aidant, un terme qui couvre des situations diverses</i> :	21
2.2.2 <i>Les proches aidants de patients atteints d'une SEP et leur rôle</i> :.....	23
2.2.3 <i>L'impact de l'engagement de ces proches aidants</i> :.....	25
2.2.4 <i>Un engagement qui est une source d'expérience incontournable dans une démarche d'évaluation de la qualité des soins</i> :.....	27
2.2.5 <i>Faire face à la charge qu'implique cet engagement pour ces proches aidants</i> :.....	27
2.3 COMMENT EVALUER LA QUALITE DE PARCOURS DE SOINS ? :.....	29
2.3.1 <i>Evaluer la qualité de services rendus, un mouvement international concernant de nombreuses activités humaines</i> :.....	29
2.3.1.1 Dans le domaine de la santé, des initiatives portées par les professionnels de santé :	30
2.3.1.2 D'autres initiatives plus institutionnelles et « descendantes » :	30
2.3.1.3 Un mouvement que les usagers et les patients se sont eux-mêmes appropriés :	31
2.3.2 <i>Une démarche qui s'appuie sur une définition multidimensionnelle de la qualité des soins</i> :.....	32
2.3.3 <i>Une démarche qui s'appuie sur des méthodes et des outils adaptés</i> :.....	33
2.3.3.1 Les indicateurs :.....	34
2.3.3.2 Les recommandations de bonnes pratiques et les indicateurs qualité :	35
2.3.3.3 Les indicateurs qualité concernant les parcours de soins des patients atteints d'une SEP :	37
2.3.3.3.1 A l'échelle internationale :.....	37
2.3.3.3.2 A l'échelle nationale :.....	37
2.3.4 <i>Comment intégrer les patients et leurs proches aidants à cette démarche d'évaluation ?</i> :.....	38
2.3.4.1 Les résultats rapportés par les patients (Patient Reported Outcomes) et leurs mesures (Patient Reported Outcomes Measures) :	39
2.3.4.1.1 La mesure de la qualité de vie liée à la santé :	40
2.3.4.1.2 Les données disponibles pour les patients atteints d'une SEP :	41
2.3.4.1.3 Les autres démarches mises en place :	42
2.3.4.1.4 Des démarches qui peuvent également impliquer les proches aidants :.....	43

2.3.4.2	L'expérience des soins vécus par les patients (Patients Reported Expériences) et ses mesures (Patients Reported Experience Measures) :	44
2.3.4.2.1	La mesure de la satisfaction des patients et de leur entourage :	45
2.3.4.2.2	Les outils disponibles pour mesurer la satisfaction :	46
2.3.4.2.3	Une nouvelle perspective : évaluer l'expérience des patients et de leur entourage :	48
3	LES QUESTIONS DE RECHERCHE ET LEURS OBJECTIFS	50
4	LA MESURE DE LA QUALITE DES PARCOURS DE SOINS DES PATIENTS ATTEINTS D'UNE SEP EN FRANCE : LE POINT DE VUE DE LA DYADE PATIENT – PROCHE AIDANT :	52
4.1	MOBILISER L'EXPERIENCE DES PATIENTS ET DE LEURS PROCHES AIDANTS POUR EVALUER LA QUALITE DES PARCOURS DE SOINS ATTEINTS D'UNE SEP EN FRANCE : LE MUSICARE	53
4.1.1	<i>Contexte et objectifs</i> :	53
4.1.2	<i>Méthodologie</i> :	54
4.1.2.1	L'étape qualitative :	54
4.1.2.1.1	Concernant les patients :	54
4.1.2.1.2	Concernant les proches aidants :	55
4.1.2.2	L'étape quantitative :	56
4.1.3	<i>Résultats</i> :	59
4.1.4	<i>Discussion</i> :	60
4.1.5	<i>Article : cf chapitre annexes</i>	60
4.2	DOCUMENTER LES INTERACTIONS POTENTIELLES DU VECU DES INDIVIDUS PORTEURS D'UNE SEP ET CELUI DE LEUR PROCHE AIDANT :	60
4.2.1	<i>Contexte et objectifs</i> :	60
4.2.2	<i>Méthodologie</i> :	61
4.2.3	<i>Résultats</i> :	61
4.2.4	<i>Discussion</i>	62
4.2.5	<i>Article : cf chapitre annexes</i>	63
5	LA MESURE DE LA QUALITE DES PARCOURS DE SOINS DES PATIENTS ATTEINTS D'UNE SEP EN FRANCE : LE POINT DE VUE DES PROFESSIONNELS DE SANTE :	64
5.1	DEVELOPPER DES INDICATEURS SPECIFIQUES POUR LA MESURE DE LA QUALITE DES PARCOURS DE SOINS DES PATIENTS ATTEINTS D'UNE SEP EN FRANCE :	64
5.1.1	<i>Contexte et objectifs</i> :	64
5.1.2	<i>Méthodologie</i> :	64
5.1.3	<i>Résultats</i> :	66
5.1.4	<i>Discussion</i> :	67
5.1.5	<i>Article : cf chapitre annexes</i>	67
5.2	EVALUER LA QUALITE DES PARCOURS DE SOINS : MOBILISATION DES INDICATEURS QUALITES DEVELOPPEES AU SEIN D'UNE COHORTE DE 700 PATIENTS ATTEINTS D'UNE SEP, EN FRANCE :	67
5.2.1	<i>Contexte et objectifs</i> :	67
5.2.2	<i>Méthodologie</i> :	68
5.2.3	<i>Résultats</i> :	68
5.2.4	<i>Discussion</i> :	69
5.2.5	<i>Article : cf chapitre annexes</i>	70
6	PERSPECTIVES.....	71
6.1	LES ENJEUX METRIQUES ET TRANSCUTURELS DES OUTILS DEVELOPPES :	71

6.2	S'APPUYER SUR LE VECU ET L'EXPERIENCE DES PATIENTS ET DE LEURS PROCHES AIDANTS VIS-A-VIS DE LA QUALITE DE LEURS PARCOURS DE SOINS POUR ENGAGER DE NOUVEAUX OBJECTIFS DE RECHERCHE DANS CE DOMAINE :	72
6.2.1	<i>Une enquête nationale pour recueillir l'expérience des patients et de leurs proches aidants vis-à-vis de la qualité de leurs parcours de soins, en France en 2021 :</i>	<i>72</i>
6.2.2	<i>Engager une pratique collaborative patients – proches aidants – professionnels pour identifier de nouveaux objectifs de recherche pour améliorer la qualité des parcours de soins des patients atteints d'une SEP en France :</i>	<i>73</i>
6.3	PRENDRE EN COMPTE LES MESURES DE LA QUALITE DES PARCOURS DE SOINS DES PATIENTS ATTEINTS D'UNE SEP EN FRANCE, DANS LES DECISIONS EN SANTE CONCERNANT CES PATIENTS ET LEURS PROCHES AIDANTS :	75
6.3.1	<i>Evaluer la sécurité et la faisabilité du traitement par Natalizumab au domicile des patients :</i>	<i>75</i>
6.3.1.1	<i>Un projet expérimental engagé rapidement au CHU de Rennes : Tysad35</i>	<i>76</i>
6.3.1.2	<i>Un projet national mobilisant les principaux centres de ressources et de compétences français : TYSATHOME :</i>	<i>76</i>
6.3.2	<i>Evaluer et comparer l'efficacité d'un traitement de fond par Retixumad par rapport l'Ocrelizumab, pour des patients présentant une forme rémittente de SEP, en France :</i>	<i>77</i>
7	CONCLUSIONS.....	78
8	BIBLIOGRAPHIE :	79
9	ANNEXES :	91
9.1	VERSIONS V0 ET V1 DES QUESTIONNAIRES PATIENTS ET PROCHES AIDANTS :	91
9.1.1	<i>Version V0 du questionnaire patients :</i>	<i>91</i>
9.1.2	<i>Version V1 du questionnaire patients :</i>	<i>105</i>
9.1.3	<i>Version V0 du questionnaire proches aidants :</i>	<i>119</i>
9.1.4	<i>Version V1 du questionnaire proches aidants :</i>	<i>130</i>
9.2	ARTICLE MUSICARE :	142
9.3	ARTICLE APPROCHE COPING DYADIQUE : <i>ARTICLE EN COURS DE REDACTION</i>	168
9.4	ARTICLE DU DEVELOPPEMENT DES INDICATEURS QUALITE :	179
9.5	ARTICLE TEST DES INDICATEURS QUALITE SUR UNE COHORTE DE 699 PATIENTS :	199
9.6	DOSSIER DE CANDIDATURE AUPRES DE L'EHESP POUR L'ORGANISATION DU SEMINAIRE POUR L'IDENTIFICATION DE NOUVEAUX OBJECTIFS DE RECHERCHE :	227
9.7	PROTOCOLE DE L'ENQUETE EPISEP :	231
9.8	PROTOCOLE DE L'ETUDE TYSAD35 :	241

Evaluer la qualité des parcours de soins des patients atteints d'une Sclérose En Plaques en France :

Une approche holistique intégrant le point de vue des patients, de leurs proches aidants et des professionnels de santé impliqués dans ce parcours de soins.

1 Introduction :

Les patients atteints d'une maladie chronique représentent la majorité des patients actuellement pris en charge par les systèmes de santé occidentaux. Or, la structuration et le financement de ces systèmes, comme la formation des professionnels de santé, depuis le début du 20^{ème} siècle, restent encore surtout orientés vers la prise en charge de pathologies aiguës. Les pratiques et les organisations des professionnels de santé doivent donc s'adapter à ce nouvel enjeu qui se pérennise dans tous les pays et se cumule avec celui du vieillissement des populations.

Les maladies neurologiques, dont la Sclérose en Plaques (SEP), font partie des pathologies chroniques les plus fréquentes. La SEP présente plusieurs spécificités, d'une part parce qu'elle touche des patients particulièrement jeunes, mais aussi parce qu'à ce jour aucune thérapeutique ne permet de stopper l'évolution progressive du handicap qu'elle provoque, aux conséquences lourdes pour ces patients. Ces patients, comme leur entourage proche, s'impliquent de plus en plus dans la prise en charge et les décisions concernant leur maladie, à la fois individuellement par leur implication quotidienne face à ses conséquences, et collectivement, par l'émergence et l'implication d'associations importantes les représentant. Ainsi, patients et proches sont de plus en plus reconnus comme des partenaires à part entière pour contribuer à la gestion de la maladie et pour contribuer aux décisions pour y faire face.

Cette place et cette implication reconnues des patients et de leurs proches sont aussi l'une des raisons de l'importance des préoccupations relatives à la qualité des soins qui touchent depuis quelques dizaines d'années toutes les sociétés et particulièrement les sociétés occidentales. Mesurer, objectiver, comparer, améliorer le niveau de qualité des services rendus aux patients et à leur famille est devenu une exigence forte de la collectivité et qui doit mobiliser non seulement les professionnels mais aussi ces patients et leurs proches. En France, ces démarches se sont d'abord et restent encore surtout déployées dans le cadre du système hospitalier qui représente une partie importante de l'offre de soins dans ce pays. Elles ont donc particulièrement ciblé des séjours dans ces établissements, c'est-à-dire des moments précis et de plus en plus courts à l'échelle du parcours de soins de patients atteints d'une pathologie chronique. Alors qu'une approche prenant en compte l'ensemble du parcours de soins de ces patients serait la plus pertinente, elle est complexe à mettre en œuvre, notamment parce qu'elle touche de multiples professionnels aux modes d'exercice différents mais aussi parce qu'elle doit impérativement impliquer les patients et les proches aidants. A ce jour, peu d'outils validés et reconnus sont disponibles pour entreprendre, en vie réelle, une telle démarche. Mon expérience professionnelle depuis plus de 20 ans, a été consacrée à l'appui des équipes, notamment médicales, d'un Centre Hospitalier Universitaire (CHU) de France pour la structuration et le déploiement d'une démarche qualité répondant aux enjeux évoqués ci-dessus ainsi qu'aux exigences d'évaluation externe de ces établissements dont notamment la certification par la Haute Autorité de Santé (HAS). Parallèlement j'ai pu développer des collaborations de recherche avec l'équipe de neurologie de mon établissement et particulièrement avec l'équipe médicale référente pour les patients atteints d'une SEP. Nous avons répondu ensemble à plusieurs appels à projets nationaux et cette collaboration m'a également permis d'intégrer le réseau français des neurologues et des médecins de médecine physique et de rééducation, référents pour la prise en charge des patients atteints d'une SEP en

France. J'ai pu compléter cette expérience professionnelle en tant que coordonnateur d'une structure régionale d'appui à la qualité des soins et à la sécurité des patients en région Bretagne (CAPPS Bretagne). A travers les missions de cette structure j'ai collaboré et accompagné plusieurs projets dans le domaine de la qualité et de la sécurité des soins, avec des équipes de structures médico-sociales et de soins primaires.

C'est grâce à cette expérience, ces collaborations et ce réseau que j'ai pu déposer 2 projets à l'appel à projet Programme de recherche sur la Performance du Système de soins (PREPS), afin de financer mon projet de recherche dont le but était d'apporter, à l'ensemble des acteurs concernés, des données d'évaluation de la qualité des parcours de soins des patients atteints d'une SEP en France. Le travail décrit dans cette thèse est l'aboutissement de cette démarche.

2 Situation du problème

2.1 La sclérose en plaques et ses spécificités :

2.1.1 Contexte et état actuel de la prise en charge de ces patients :

2.1.1.1 L'histoire « naturelle » de la maladie et son contexte épidémiologique :

La SEP est une pathologie auto immune inflammatoire entraînant la démyélinisation du système nerveux central (SNC). Les atteintes de ce SNC sous la forme de plaques sont aléatoires lors de l'apparition de la maladie comme tout au long de son évolution. Cette démyélinisation peut être réversible mais l'évolution de la maladie sur le long terme est marquée par sa multiplication et donc l'aggravation des symptômes qu'elle induit notamment un handicap moteur et sensoriel.

En effet, les conséquences de la maladie sont marquées par des symptômes variés et nombreux induisant eux-mêmes un handicap d'abord moteur. Parmi les symptômes les plus courants, le patient peut constater une perte de force pouvant aller jusqu'à des troubles importants de la motilité notamment des jambes, mais aussi des troubles visuels comme une baisse brutale de la vision (dans le cadre d'une névrite optique rétro bulbaire) ou une diplopie. Il peut également ressentir des troubles de l'élocution et des troubles sphinctériens, comme des troubles de la sensibilité, et, très souvent, une fatigue particulièrement gênante dans sa vie quotidienne.

La SEP se caractérise également par le fait qu'elle débute chez des patients jeunes et qu'il n'existe à ce jour aucun traitement permettant de guérir cette maladie. Son évolution progressive au fil des années et ses conséquences pour le patient sont caractéristiques d'une pathologie chronique mais son impact sur l'espérance de vie n'est pas significatif par rapport à la population générale^{1,2,3}.

Son diagnostic repose sur des critères précis, définis depuis 2001 par un groupe d'experts internationaux (critères de Poser) révisés en 2005 puis en 2010^{4,5,6,7}.

La maladie est classiquement décrite selon 3 formes qui correspondent à des modes d'évolution différents du handicap. La forme la plus fréquente (touchant environ 8 patients sur 10 au début de la maladie) est celle appelée Récurrente Rémittente (RR) et qui correspond à une évolution par poussées récurrentes ayant ou pas des conséquences et entre lesquelles il n'existe pas franchement de symptômes évolutifs. Ces patients peuvent, pour une partie d'entre eux, présenter une évolution vers une autre forme de la maladie appelée forme secondairement progressive (SP). Elle est marquée par une évolution progressive du handicap sans ou avec peu de poussées. Cette évolution est également celle des formes primaires progressive (PP) ou progressive d'emblée marquées donc par une évolution progressive du handicap sans ou avec peu de poussées, dès le début de la maladie. La maladie peut être également marquée par des troubles cognitifs, des troubles anxieux voire dépressifs.

De façon plus ou moins marquée et rapide selon la forme de la maladie, son évolution la plus fréquente est donc celle de l'aggravation du handicap dont elle est responsable, lequel entraîne pour beaucoup de patients des troubles de la locomotion qui nécessitent des aides à la marche voire parfois les confinent au fauteuil roulant. Ces conséquences physiques ont évidemment un impact important sur le maintien d'une activité professionnelle, au-delà des conséquences pour la vie quotidienne. L'exercice d'une activité professionnelle est d'ailleurs souvent remise en question, obligeant les patients à s'engager dans la voie d'une reconnaissance de leur handicap et de leur invalidité au regard du code du travail du pays dans lequel ils vivent, décisions qui ne

sont pas sans conséquences importantes du point de vue financier pour beaucoup d'entre eux⁸. Concernant d'autres conséquences pour la vie quotidienne, actuellement, en France, des mesures adaptées comme l'aménagement du domicile, les aides et soutiens professionnels, permettent, dans la plupart des cas, aux patients de vivre à domicile, tout en bénéficiant, notamment pour les plus lourdement handicapés d'entre eux, d'épisodes d'hospitalisation dans des services adaptés notamment ceux de rééducation et réadaptation physique. Cependant, ces services ne sont pas disponibles et facilement accessibles sur tout le territoire et, de façon générale, ce maintien à domicile repose en grande partie sur la disponibilité des proches aidants c'est-à-dire de l'entourage « non professionnel » du patient.

D'un point de vue épidémiologique, la maladie se déclare surtout chez des patients adultes jeunes (entre 20 et 40 ans) et de sexe féminin (sexe ratio de 2 à 2,5)^{2,9}. Elle touche donc des personnes actives avec des conséquences très significatives sur leur projet de vie, personnelle et professionnelle.

Il s'agit d'une pathologie mondiale même si la répartition des cas est relativement inégale entre les grandes zones géographiques du globe. Ainsi, on évoque de façon traditionnelle un gradient nord sud pour l'hémisphère nord. Selon les données les plus récentes, ce sont plus de 2 millions de personnes qui seraient actuellement touchées dans le monde¹⁰.

En France, on retrouve une prévalence plus forte dans les régions du Nord du pays par rapport à celles du Sud et également dans celles de l'Est par rapport à celles de l'Ouest^{11,12}.

Par ailleurs, les données nationales ont estimé, sur la base des données d'exonération du ticket modérateur de la Caisse Nationale de l'Assurance Maladie (CNAM) l'incidence de la maladie à 6,8 cas pour 100 000 habitants (IC 95% ; 6,7-6,9). D'autres études, régionales, l'ont estimé à 4,4 cas pour 100 000 habitants (95% CI: 3,6; 5,4) en région Lorraine et à 5,5 cas pour 100 000 habitants (95. CI : 4,4 ; 6,6) en région Bretagne. De plus, les résultats de toutes ces études confirment que cette pathologie touche plus fréquemment les femmes que les hommes^{13,14,15,16}. Selon les données les plus récentes 110 000 personnes vivant en France seraient actuellement atteintes par cette pathologie.

L'étiologie de la SEP reste à ce jour largement inexpliquée même s'il est admis qu'elle serait liée à des facteurs d'une part génétiques et d'autre part environnementaux, et qu'elle est décrite comme une pathologie d'étiologie multifactorielle. Elle associe donc une susceptibilité génétique avec plus de 400 variants de gènes identifiés et des facteurs d'environnement dont certains ont également été identifiés : exposition tardive au virus EBV, carence en vitamine D, obésité chez l'enfant, exposition au tabac et aux pesticides^{17,18}.

La SEP est donc une pathologie chronique dont l'étiologie reste encore mal définie et dont lesières manifestations apparaissent chez des patients jeunes. Au-delà de ses conséquences physiques et psychologiques, son impact sur leur bien-être général (vie personnelle, sociale, professionnelle...) est considérable. Les enjeux d'un point de vue thérapeutique comme plus largement d'un point de vue de la qualité des parcours de soins pour ces patients, sont donc particulièrement importants pour eux et leur famille mais aussi pour nos systèmes de santé au regard des ressources et des organisations que doit mobiliser la prise en charge de cette maladie.

2.1.1.2 Une maladie incurable marquée par des progrès diagnostiques et thérapeutiques récents :

A ce jour, il n'existe pas de traitement curatif permettant d'envisager la guérison de patients atteints d'une SEP. Le peu de certitudes concernant l'étiologie de la maladie et son caractère probablement multifactorielle n'ont pas permis de mettre en place de propositions de prévention capable d'empêcher l'apparition de la maladie. Face à cela, quelle que soit la forme de la maladie, les enjeux thérapeutiques sont de limiter au maximum la progression naturelle de la démyélinisation et la perte axonale et donc du handicap induit et des conséquences de celui-ci.

Deux types de traitements sont actuellement disponibles et accessibles pour les patients pris en charge en France : des traitements de fond (désignés sous le terme de « disease modifying treatments » dans les pays anglo-saxons) et des traitements symptomatiques, associant traitements médicamenteux et non médicamenteux, pour atténuer l'expression des atteintes du SNC (traitement des poussées, traitement de la douleur, traitement des troubles sphinctériens, de la spasticité ...).

Les traitements de fond de la SEP sont apparus au cours des années 1990 et se sont multipliés depuis la mise sur le marché du 1^{er} d'entre eux, l'interféron bêta. Les stratégies thérapeutiques dans ce domaine dépendent de la forme de la maladie. Si on prend en compte les formes les plus fréquentes c'est à dire les formes RR, les 1^{ers} traitements de référence ont été des traitements immunomodulateurs par interféron puis par Copaxone. Ils restent actuellement les traitements de 1^{ère} ligne et malgré les contraintes du mode d'administration (voie sous cutanée), ils demeurent d'actualité car leur prescription au long cours (sur quelques décennies) ne présente pas de risques potentiels majeurs, particulièrement infectieux et oncologiques, contrairement aux traitements immunosuppresseurs.

Actuellement, des médicaments immunosuppresseurs par voie orale sont également disponibles en première ligne : le Teriflunomide, le Dimethyl-fumarate, et, dans de nombreux pays mais pas en France, le fingolimod. D'autres traitements immunosuppresseurs puissants ont été assez rapidement utilisés notamment pour les formes les plus actives comme par exemple la mitoxantrone (en cures brèves d'induction) depuis 2001 et, depuis 2007, le natalizumab (en perfusions mensuelles continues), et plus récemment, en 2018, l'ocrelizumab (en perfusions semestrielles). Ils sont avant tout utilisés en 2nde ligne, car, si leur efficacité est plus marquée, leurs effets indésirables au long court peuvent être sévères (risque infectieux notamment avec des conséquences pouvant aller jusqu'au décès)^{19,20,21}.

Ces risques et la nécessité de leur surveillance font que les traitements de fond de la SEP restent à ce jour des traitements initiés par un médecin spécialiste en neurologie. De même, les traitements immunosuppresseurs de seconde ligne restent à ce jour, en France, à usage surtout hospitalier, administrés dans le cadre de séjours en hospitalisation de jour. Cependant, et, comme nous l'illustrerons ultérieurement, de nouvelles expériences d'usage, dans un contexte d'hospitalisation à domicile notamment, sont en cours (projet Tysathome, chapitre perspectives).

Parmi les traitements symptomatiques, le plus emblématique est celui recommandé lors de la survenue d'une poussée confirmée par un neurologue. Selon les recommandations, la prescription d'un protocole de corticoïdes à forte dose (1g/jour pendant 3 à 5 jours consécutifs par voie IV ou par voie orale) contribue à une récupération plus rapide des symptômes dus à cette poussée^{22,23,24}. Par ailleurs, cette prise en charge vise à répondre à tout symptôme dû à la maladie. Parmi ceux les plus fréquents et qui altèrent la qualité de vie, la fatigue et la douleur sont une préoccupation importante. Au-delà de thérapeutiques médicamenteuses, ils font beaucoup appel aux professionnels de rééducation et de réadaptation comme par exemple les séances de kinésithérapie mais aussi les séjours dans des centres spécialisés. Les troubles urinaires comme les troubles ophtalmologiques touchent également de nombreux patients et font appel aux professionnels de santé spécialisés dans ces domaines²⁵.

Au-delà de ces traitements, la prise en charge de ces patients a été particulièrement marquée par l'amélioration des techniques d'imagerie depuis quelques dizaines d'années. L'apparition et le développement des techniques d'IRM ont été vécus par les neurologues spécialistes de cette pathologie comme une véritable révolution pour la prise en charge de ces patients au point de devenir l'un des éléments pivots d'étapes aussi importantes que le diagnostic et les décisions de mise en route de traitements de fond comme du suivi de leur efficacité. Ainsi, les recommandations internationales pour le diagnostic de la maladie comme celles pour l'indication des traitements de fond, font explicitement référence à des critères d'IRM^{26,27}.

2.1.1.3 Une maladie à l'impact financier important :

L'évolution de la prise en charge des patients au cours de ces dernières décennies, sur le plan thérapeutique comme sur le plan diagnostic, et donc les recours au système de soins, ont fait considérablement évoluer les coûts liés à la prise en charge de cette maladie. Ces coûts, dans les pays européens particulièrement, sont avant tout et dans leur majeure partie, assumés par les systèmes de financement des soins mutualisés à l'échelle nationale, comme l'assurance maladie en France. Ils sont liés d'abord aux coûts des traitements de fond dont beaucoup de patients bénéficient pendant plusieurs années et alors que ces traitements sont initiés de plus en plus tôt après le diagnostic de la maladie. Ils sont également dus aux séjours hospitaliers que la prise en charge des multiples symptômes de la maladie et l'administration d'un certain nombre de traitements symptomatiques, par exemple lors de poussées, et de fond, nécessitent. Globalement, ils sont d'autant plus importants que le niveau de handicap est lui-même important. Au-delà de ces données valables quels que soient les pays, le niveau de ces coûts varie cependant beaucoup selon ces pays et selon leurs systèmes de financement des soins ainsi que selon les services auxquels les patients peuvent accéder ou pas. Selon l'étude la plus récente conduite par G.Kobelt et décrivant ces coûts dans 16 pays européens, de l'Ouest, du Sud et de l'Est, le total des coûts moyens annuels étaient estimés, tous ces pays confondus à : 22 800 euros (12,600–27,300) pour un patient présentant une maladie peu sévère, 37 100 euros (22 500 -54 700) pour un patient présentant une maladie moyennement sévère et 57 500 (27 500 – 77 600) pour un patient présentant une maladie sévère²⁸. La sévérité de la maladie était définie selon le niveau de handicap et plus particulièrement selon le niveau de l'EDSS. Concernant la France, ces coûts moyens étaient respectivement de 22 600 euros, 38 100 euros et 48 100 euros situant notre pays dans la moyenne des 16 pays inclus dans cette étude, voire en dessous pour les patients dont le niveau de handicap est le plus sévère²⁹. Il faut par ailleurs souligner que les patients atteints d'une SEP en France peuvent bénéficier d'une prise en charge au titre des affections de longue durée (ALD). Ce système universel vise à réduire le reste à charge pour des patients atteints d'une pathologie chronique et devant bénéficier d'un traitement au long cours, comme les patients atteints d'une SEP.

Les patients atteints d'une SEP et vivant dans un pays bénéficiant d'un système de protection sociale avancé, ont pu assez récemment bénéficier de réelles avancées thérapeutiques et pour le suivi par imagerie de l'évolution de leur maladie. En France, elles sont désormais accessibles pour la grande majorité des patients concernés, y compris d'un point de vue financier. Ces avancées ont un réel impact sur l'évolution de la maladie mais aussi sur le parcours de soins et sur les décisions de prise en charge de ces patients. Au-delà, c'est bien la qualité de ces parcours et de cette prise en charge que cette évolution des pratiques et des organisations conduit à interroger, du point de vue des patients d'abord mais aussi de celui de leur entourage et des professionnels de santé concernés.

2.1.1.4 Une maladie qui s'inscrit dans le contexte de l'explosion des maladies chroniques et de son impact pour tous les systèmes de santé :

La prévalence des pathologies chroniques n'a cessé de croître et continuera très probablement encore de croître pendant les années futures particulièrement dans les pays occidentaux. Cela est lié notamment à l'allongement de l'espérance de vie et à la capacité des systèmes de soins de ces pays à éviter de nombreuses morts liées à des épisodes aigus de maladies par exemple infectieuses ou cardio-vasculaires. Cette augmentation de la prévalence des pathologies chroniques est vraie également en France³⁰. On parle ainsi d'une double transition démographique et épidémiologique qui conduit à mettre au centre de notre système de soins ces patients porteurs d'une voire de plusieurs pathologies chroniques^{30,31,32}.

Pour définir une pathologie chronique, dans le contexte des systèmes de santé occidentaux dont le système français, on peut s'appuyer sur plusieurs définitions sensiblement différentes. Ainsi, l'OMS met surtout l'accent sur la durée de la maladie *en parlant d'affection de longue durée qui, en règle générale, évolue lentement et qui nécessite un traitement et des soins à long terme*³³. Pour les USA, le Center for Disease Control ajoute à ce critère principal un caractère non transmissible de la maladie. En France, un consensus émerge depuis quelques années pour s'appuyer sur la définition du Haut Conseil de Santé Publique (HCSP). Cette proposition vise à prendre en compte la situation globale des patients, du point de vue notamment des conséquences de la maladie, et ainsi s'affranchir d'une approche surtout biomédicale³⁰. Ainsi, pour le HCSP, une maladie ou plus généralement un état chronique, en référence au terme « chonic condition » utilisé dans les pays anglo-saxons, se définit par :

- la présence d'un état pathologique de nature physique, psychologique ou cognitive, appelé à durer
- une ancienneté minimale de trois mois, ou supposée telle
- un retentissement sur la vie quotidienne comportant au moins l'un des trois éléments suivants:
 - une limitation fonctionnelle des activités ou de la participation sociale
 - une dépendance vis-à-vis d'un médicament, d'un régime, d'une technologie médicale, d'un appareillage ou d'une assistance personnelle
 - la nécessité de soins médicaux ou paramédicaux, d'une aide psychologique, d'une adaptation, d'une surveillance ou d'une prévention particulière pouvant s'inscrire dans un parcours de soins médico-social

Cette approche sera celle que nous considérerons dans le cadre de ce travail.

Evaluer la prévalence comme l'incidence de ces pathologies ou de ces états chroniques, au regard de cette définition, reste actuellement complexe. En effet, si on se réfère au nombre de patients bénéficiant en France du système d'ALD, ce sont près de 10 millions de personnes qui sont concernées. Selon cette approche, ce sont les patients atteints des pathologies chroniques suivantes qui sont les plus nombreux : maladies cardio-vasculaire, cancers, diabète et pathologies psychiatriques de longue durée³⁴. Cependant, beaucoup de spécialistes du domaine considèrent que le nombre de personnes présentant une pathologie ou un état correspondant à la définition du HCSP serait le double actuellement en France et qu'il ne cesse de progresser. Parmi ces affections chroniques, les affections neurologiques et musculaires connaissent un fort taux de croissance. Inévitablement, le coût de la prise en charge des conséquences de ces pathologies chroniques par le système de protection sociale est un sujet particulièrement crucial et il contribue pour une bonne partie à l'accroissement continu de la part de ces dépenses sociales dans le Produit Intérieur Brut (PIB) de tous les pays occidentaux.

Par ailleurs, dans un contexte général d'inégalités sociales de santé particulièrement marquées en France, les enjeux liés aux pathologies chroniques, par leurs conséquences sur l'état de santé mais aussi sur la vie sociale et la vie professionnelle des patients, revêtent une importance majeure. Ainsi, l'hypothèse d'un effet cumulatif par le biais de la survenue d'une pathologie chronique face à des inégalités sociales préexistantes est une hypothèse aujourd'hui reconnue³⁵. Dans le cadre d'un système de protection sociale comme celui existant actuellement en France, ce double défi et la capacité à y répondre en respectant les principes de solidarité nationale établis depuis l'après 2nde guerre mondiale, est une préoccupation majeure pour la population, pour les responsables politiques, les gestionnaires du système de soins comme pour les professionnels de santé.

Ces pathologies chroniques représentent d'abord un véritable défi pour les patients et leur entourage, en affectant particulièrement leur qualité de vie, leur vie sociale et professionnelle.

Nous reviendrons sur cet impact important pour les patients atteints d'une SEP et leurs proches aidants dans un paragraphe suivant de ce manuscrit.

Si elles représentent également un défi pour les professionnels de santé, celui-ci peut aussi représenter une réelle opportunité d'évolution de leurs pratiques et de leurs organisations.

En effet, le modèle du système de soins français, parce qu'il reste encore actuellement surtout axé sur la prise en charge de pathologies aiguës et qu'il se caractérise par un cloisonnement marqué entre le secteur sanitaire et le secteur médico-social et entre les soins de ville et les soins hospitaliers, n'est pas particulièrement bien adapté pour la prise en charge de ces patients, comme beaucoup d'autres systèmes occidentaux. Au contraire, pour des patients nécessitant l'intervention de nombreux professionnels de santé, en ville et à l'hôpital, et pour lesquels les conséquences de leur maladie induisent des enjeux sociaux importants (vie professionnelle, vie sociale, ressources financières...), il contribue souvent à rendre plus complexe le quotidien de leur parcours de soins. Cette complexité est liée notamment à la multiplicité des acteurs et de leurs lieux d'exercice, comme à leur manque de coordination, aux défauts et dysfonctionnements de communication et d'échanges d'informations entre eux, alors que ces échanges sont nécessaires pour assurer le lien et la continuité entre toutes les interventions dont peut bénéficier le patient.

Cette logique de parcours coordonné n'est donc pas celle que génèrent spontanément l'organisation et le financement de notre système de soins. A ce jour, l'accès des patients aux soins et services les plus adaptés au contexte et aux conséquences de leur pathologie peut être largement amélioré et donc aussi la qualité globale de leur prise en charge.

La SEP est donc la 1^{ère} pathologie chronique affectant le sujet jeune. Au-delà de l'avancée des connaissances générales sur les causes et l'évolution de la maladie ainsi que sur sa prise en charge thérapeutique, la prise en soins de ces patients dépend fortement de l'organisation et du mode de financement du système de soins et notamment de la coordination des parcours de soins. Or, dans ce domaine, à ce jour, le système de soins français, comme beaucoup d'autres systèmes occidentaux, n'est pas le modèle le plus adapté et cherche encore les moyens et les conditions pour faire face à ce bouleversement et ce défi que représente l'explosion des pathologies chroniques.

2.1.2 Les parcours de soins des patients atteints d'une SEP dans les pays occidentaux :

2.1.2.1 Des parcours complexes et impliquant de nombreux professionnels de santé :

La prise en soins de ces patients par notre système de santé a pour objectifs de répondre aux enjeux diagnostiques, thérapeutiques et aux conséquences globales de la maladie pour le patient mais aussi, en partie, pour son entourage tout au long de son évolution.

En France, ce parcours de soins est particulièrement déterminé par la forme de la maladie et sa durée d'évolution qui se traduit dans la grande majorité des cas par une progression du handicap. Ainsi, au début de la maladie, le pivot de ce parcours est le médecin neurologue référent et son équipe. Même si le médecin généraliste est un acteur incontournable pour l'accès de 1^{er} recours et pour la coordination de la prise en charge, celle-ci reste en effet assez centrée sur l'hôpital, à la fois pour le traitement des poussées et pour le suivi du traitement de fond, particulièrement pour les patients présentant une forme RR. Pour les patients présentant une forme progressive et ceux dont le handicap a significativement progressé au fil de l'évolution de la maladie, les traitements de fond marquent leurs limites. La prise en charge des conséquences physiques mais aussi professionnelles de cette progression du handicap

impliquent alors beaucoup plus les professionnels et services de Médecine Physique et de Réadaptation (MPR), avec les professionnels de soins primaires (médecin, IDE, kinésithérapeute), même si les équipes de neurologie continuent à suivre ces patients. De façon générale la place des professionnels de soins primaires et leur coordination avec les autres professionnels de 1^{ère} ligne reste un point de fragilité reconnu, comme pour beaucoup d'autres pathologies chroniques.

Selon les pays et donc selon l'organisation de leur système de santé, on peut observer des nuances concernant l'implication des professionnels de santé dans les parcours de soins de patients atteints d'une SEP.

Ainsi, en Angleterre comme aux Pays Bas où les centres de soins primaires, regroupant de nombreux professionnels de santé, sont plus développés qu'en France, le médecin généraliste, mais aussi des infirmières spécialisées (MS Nurses), jouent un rôle pivot plus important notamment pour la coordination des soins pour ces patients³⁶.

Aux USA, les parcours de soins des patients atteints d'une SEP sont marqués par le modèle général d'organisation et de financement du système de santé, lequel repose pour partie sur l'état (Medicaid pour les patients les plus pauvres et Medicare pour les patients âgés de plus de 65 ans), et pour une autre partie conséquente de la population disposant d'une activité professionnelle, sur des assurances et des fournisseurs de services entièrement privés comme par exemples les Health Maintenance Organizations et les Preferred Providers Organizations. Une partie des patients peuvent ainsi être pris en charge selon des modèles que l'on peut qualifier d'intégrés parce que l'ensemble des professionnels et services de soins nécessaires font partie d'une même organisation qui les finance et cela dans un territoire géographique donné. Les autres patients qui ne peuvent intégrer aucune de ces organisations fédérales ou privées, n'ont d'autres recours qu'une sollicitation du système au cas par cas comme par exemple lors de la survenue d'une poussée. Ainsi, des comparaisons internationales ont constaté que le recours aux services des urgences par ces patients était particulièrement élevé dans ce pays³⁷.

2.1.2.2 Des organisations de soins qui s'adaptent pour améliorer ces parcours :

Plusieurs initiatives pour favoriser ces prises en charge complexes et améliorer le lien et la coordination entre tous les professionnels intervenants, tout en reconnaissant la place et le rôle central du patient et de son entourage, ont été développées depuis une trentaine d'années, en France comme dans la plupart des pays occidentaux. Les réseaux de soins, les parcours de soins coordonnés, l'impulsion de l'éducation thérapeutique, la formalisation du chronic disease management, notamment dans les pays anglo-saxons, en sont des exemples, qui concernent de nombreuses pathologies chroniques dont la SEP.

Pour la France, parmi les actions concrètes développées pour favoriser la coordination et la continuité des soins, selon une approche centrée sur les besoins et les attentes du patient, on peut citer le Plan Personnalisé de Santé (PPS) pour les personnes âgées atteintes d'une pathologie chronique ou le programme personnalisé des soins pour les patients atteints d'un cancer. Il y a une quinzaine d'année, la HAS a également édité des guides « affection de longue durée » afin d'aider les professionnels de santé, notamment ceux de 1^{ère} ligne, à optimiser le parcours de soins de leurs patients. Pour la SEP, un 1^{er} guide a été publié en 2006 et est actuellement en cours de révision. Au-delà d'informations générales concernant les symptômes, les conséquences, l'évolution de la maladie mais aussi sa prise en charge thérapeutique, il précise ce que devrait être un parcours de soins coordonné pour ces patients, selon la forme de leur maladie notamment³⁸.

Toujours en France, ce sont notamment les réseaux de santé qui se sont déployés à l'échelle régionale, dans le cadre législatif défini en 2002, et qui ont alors contribué à l'émergence de nouvelles organisations. Ils avaient notamment pour objectif de favoriser l'accès aux soins, la coordination entre les professionnels, l'information aux patients et ainsi de contribuer à une prise en charge la plus adaptée possible pour eux. Concernant la SEP, et malgré notamment les aléas financiers auxquels ils sont soumis, ces réseaux persistent à ce jour et on peut affirmer que leurs contributions sont reconnues par les professionnels comme par les patients et leur entourage³⁹. Au-delà du travail des équipes de ces réseaux pour améliorer la coordination entre les professionnels de santé impliqués dans la prise en charge des patients dans leur région, beaucoup ont également contribué au déploiement de l'éducation thérapeutique pour ces patients alors que des nouveaux traitements de fond ont été autorisés par les autorités sanitaires au cours des 30 dernières années. La mise en place en cours des dispositifs d'appui et de coordination, notamment les Communautés Professionnelles Territoriales de Santé (CPTS), dont le but est d'améliorer, à l'échelle des territoires de santé, les parcours de santé complexes, ne semblent pas devoir, à ce jour, se substituer aux réseaux régionaux existants. De plus, depuis quelques années, des Centres de Ressources et de Compétences SEP (CRC SEP) ont été reconnus dans toutes les régions afin de permettre un meilleur accès à une expertise pluridisciplinaire pour les patients. L'ensemble de ces initiatives et de ces organisations ont donc pour but commun d'améliorer la prise en charge globale des patients dans un souci permanent de coordination et de continuité entre tous les acteurs.

Dans plusieurs pays anglo-saxons et avant tout aux USA une nouvelle organisation coordonnée des soins appelée le « disease management » a été mise en place depuis les années 1990. Outre le suivi de paramètres cliniques, ces organisations proposées aux assureurs santé pour leur « portefeuille » de patients, assurent des services d'éducation à la santé, d'éducation thérapeutique et de coordination des soins. Adossées à des référentiels de pratiques et d'organisation (managed care) définis par les professionnels de santé, ces organisations visent à des prises en charge plus efficaces des patients atteints d'une pathologie chronique et donc à l'amélioration de la qualité des soins mais aussi à une meilleure maîtrise des dépenses⁴⁰. Plusieurs pays européens se sont inspirés de ce modèle, notamment l'Allemagne et le Royaume Uni⁴¹.

Les évaluations de ces dispositifs sont plus nombreuses que celles des réseaux de santé en France. Globalement, elles vont dans le sens d'un impact positif sur la qualité des soins grâce notamment au déploiement de l'éducation thérapeutique, au retour d'information sur leurs pratiques aux professionnels impliqués, à la place centrale dans ce type de dispositif des professionnels de soins primaires et aux incitations financières⁴². Cependant, cette réussite est liée au contexte (organisations, financement, culture...) dans lequel ces initiatives sont déployées et l'impact financier attendu n'est que rarement au rendez-vous^{43,44}.

Comme pour la plupart des pays, le système de soins français cherche encore à s'adapter pour optimiser la prise en charge des patients atteints d'une pathologie chronique. En effet, les parcours de soins de ces patients restent à ce jour encore trop complexes et ce niveau de complexité est un frein, d'abord pour l'accès aux soins, et, plus globalement, pour l'amélioration de leur qualité. C'est pourquoi des innovations ont émergé dans ce sens depuis plusieurs années déjà et dans de nombreux pays dont la France. Aucune à ce jour ne s'est réellement imposée comme modèle et d'autres enjeux comme la place et le rôle des patients eux-mêmes et de leur entourage, dans la mise en place de ces nouvelles pratiques de prise en charge, sont devenus déterminants dans cette démarche. De plus, méthodes et outils pour évaluer l'impact de ces nouvelles organisations et pratiques sur la qualité des soins restent sinon à construire, à adapter au contexte et aux spécificités des systèmes de soins comme des pathologies elles-mêmes.

2.1.2.3 Des patients et leur entourage qui contribuent également à ces nouvelles organisations :

En France, des associations de patients ont vu le jour dès le début du 20^{ème} siècle, comme c'est le cas pour la ligue contre le cancer. Elles se sont surtout développées dans la 2^{nde} moitié de ce siècle, dans un 1^{er} temps comme associations de défense puis plus largement comme partenaires représentant les patients et plus largement les usagers du système de santé notamment vis-à-vis des acteurs politiques du pays. La période succédant à la 2^{nde} guerre mondiale voit en effet émerger une nouvelle conception de la santé qui s'appuie sur une reconnaissance sociale et politique des patients et plus largement de la population, dans de nombreux pays à travers le monde, avec également la mise en place d'institutions nouvelles comme l'OMS (1948).

Dans ce contexte, le dernier quart du 20^{ème} siècle est marqué par des progrès scientifiques et thérapeutiques majeurs, l'émergence de nouvelles pathologies « mondiales » comme le SIDA mais aussi par des évolutions importantes (certains parlant même de révolution) des normes sociétales conduisant notamment au développement de la démocratie participative dans le champ sanitaire comme dans d'autres champs de la vie en société/de la vie publique. Ces nouvelles demandes et attentes des « usagers » des systèmes de santé, c'est-à-dire des citoyens, ont contribué à faire évoluer le rôle et la place des associations dans la plupart des pays occidentaux. Elles sont alors devenues des acteurs politique et stratégique reconnus, cela quel que soit le modèle de ces systèmes de santé. En France, cette reconnaissance s'est accompagnée d'un cadre législatif dont l'une des étapes importantes est la loi du 4 Mars 2002 relative aux droits des malades et à la qualité du système de santé. Depuis, on peut également citer la loi sur la modernisation du système de santé de Janvier 2016 dont l'une des trois orientations concerne le développement du droit des patients.

Aujourd'hui, en France, ce mouvement associatif est constitué de milliers d'associations nationales mais aussi régionales voire plus locales, dont la vocation principale est le soutien aux patients et à leur entourage. Concernant plus particulièrement la SEP, ces associations sont très actives et présentes sur l'ensemble du territoire national. Leur soutien aux patients et à leur entourage se manifeste par l'animation d'un réseau de correspondants en proximité et par la mise à disposition d'une information importante sur tous les domaines touchant à la maladie via leurs sites internet notamment. Cet engagement s'inscrit aussi dans les principes d'éducation par les pairs. Certaines associations sont également particulièrement actives pour soutenir des projets de recherche initiés par les professionnels de santé dans des domaines en lien avec la pathologie et les patients qu'elles représentent.

Ce mouvement relatif aux droits et à la place des usagers dans le système de soins a également bouleversé la place et le rôle du patient lui-même dans la gestion de sa maladie et de son parcours de soins. Partant d'une d'approche ou de soins centrés sur le patient (Patient Centred Care) cette démarche vise à faire du patient un réel partenaire des professionnels de santé en lui reconnaissant de véritables savoirs expérientiels de sa maladie et de son parcours de soins, à côté des savoirs acquis par ces professionnels de santé⁴⁵. L'autonomie du patient devient également une préoccupation importante qui renvoie à sa liberté de choix mais aussi de responsabilité vis-à-vis de sa prise en charge et de son parcours⁴⁶. Au-delà du patient lui-même, c'est aussi son entourage et notamment les proches aidants que ce vaste mouvement va toucher et souvent directement impliquer. Cependant, si ces évolutions ambitieuses sont aujourd'hui reconnues dans nos systèmes de santé, leur mise en œuvre au quotidien reste largement perfectible et les pratiques des professionnels pour y répondre restent très hétérogènes. Ces constats, reconnus également en France, soulignent tout l'intérêt d'interroger ces pratiques et ces organisations du point de vue des patients eux-mêmes comme de leur entourage.

Au-delà des organisations et des pratiques des professionnels, l'adaptation des modèles de prise en charge des patients atteints d'une pathologie chronique est marquée par l'engagement fort des patients et de leur entourage pour la mise en œuvre de solutions pertinentes. Ce mouvement,

encore récent, doit contribuer à améliorer la qualité du service rendu aux patients eux-mêmes. Il permet également de mieux mettre en évidence la place et le rôle de l'entourage dans le parcours de soins d'une personne atteinte d'une pathologie chronique.

2.2 La place et le rôle des aidants de patients atteints d'une pathologie chronique :

2.2.1 L'aidant, un terme qui couvre des situations diverses :

Aidant « familial », aidant « naturel », aidant « informel » ou « proche aidant » : tous ces termes font référence à des personnes de l'entourage proche de personnes malades et qui leur apportent une aide en lien avec la maladie et en complément du rôle des professionnels de santé. Cette aide peut revêtir des formes très diverses, chacune quasiment spécifique à chaque situation, chaque contexte du patient et de cet aidant non professionnel. Bien que ce statut d'aidant non professionnel concernerait environ 12% de la population en France, il n'existe pas encore à ce jour de définition « unique » et qui fasse consensus pour les désigner⁴⁷. De façon générale, le terme d'aidant définit toute personne qui apporte un soutien à une personne dépendante dans l'accomplissement des actes essentiels de la vie courante ou qui a besoin d'une surveillance quotidienne et régulière. Dès lors, la personne aidée est le plus souvent une personne handicapée, une personne âgée ou une personne malade. Cette notion est apparue au début des années 1970 pour désigner l'investissement de ces personnes auprès d'un proche âgé, notamment en Amérique du Nord⁴⁸.

En France, selon le code de la santé publique, l'aidant est « la personne entretenant avec l'intéressé des liens étroits et stables » (art. 11 du Code de la Santé Publique). Le code de l'action sociale et des familles, par son Article R245-7, définit plus précisément l'aidant familial : « *est considéré comme un aidant familial, le conjoint, le concubin, la personne avec laquelle le bénéficiaire a conclu un pacte civil de solidarité, l'ascendant, le descendant ou le collatéral jusqu'au quatrième degré du bénéficiaire, ou l'ascendant, le descendant ou le collatéral jusqu'au quatrième degré de l'autre membre du couple qui apporte l'aide humaine et qui n'est pas salarié pour cette aide* ». Au-delà de cette caractérisation des liens qui unissent l'aidant à la personne malade, la loi du 4 mars 2002 relative aux droits des personnes malades a également précisé ce que pouvait être le rôle d'un proche que l'on pourrait qualifier d'aidant, dans l'expression et le respect du droit des patients face au système de soins notamment. Ainsi, elle prévoit que tout patient majeur peut désigner une personne de confiance qui sera consultée au cas où la personne malade serait hors d'état d'exprimer sa volonté et de recevoir l'information nécessaire à cette fin (article L. 1111-6 du Code de la santé publique). Cet engagement ne vise cependant pas à ce que cette personne se substitue à la personne malade. Sa responsabilité est de l'aider à rester autonome le plus longtemps possible, à retrouver une continuité dans ses projets de vie, mais aussi dans l'image qu'elle a d'elle-même. Cependant, cette personne de confiance n'est pas nécessairement la personne identifiée comme proche aidant du patient.

Il est donc nécessaire d'aller au-delà de ce cadre législatif pour approfondir le champ de définition des personnes non professionnelles apportant une aide à des personnes malades de leur entourage. Ainsi, en 2007, un collectif inter associatif d'aidants familiaux (comprenant notamment l'Association Française des Sclérosés en Plaques) a publié une charte européenne de l'aidant familial⁴⁹. Cette charte définit l'aidant « familial » comme la personne qui vient en aide régulièrement, à titre non professionnel, en partie ou totalement, à une personne handicapée de son entourage, pour les activités de la vie quotidienne. Cette aide régulière peut être prodiguée de façon permanente et prendre différentes formes comme le nursing, l'aide à la mobilité, l'accompagnement à l'éducation et à la vie sociale, les démarches administratives, l'aide cognitive et dans la relation avec autrui, le soutien psychologique, la communication et

les activités de la vie quotidienne (vie domestique et vie courante incluant la scolarité ou la vie professionnelle). La HAS se base de fait sur la définition de la charte COFACE pour définir l'aidant naturel, le terme naturel étant utilisé par opposition à « professionnel ».

L'aidant familial ou naturel est donc cet homme ou cette femme, non professionnel, qui, par défaut ou par choix, vient en aide à une personne dépendante de son entourage. L'aidant familial doit pouvoir choisir d'accomplir son rôle d'aidant à temps plein ou à temps partiel en conciliant éventuellement ce rôle avec une activité professionnelle. Ce choix doit être libre et éclairé, et doit pouvoir être réévalué en tout temps, même si, en pratique, l'aidant n'a pas toujours le choix de refuser (distribution implicite des rôles des enfants dans le cas par exemple d'un parent atteint de maladie d'Alzheimer ou du conjoint dans le cas d'un(e) patient(e) atteint(e) d'une SEP). Dans d'autres cas, l'aidant peut se désigner lui-même, pour une place privilégiée auprès de la personne aidée, place qui sera ensuite difficile à quitter.

Le terme de « proche aidant » semble plus récent et fait donc référence à un périmètre d'aidants non professionnels plus large que le périmètre familial. Ainsi, la loi n° 2015-1776 du 28 décembre 2015 relative à l'adaptation de la société au vieillissement, fait référence à la notion de proche aidant pour définir les aidants d'une personne âgée. Il s'agit du conjoint, du partenaire avec qui la personne aidée a conclu un pacte civil de solidarité ou son concubin, un parent ou un allié, définis comme aidants familiaux, ou une personne résidant avec elle ou entretenant avec elle des liens étroits et stables, qui lui vient en aide, de manière régulière et fréquente, à titre non professionnel, pour accomplir tout ou partie des actes ou des activités de la vie quotidienne. Dans les faits, cette définition s'applique quel que soit l'âge de la personne aidée et semble appropriée au contexte des patients atteints d'une SEP. Par ailleurs cette loi définit les droits de ces aidants qui incluent un droit à la formation, un droit au congé professionnel pour apporter cette aide ainsi qu'une possibilité de rémunération dans certaines conditions. Cette définition est proche de la définition suivante utilisée en Amérique du Nord, notamment au Québec: « *Les personnes proches aidantes assurent volontairement des soins, des services ou de l'accompagnement, sans rémunération, à une personne de leur entourage ayant une ou des incapacités temporaires ou permanentes (accident, handicap, maladie, vieillissement, etc.) et pour laquelle elles ont un lien affectif (père, mère, conjoint(e), enfant, frère, sœur, voisin(e), ami(e), etc.). C'est un rôle additionnel.* »⁵⁰.

De façon générale, le rôle du proche aidant peut être très différent selon les situations des malades aidés et selon leur pathologie. Ainsi, en France, une enquête réalisée en 2015 par l'Espace éthique/Île de France de l'Assistance publique- hôpitaux de Paris, montre que les aidants interviennent pour assurer une présence et un soutien moral (81%), la gestion administrative (71%), les courses (69%), les déplacements (69%), les tâches ménagères (55%), la préparation des repas (45%), avant l'aide pour les soins (37%) et la toilette (23%). Cette même enquête indique que pour un tiers des proches aidants, l'aide apportée est quotidienne et permanente. Le temps d'intervention est également très variable, allant de quelques heures à l'équivalent d'un mi-temps par semaine⁵¹.

Pour être complet, on identifie également dans la littérature la notion d'aidant « informel », qui est utilisée lorsque l'aidant apporte spontanément son aide afin de pallier aux déficits, ainsi que celle d'aidant « principal », lorsqu'il existe une coordination ou une « répartition » des tâches entre plusieurs proches aidants d'un même patient (conjoint et enfants par exemple), ou que l'aidant principal assure le lien et coordonne les interventions de l'entourage et des aidants professionnels. C'est également celui qui passe le plus de temps avec la personne aidée.

S'ils ont toujours été aux côtés de leur proche malade, la reconnaissance et la connaissance plus précise des rôles des aidants est encore récente. Au-delà de l'engagement des associations dans ce sens, la loi a aussi contribué à mettre en lumière la place essentielle de ces millions de personnes, non professionnelles, sans qui le vécu quotidien de la maladie serait beaucoup plus difficile pour les patients. Dans le cadre de notre projet de recherche, nous nous appuyons sur

le terme et la définition de proche aidant parce qu'il nous semble décrire le plus fidèlement la diversité des situations et de l'implication de l'entourage des patients atteints d'une SEP en France aujourd'hui.

2.2.2 Les proches aidants de patients atteints d'une SEP et leur rôle :

En France, selon les données actuellement disponibles, 8.3 millions de personnes de 16 ans ou plus aident de façon régulière et à domicile, une ou plusieurs personnes de leur entourage pour des raisons de santé ou de handicap⁵². Elles donnent donc de leur temps et de leur énergie pour s'occuper de personnes qui, du fait d'un handicap ou d'une maladie, ne sont plus totalement autonomes dans leur vie quotidienne. La moitié de ces personnes sont aidantes de personnes âgées de plus de 60 ans et donc l'autre moitié de personnes de moins de 60 ans. Il s'agit le plus souvent de femmes (57 %), de personnes membres de la famille (79 % dont 44 % des conjoints), de personnes exerçant une activité professionnelle (47 %) ou étant retraitées (33%)⁵³. Le profil de ces proches aidants varie notamment selon que le handicap de la personne aidée est congénital ou acquis (du fait de la survenue d'un accident ou d'une maladie au cours de la vie de la personne aidée), selon le type de ce handicap (moteur, sensoriel, mental, cognitif ou psychique, polyhandicap) mais aussi selon la pathologie (Alzheimer, Parkinson, VIH, Huntington, cancer, myopathie, psychose...). Il dépend particulièrement du moment dans la vie du patient où la maladie chronique se déclare. Ainsi, au cours de l'enfance, ce rôle de proche aidant sera naturellement assuré par les parents de l'enfant malade alors qu'au cours de la vie adulte il sera dans la majorité des cas assuré par le conjoint de la personne malade. Dans tous les cas, dans le contexte de maladies chroniques pouvant durer pendant des décennies, il est susceptible d'évoluer au cours de la trajectoire de vie de la personne aidée. Si on considère la situation des personnes âgées de plus de 60 ans et vivant à domicile, qui représentent une forte proportion des patients atteints d'une pathologie chronique, le proche aidant est le conjoint dans 80% des cas dès lors que ces personnes vivent en couple. Comme la demande d'aide augmente avec le temps et donc avec l'âge, les patients plus vieux ont généralement un niveau d'incapacité plus important. Les conjoints plus âgés peuvent présenter des complications de santé, ces comorbidités physiques pouvant rendre l'aide plus difficile. Donc, avec l'avancée en âge, cette aide par le conjoint est progressivement remplacée par celle des enfants⁵⁴. Lorsque la personne vit seule à domicile, les aidants peuvent également être des amis ou des voisins⁵⁵.

Dans le cas de la SEP, 58% des patients déclarent au moins un proche aidant, représentant une population d'un peu plus d'un million d'aidants dans le monde, dont 97% sont des membres de la famille ou des amis⁵⁶. L'âge précoce de début de la maladie et le fait que son impact sur l'espérance de vie n'est pas significatif par rapport à la population générale rendent compte de l'enjeu de l'aide d'un proche alors qu'une très grande majorité des patients vivent à leur domicile. En 2008, Pakenham KI a proposé un outil pour mesurer l'aide apportée par ces proches aidants aux patients atteints d'une SEP⁵⁷. A ce jour, cet outil intitulé Caregiving Tasks in MS Scale est disponible en langue anglaise et a été traduit par des équipes italiennes en 2019⁵⁸. Il comporte 4 dimensions dans sa version originale explorant l'aide aux gestes de la vie quotidienne, l'aide aux déplacements et aux courses, le soutien psychologique et le soutien aux activités sociales.

Au-delà de cet outil standardisé et encore peu utilisé à ce jour, d'autres auteurs ont exploré ce domaine à travers l'identification des besoins des patients et la charge des proches aidants.

Les besoins des patients impliquant l'aide d'un proche aidant dépendent notamment de la forme de la maladie et du niveau de handicap qui fluctue dans le temps. Plus ce handicap, mesuré par le score EDSS, est important, plus la probabilité que le patient déclare qu'il bénéficie de l'aide d'un proche est importante⁵⁹. Par ailleurs les patients ayant un EDSS entre 0 et 1.5 ont plutôt

tendance à bénéficier d'aides de types cognitif et psychologique tandis que les patients ayant un EDSS au-dessus de 4.5 reçoivent plutôt de l'aide en lien avec des invalidités physiques et mentales⁵⁹. Une étude italienne publiée en 2013, et incluant près de 500 patients suivis dans un centre régional de référence et 200 de leurs proches aidants, constate que les besoins exprimés par ces patients et ces proches aidants sont globalement les mêmes et concernent notamment le soutien psychologique tout au long de la maladie, l'approche multidisciplinaire de la prise en charge ainsi qu'un soutien face aux conséquences de la maladie sur leurs activités professionnelles⁶⁰.

De façon générale, l'évolution de la maladie au cours du temps et particulièrement du niveau de handicap des patients, détermine donc le niveau et la nature de l'aide apportée par les proches. Cette aide ou cet accompagnement du patient, seront marqués par des étapes majeures comme celle du diagnostic, celle de la proposition et de la décision de mise en route d'un traitement de fond ou encore celle de la chronicisation du handicap. Chacune de ces étapes sera elle-même marquée par des réactions et des adaptations nécessaires vis-à-vis de l'aide apportée du point de vue du proche aidant lui-même mais aussi du point de vue de l'interaction entre ce proche aidant et l'aidé.

Les données publiées décrivant l'aide apportée par leurs proches aux patients atteints d'une SEP le confirment, qu'elles soient issues d'analyses de besoins selon des approches plutôt qualitatives ou d'outils standardisés comme celui proposé par Pakenham KI^{61,62,57}. Ces aides correspondent à l'aide aux soins (nursing, soins, accompagnement aux rendez-vous médicaux, etc.) comme aux activités quotidiennes (tâches ménagères, repas, courses, etc.), aux aides matérielles et financières, mais aussi au soutien moral et psychologique comme à l'appui administratif et à la décision. Les tâches ménagères sont le plus communément demandé par les aidés et fournis par les aidants⁵⁷. Au début de la maladie, pour les patients présentant une forme rémittente, et alors que ceux-ci sont très majoritairement trentenaires, l'aide des proches concerne plutôt l'accompagnement, les prises de décisions vis-à-vis d'un traitement de fond, la gestion des poussées et également l'impact de la fatigue sur la vie professionnelle, familiale et sociale. Il faut d'ailleurs souligner, qu'à ce stade, les proches aidants ne se reconnaissent pas toujours en tant que tels. Pour ces patients, au fil du temps et de l'évolution de la maladie, marquée notamment par l'aggravation du handicap et plus largement de symptômes tels que la fatigue et la douleur, et comme pour les patients atteints d'une forme progressive d'emblée, le temps d'aide est alors consacré aux activités et geste de la vie de la vie quotidienne, comme notamment la toilette, l'habillage, la préparation des repas...^{62,63,64}.

A ce jour, aucune étude française n'a été publiée pour décrire et comparer de telles données pour les patients atteints d'une SEP et leurs proches aidants. Cependant, la proximité des contextes, notamment des parcours des patients et des organisations de soins, incitent à prendre en compte les résultats des études réalisées dans d'autres pays et citées dans ce paragraphe pour contribuer à la réflexion sur ces sujets dans notre pays.

La place et le rôle du proche aidant d'un patient atteint d'une SEP sont donc aujourd'hui documentés et reconnus, même si les données restent encore rares dans plusieurs pays comme la France. S'ils rejoignent les situations de la plupart des patients atteints d'une pathologie chronique, ils sont aussi marqués par les spécificités de cette maladie et notamment par son début précoce dans la vie du patient et la progressivité inéluctable de ses conséquences au fil des années. Ceci implique pour le proche aidant un engagement auprès du patient qui peut durer plusieurs décennies et qui nécessite une réelle adaptation au regard de l'évolution de la maladie et donc des besoins du patient.

2.2.3 L'impact de l'engagement de ces proches aidants :

L'engagement du proche aidant peut donc bouleverser sa vie personnelle comme professionnelle, et sera généralement émaillé de difficultés dont certaines peuvent dépasser l'organisation mise en place et ses capacités d'aide. Ainsi, selon l'enquête de l'Espace éthique/Île de France de l'Assistance publique de Paris, plus de 8 aidants sur 10 interrogés disent ressentir du découragement par moments (64%) voire souvent ou tout le temps (21%)⁵¹. Il se manifeste notamment par de la fatigue physique et morale, du stress et de l'anxiété, mais aussi un sentiment de solitude voire de déprime.

L'impact de son engagement pour le proche aidant varie particulièrement selon les symptômes, les traitements et le pronostic de la maladie de l'aidé⁶⁵. Dans le cas des maladies neurodégénératives comme la Maladie d'Alzheimer, les recherches s'accordent à dénoncer les effets délétères de cet engagement du proche aidant et son incidence sur sa santé physique et psychique⁶⁶. Cela est dû notamment à l'isolement souvent ressenti par le proche aidant ainsi qu'à la durée de la maladie qui, souvent, va le mobiliser de nombreuses années. Par ailleurs, le temps de présence quotidien devient de plus en plus important au fil de l'évolution de cette maladie, tout cela dans un contexte d'aggravation inéluctable et irréversible des symptômes. Enfin, ce sont aussi les aspects de la vie sociale du proche aidant qui sont impactés, tels que les vacances, les loisirs, les visites aux amis ou encore les clubs ludique ou sociaux, lesquels ne peuvent alors plus jouer un rôle de soutien ou d'espace de respiration nécessaires dans sa vie^{67,68,69,70}.

Dans le contexte de la SEP, ce sentiment d'isolement du proche aidant comme les exigences de plus en plus fortes de sa présence sont également assez caractéristiques de cette aide au patient. Plus généralement, cette aide a un impact documenté sur le bien-être physique comme psychologique du proche aidant et peut être lié à une dégradation de sa qualité de vie⁷¹.

Les études pointant l'impact négatif de l'aide apportée sur le bien-être physique des proches aidants mettent notamment en évidence un lien entre l'augmentation des besoins en aide du patient et la dégradation de ce bien-être physique^{63,69,72,73}.

Concernant leur bien-être psychologique, c'est notamment par l'augmentation de leur niveau stress qu'il se décompense. Ainsi, les proches aidants des patients atteints de SEP ont autant de symptômes de stress que ceux de patients atteints d'une maladie d'Alzheimer, soit 4 fois plus que la population générale. Ce niveau de stress est corrélé d'une part à l'âge, la durée de la maladie et le niveau de handicap, lesquels impliquent des décisions de plus en plus complexes, et d'autre part à la santé cognitive, physique et mentale de la personne aidée^{74,75}. Au-delà du stress, les proches aidants décrivent souvent un état de tristesse chronique, voire de détresse, comme observé dans d'autres contextes comme celui de l'aide aux patients atteints de démence^{76,77}. Ces symptômes sont liés aux troubles cognitifs des patients, au niveau de handicap de la maladie et à sa nature progressive, et donc notamment aux incertitudes sur le futur qui y sont liées^{73,75,78,79}.

De façon générale, c'est donc le niveau de handicap physique mais aussi l'aggravation des troubles cognitifs du patient qui apparaissent comme les éléments déterminant de la qualité de vie du proche aidant d'un patient atteint d'une SEP. Ainsi, Giordano et al dans une étude publiée en 2016 et ciblant des patients présentant une forme sévère de la maladie, marquée par un niveau de handicap élevé mais aussi de vrais troubles cognitifs, ont constaté que près de la moitié des proches aidants de ces patients souffraient d'anxiété pathologique et également la moitié de dépression pathologique⁸⁰.

Wollin et al ont par ailleurs constaté que la détérioration de l'état de santé du proche aidant peut conduire celui-ci à ne plus pouvoir assurer ce rôle auprès de son proche malade⁸¹.

L'ensemble de ces impacts constituent le fardeau du proche aidant. Celui-ci peut être décrit en fardeau objectif à travers notamment l'importance des incapacités du malade, la quantité d'aide fournie et la présence de troubles cognitifs chez la personne aidée, et en fardeau subjectif associé aux conséquences psycho-émotionnelles pour ce proche aidant et caractérisé notamment par la fatigue, l'isolement social, la dépression.

Le fardeau objectif est lié à l'aide apportée par le proche aidant au malade et donc aux caractéristiques et aux conséquences de la pathologie elle-même. Dans le cas de la SEP, il est donc lié à la forme de la maladie et à ses conséquences physiques comme cognitives pour le patient. Plus la maladie progresse, plus les invalidités dans ces 2 domaines sont permanentes et le besoin d'aide augmente^{62,79}. Par ailleurs l'aide est chronophage et le fardeau objectif est également directement associé aux coûts économiques et à la perte en productivité pour le proche aidant. Par exemple, l'entretien de la maison prend en moyenne entre 4,6 et 12 heures par jour pour des proches aidants de patients présentant une invalidité modérée à sévère⁸². Avec 6,5 heures quotidiennes d'aide en moyenne, l'impact sur l'emploi des proches aidants est donc important en engendrant 40% de temps d'absence professionnelle dus aux soins voire un arrêt total de cette activité pour 2 proches aidants sur 10.

Le fardeau subjectif est lié à la perception du proche aidant quant à l'impact sur sa vie quotidienne, directement lié au bien-être. Le challenge le plus communément rapporté est le stress émotionnel, que le côté progressif et imprévisible de l'évolution de la maladie augmente. Les changements cognitifs et affectifs qui touchent le patient ont les conséquences les plus lourdes sur le bien être psychologique des proches aidants⁸³. Ainsi, un tiers d'entre eux ont un niveau de détresse significatif et font la demande d'une assistance pour leur santé mentale⁷⁸.

D'autres facteurs, notamment socio-démographiques des proches aidants, peuvent être liés à leur fardeau. Ainsi, les hommes expriment plus de préoccupations physiques ou des attentes sociales (relations maritales ou rôle des genres) et ont plus de peur du futur, alors que les femmes ont plus besoin de support émotionnel et social. De même, si l'aidant est lui-même atteint d'une maladie, cela représente pour lui une source de stress supplémentaire. Enfin, un statut financier dégradé est associé à un plus grand fardeau, les aidants pauvres étant particulièrement vulnérables au stress⁷¹.

Pour mesurer ce fardeau il existe plusieurs échelles dont le ZARIT, qui montre que le fardeau des proches aidants de patients atteints de SEP est plus important que celui des proches aidants de patients atteints d'autres pathologies. En effet, si les proches aidants en général souffrent fréquemment d'anxiété et de dépression, les proches aidants des patients atteints de SEP expriment un niveau de fatigue, de dépression et de colère plus important⁵⁶.

De façon générale, les sources de satisfaction et les bénéfices de ce rôle de proches aidants sont considérés comme quasi-inexistants⁸⁴. Cependant, quelques études récentes mettent en évidence certains bénéfices à être proche aidant. En effet, certains de ces proches aidants décrivent vivre des expériences positives en allant puiser dans leurs ressources personnelles pour mettre en place des stratégies adaptatives comme l'engagement et le recadrage positif, qui impliquent des modifications positives du style de vie, et comme l'acceptation du changement grâce notamment à un niveau de connaissances et de soutien plus important⁵⁷.

Les conséquences de l'engagement du proche aidant auprès d'un patient atteint d'une SEP sont donc aujourd'hui bien documentées, ainsi que leur impact potentiel pour le patient aidé lui-même. Ces données ainsi que celles du niveau et du type de leur engagement au fur et à mesure de la progression de la maladie rendent compte de l'expérience liée à la maladie et au parcours des patients, acquis par ces proches aidants. Celle-ci est donc désormais incontournable dans toute démarche visant à soutenir l'engagement de ces proches aidants auprès des patients mais aussi plus globalement à évaluer la qualité des parcours de soins de patients atteints d'une SEP en France.

2.2.4 Un engagement qui est une source d'expérience incontournable dans une démarche d'évaluation de la qualité des soins :

Les proches aidants ont donc un rôle indéniable et majeur de soutien et d'accompagnement de leur proche malade à côté de celui des professionnels de santé, plus particulièrement encore dans le contexte d'une pathologie chronique comme la SEP. A ces rôles correspondent des expériences différentes et complémentaires. Ainsi, lorsque le proche aidant participe concrètement aux interactions entre le patient et le système de soins, lors de consultations, d'examen complémentaires, de soins... comme à des activités de la vie quotidienne du patient impactées par son niveau de handicap, il acquiert des connaissances privilégiées vis-à-vis du vécu de la maladie comme vis-à-vis du parcours de soins. Il peut alors apporter un témoignage et un éclairage précieux aux professionnels de santé, comme au patient lui-même, lors de décisions pour sa prise en charge et pour sa maladie. Cette connaissance est donc légitime et complémentaire de celle du patient et de celle des professionnels, et pourra être mobilisée dans le cadre de l'élaboration, de la mise en œuvre, du suivi et de la réévaluation du projet global de soins, leur avis permettant d'éclairer les décisions et leurs savoir et savoir-faire représentant une possibilité d'aide et de soutien dans la mise en œuvre de ce projet.

On peut donc considérer que les proches aidants soient, au même titre que les professionnels de santé et les patients, experts de la pathologie, experts des besoins des patients et des réponses propres à les satisfaire (tout en ne se substituant pas à eux). Les professionnels ont une compréhension globale et généralisée de la maladie et des besoins qui en découlent, tandis que le proche aidant a une connaissance locale, une vue unique d'un cas particulier s'inscrivant dans une histoire relationnelle qui a commencé le plus souvent avant la maladie. Alors, recueillir, conjointement au point de vue des professionnels et des patients, leur expérience vis-à-vis du parcours de soins du patient et de la qualité de celui-ci devrait contribuer à améliorer le service rendu par le système de soins et plus largement par le système de santé à ce patient mais aussi, indirectement, au proche aidant lui-même, voire, au delà, aux autres patients et à leurs proches aidants.

A ce titre, plusieurs études font référence à cette expérience à travers notamment l'identification de besoins non couverts du point de vue des patients comme des proches aidants. Ils concernent notamment les informations que leurs partagent les professionnels de santé, la nécessité d'une approche multiprofessionnelle et multidisciplinaire, leur implication dans les choix relatifs aux traitements de fond comme de réadaptation-rééducation ainsi que l'appui psychologique indispensable tout au long de la prise en charge^{56,60}. Nous détaillons cet enjeu de la prise en compte et de la mesure de l'expérience des patients et de leurs proches aidants pour évaluer la qualité des parcours de soins de ces patients, dans le chapitre suivant de ce travail.

2.2.5 Faire face à la charge qu'implique cet engagement pour ces proches aidants :

Dès l'apparition des 1ers symptômes et l'annonce du diagnostic d'une pathologie chronique pour un patient adulte, le rôle spécifique des proches, c'est-à-dire dans la majorité des cas du ou de la conjoint(e), se pose à celui-ci, à celle-ci. Concernant plus spécifiquement la SEP, si elle n'est pas considérée comme une maladie mortelle à court ou moyen terme, elle reste à ce jour une pathologie que l'on doit qualifier d'incurable.

De nombreux auteurs ont étudié la façon dont les proches aidants font face aux besoins d'aides de leur proche malade ainsi que les moyens de les soutenir pour cela, y compris dans le domaine de la SEP⁷¹. Parmi les moyens mobilisés, l'appel au soutien social (familial, amical ou plus large) et aux services communautaires, associatifs ou publics, sont les plus fréquemment cités

dans ces études, à côté de l'aide psychologique spécialisée et individuelle qu'une partie des proches aidants sollicitent également.

Au-delà de cette approche que l'on peut qualifier « d'individuelle » pour les proches aidants, et sachant que les patients eux-mêmes peuvent aussi mobiliser de telles ressources à titre individuel, un champ de recherche relativement récent s'est ouvert dans ce domaine. Il vise à considérer que le « couple » patient/proche aidant peut également mobiliser « conjointement » des ressources, à côté de celles que chacun mobilise individuellement, voire représenter une ressource en tant que telle pour faire face aux conséquences globales de la maladie. C'est l'interdépendance et les relations entre le patient et son proche aidant que ces chercheurs prennent en compte, en faisant l'hypothèse que c'est aussi dans ce cadre que des propositions de support pour aider à faire face doivent se construire. On parle d'adaptation dyadique, lorsque la dyade patient-proche développe ainsi ses propres stratégies pour gérer et supporter les événements ayant un fort impact psychologique et préserver la relation⁸⁵. Depuis une dizaine d'années de nombreux travaux de recherche ont été publiés sur ce sujet dans le domaine de la santé, notamment dans le champ du cancer et en particulier sur l'impact de cette adaptation dyadique sur la qualité de vie du patient et de son proche aidant, y compris en France^{86,87}.

En ce qui concerne la SEP, plusieurs auteurs ont étudié la charge des proches aidants liée à leur implication dans l'aide au patient et leurs stratégies « individuelles » pour faire face à ses conséquences, notamment l'anxiété^{88,89,90}. A ce jour peu de travaux ont intégré cette dimension dyadique patient/proche aidant dans l'analyse des stratégies de ce « faire face », en dehors de ceux d'une équipe du département de psychologie de l'université australienne du Queensland à Brisbane, alors que leurs résultats mettent en évidence, l'enjeu et l'impact d'une adaptation dyadique à côté de celles individuelles pour ces patients et leurs proches aidants^{91,92}.

En France, une équipe a publié une étude exploratoire incluant 6 couples et étudié, sous la forme d'entretiens semi-directifs, leurs interactions et leurs modalités d'adaptation pour faire face à la maladie. Leurs résultats sont concordants avec ceux cités ci-dessus et insistent sur la prise en compte de cette approche dyadique pour les interventions de soutien à proposer à ces patients et leurs proches aidants⁸⁵.

A ce jour, aucune étude n'a exploré les associations entre ces stratégies d'adaptation dyadiques, notamment pour faire face au stress engendré par la maladie et à ses conséquences globales pour le patient comme pour son proche aidant, et l'expérience vécue par cette dyade sur la qualité des soins. C'est cette voie que ce projet de recherche a également permis d'explorer, en mobilisant les données issues des réponses aux questionnaires Musicare et celles au Brief Cope qui était également proposé à chaque participant (patient et proche aidant) mobilisé pour l'élaboration et la validation de Musicare⁹³. Cette démarche exploratoire nous donc permis de décrire, pour la 1^{ère} fois, des liens entre les stratégies de coping mobilisées par la dyade patient atteint d'une SEP et proche aidant, et leurs expériences de la qualité du parcours de soins du patient.

L'expérience acquise par les proches aidants de patients atteints d'une pathologie chronique et notamment d'une SEP, vis-à-vis du parcours de soins de ceux-ci, est progressivement reconnue et prise en compte dans nos systèmes de santé. Cependant, peu d'outils sont encore disponibles pour la mesurer de façon standardisée et ainsi disposer de données mobilisables pour l'amélioration de la qualité de ces parcours de soins. Parallèlement, un corpus de connaissances s'est également constitué à propos des stratégies que mobilisent les patients atteints d'une SEP et leurs proches aidants, individuellement, pour faire face au stress engendré par la maladie et ses conséquences. Au-delà de ce processus individuel d'adaptation, les stratégies qu'ils peuvent mobiliser conjointement (approche dyadique) restent à explorer. C'est aussi parce que nous faisons l'hypothèse que ces stratégies peuvent avoir un impact sur l'expérience et le vécu de la qualité du parcours de soins, par les patients comme par leurs proches aidants, que nous avons choisi d'explorer ce sujet dans le cadre de ce projet de recherche.

2.3 Comment évaluer la qualité de parcours de soins ? :

2.3.1 Evaluer la qualité de services rendus, un mouvement international concernant de nombreuses activités humaines:

Cette démarche d'évaluation s'inscrit dans un contexte plus général de formalisation des démarches qualité, dans le secteur de la santé, dans la plupart des pays occidentaux et au-delà, depuis plusieurs dizaines d'années. Ce phénomène que l'on peut qualifier de relativement récent dans ce secteur s'inscrit lui-même dans un mouvement de formalisation de ces démarches qui a concerné de nombreuses activités humaines tout au long du 20^{ème} siècle. Il a d'abord concerné le champ de la production industrielle à grande échelle, production de masse et standardisée liée au développement du taylorisme au début de ce siècle. C'est ensuite, dans le contexte de la 2^{nde} guerre mondiale, l'expansion de l'industrie de l'armement qui provoque une accélération de cette formalisation de la démarche qualité avec notamment le développement d'outils de type « standard » et des approches de type « maîtrise des processus ». Dans la 2^{nde} moitié du 20^{ème} siècle, l'industrie japonaise s'est particulièrement investie dans ce domaine, investissement soutenu par les innovations proposées par des ingénieurs comme E Deming et K Ishikawa. En France, ces démarches ont conduit à la mise en place d'une agence de référence, l'AFNOR (Association Française de NORmalisation), qui, depuis surtout la 2^{nde} moitié du 20^{ème} siècle, porte notamment le dispositif des normes produites par l'organisation internationale de normalisation (ISO : International Organization for Standardization). Cette agence délivre, à l'issue d'audits, des certificats de conformité à toute entreprise s'engageant dans ce dispositif qui touche essentiellement aux domaines de l'industrie et du commerce. Cette démarche vise d'abord « à porter un regard » sur ce que l'on fait et à s'assurer que l'on fait effectivement ce que l'on devrait faire en référence à des normes définies avant tout par « ceux qui font ». Elle est devenue au fil du temps un enjeu majeur du management des entreprises mais aussi des relations clients fournisseurs dans le monde de l'industrie et des services.

Pour ce qui concerne le champ de la santé, cette formalisation s'appuie d'une part sur des initiatives professionnelles et d'autre part sur des initiatives politiques et réglementaires. Concernant les initiatives professionnelles on peut citer notamment l'élaboration de recommandations de bonnes pratiques professionnelles basées sur le développement de la médecine fondée sur les preuves (EBM : Evidence Based Medicine) depuis les années 1980. Concernant les initiatives réglementaires, il s'agit notamment de l'obligation d'évaluation externe des établissements sanitaires introduite, en France, en 1996, dans le code de la santé publique (articles L. 6113-3 et suivants du code de la santé publique). C'est dans ce cadre que les organisations pour accompagner ces obligations se sont mises en place avec la création d'une agence nationale de référence dénommée initialement l'Agence Nationale pour le Développement de l'Evaluation Médicale (ANDEM) et, depuis 2014, la Haute Autorité de Santé. Ce processus est le même dans tous les pays occidentaux voire au-delà, même si quelques nuances peuvent exister, liées notamment au contexte de financement du système de santé, comme par exemple aux USA où les financements privés sont plus mobilisés que dans les pays européens pour répondre aux dépenses de santé.

Au-delà de ces initiatives professionnelles et réglementaires, l'implication des usagers dans cette démarche est un phénomène particulièrement marqué dans la plupart des systèmes de soins notamment occidentaux, et qui s'est renforcé au fil du temps.

2.3.1.1 Dans le domaine de la santé, des initiatives portées par les professionnels de santé :

Concernant particulièrement l'élaboration de recommandations professionnelles, leur formalisation s'est beaucoup développée dans des contextes nationaux, depuis les années 1990, en lien surtout avec les sociétés savantes médicales, voire paramédicales dans certains pays, mais aussi dans des contextes européens voire internationaux. Ce mouvement a conduit à la production et à la diffusion de très nombreuses « recommandations de bonne pratique clinique (RBPC) » ou « clinical practices guidelines » en anglais, dont l'impact sur les pratiques et sur la qualité des soins a également fait l'objet de nombreux travaux d'évaluation et de nombreuses publications jusqu'à aujourd'hui^{94,95,96,97}. Au-delà de l'expertise des sociétés savantes, l'élaboration de ces recommandations mobilisent l'appui méthodologique d'agences nationales de référence, comme la HAS en France. Au titre de la loi de 2004, la HAS est en effet chargée « *d'élaborer les guides de bon usage des soins ou les recommandations de bonne pratique, procéder à leur diffusion et contribuer à l'information des professionnels de santé et du public dans ces domaines, sans préjudice des mesures prises par l'Agence française de sécurité sanitaire des produits de santé dans le cadre de ses missions de sécurité sanitaire* ». Dans ce cadre, la HAS définit les RBPC comme : « *des propositions développées méthodiquement pour aider le praticien et le patient à rechercher les soins les plus appropriés dans des circonstances cliniques données* ». Leur objectif est « *d'informer les professionnels de santé et les patients et usagers du système de santé sur l'état de l'art et les données acquises de la science afin d'améliorer la prise en charge et la qualité des soins* ». A côté de ces recommandations, les conférences de consensus ont aussi connu un certain succès au cours des années 2000 et leur méthode de mise en œuvre est également portée, en France, par la HAS. Elles visent également à améliorer la qualité des pratiques professionnelles et donc la qualité des soins. Cet objectif d'amélioration de la qualité des soins est partagé par tous les acteurs qui contribuent à ce mouvement, en France comme dans tous les pays où il s'est implanté depuis une trentaine d'années. Ces outils jouent donc un rôle important dans une démarche d'amélioration des pratiques et des organisations pour garantir et améliorer la qualité et la sécurité des soins des patients.

2.3.1.2 D'autres initiatives plus institutionnelles et « descendantes » :

Il s'agit notamment des démarches d'évaluation externe des établissements de santé, appelées agrément, accréditation ou certification et dont l'origine est identifiée aux Etats-Unis par la mobilisation de l'American College of Surgeons au début du 20^{ème} siècle avec le lancement d'un Hospital Standardization Program⁹⁸. Ce mouvement se développera par l'engagement d'autres sociétés savantes, dans la 2^{nde} moitié du 20^{ème} siècle aux USA comme au Canada, avec la mise en place respectivement de la Joint Commission for Accreditation of Healthcare Organizations (JCAHO) qui deviendra ultérieurement la Joint Commission, et du Conseil canadien d'agrément des hôpitaux qui deviendra ultérieurement Agrément Canada. En Europe, ce mouvement se formalise dans de nombreux pays à partir des années 1970 et tout au long de la 2^{nde} moitié du 20^{ème} siècle. En France, cette démarche est appelée actuellement certification. Pilotée par la HAS, elle s'est concrétisée pour tous les établissements sanitaires à partir de la fin des années 1990 et se poursuit depuis selon une périodicité de 4 à 6 ans⁹⁹. Il est important de souligner que ces démarches, aux USA, comme au Canada et en France, sont portées par des agences indépendantes des institutions politiques. Ainsi, la HAS est définie comme une autorité publique indépendante à caractère scientifique et qui travaille aux côtés des pouvoirs publics comme des professionnels et des usagers du système de santé (cf loi du 13 Août 2004).

La survenue de plusieurs évènements qualifiés de « scandales sanitaires » représente un autre élément de contexte qui a particulièrement marqué ces démarches depuis la 2^{nde} guerre

mondiale et qui a induit des évolutions importantes de la réglementation dans ce champ sanitaire. Citons, par exemple, pour la France, ceux liés au distilbène, aux hormones de croissance, au sang contaminé par le virus VIH, et plus récemment au médiateur. Aux USA, on peut particulièrement souligner celui lié aux prescriptions et aux addictions aux opioïdes, considéré une véritable épidémie dans ce pays¹⁰⁰. Tous ces scandales ont été médiatisés et ont mis en lumière de réels dysfonctionnements liés à l'organisation de nos systèmes de santé comme aux pratiques de leurs professionnels. Cette mise en lumière a elle-même entraîné une réelle prise de conscience de ces dysfonctionnements par les professionnels et les gestionnaires du système de santé comme et avant tout par les patients concernés et leur entourage, et plus largement par la population. Au-delà de la recherche des circonstances, des causes et des responsabilités liées à la survenue de telles situations sanitaires, qui s'est appuyée sur des démarches avant tout judiciaires, cette prise de conscience a renforcé les besoins de transparence et d'informations quant à la qualité des services rendus par le système de soins et ses professionnels.

2.3.1.3 Un mouvement que les usagers et les patients se sont eux-mêmes appropriés :

Les patients, leur entourage, comme les associations les représentants, se sont imposés, au fil des années, comme des acteurs à part entière de ce mouvement visant à mieux connaître le niveau de la qualité des soins et à identifier les manques dans ce domaine. Au-delà d'initiatives individuelles ou « communautaires », cette volonté s'est affirmée aussi par leurs places dans les débats et décisions concernant le pilotage et l'organisation des systèmes de santé. Leurs attentes portent notamment sur l'accessibilité aux soins, le droit à l'information, l'implication du patient dans la prise des décisions, et, dans un pays comme la France, elles sont aujourd'hui portées officiellement par le mouvement associatif des représentants des usagers du système de santé. Alors que les informations disponibles dans le domaine la qualité en santé étaient difficilement accessibles pour les usagers jusqu'à une époque récente, cette démarche de transparence s'est traduite, par exemple, en France, par la mise en ligne d'un site dédié à leur information, site présenté par ses concepteurs comme le site d'information sur la qualité et la sécurité des soins en France : Scope Santé¹⁰¹. Elaboré sous l'égide de la HAS, il est ouvert depuis fin 2013. Ce site partage des informations précises par établissement, notamment leurs résultats des indicateurs qualité et sécurité des soins (IQSS) lesquels concernent des domaines aussi divers que la tenue du dossier patient, les réunions de concertation pluridisciplinaires, la prise en charge de pathologies aiguës (AVC, IDM, hémorragie du post-partum...) voire chronique (hémodialyses des patients insuffisants rénaux chroniques, prise en charge préopératoire pour une chirurgie de l'obésité...). Il doit également permettre aux patients de réaliser, dans ces domaines, des comparaisons entre établissements d'un même territoire, une même région. Cette initiative fait directement suite à celle de journaux grand public qui, depuis plusieurs années, publient des palmarès des établissements sanitaires en France, publications souvent controversées et notamment contestées par une partie des professionnels et des établissements de santé. Si la mise à disposition d'informations via le site scope santé représente une avancée dans l'information au grand public, il reste que leur interprétation et leur mobilisation restent difficile pour la majorité des patients et que leur pertinence vis-à-vis de la qualité des soins et du service rendu aux patients reste un réel sujet de discussion pour de nombreux professionnels comme d'ailleurs pour les associations représentant les usagers. Au-delà de cette source d'informations ouverte à tous, d'autres initiatives dans ce domaine impliquent désormais plus directement les patients et les usagers. Ainsi, toujours en France, et depuis près d'une vingtaine d'années maintenant, au sein des établissements de santé, les représentants des usagers participent aux travaux de la Commission Des Usagers (CDU) intitulée initialement dans la loi de Mars 2002, Commission des Relations avec les Usagers et de la Qualité de la Prise en Charge (CRUQPC) et, au sein des établissements médico-sociaux,

ils participent au conseil de vie sociale. Ces instances réglementaires sont des lieux d'informations, de débats et de propositions pour l'amélioration de la qualité des soins et plus largement des services pour les patients ou résidents de l'établissement. Dans les établissements sanitaires, les recommandations de la CDU sont publiées chaque année à l'occasion d'un rapport partagé avec la direction de l'établissement ainsi qu'avec plusieurs de ses instances composées de professionnels de santé dont la Commission Médicale d'Etablissement (CME).

L'évaluation et l'amélioration de la qualité des soins est donc une préoccupation de l'ensemble des acteurs du système de santé (patients, usagers, professionnels de santé, gestionnaires, financeurs, décideurs...). La prise en compte du point de vue de chacun d'entre eux dans toute démarche visant ces objectifs est donc incontournable et doit s'appuyer sur des méthodes et des outils reconnus et validés. Mais, avant même d'aborder ce sujet, les enjeux et les conséquences de ces démarches d'évaluation nécessitent que l'on définisse l'objet et le périmètre du sujet c'est-à-dire la qualité des soins.

2.3.2 Une démarche qui s'appuie sur une définition multidimensionnelle de la qualité des soins :

Définir la qualité des soins est un sujet complexe qui a fait l'objet de nombreux débats et d'une réelle évolution des réflexions au fil du temps. Même si des débats subsistent toujours, on peut aujourd'hui s'appuyer sur plusieurs propositions établies pour définir ce que recouvre la qualité des soins.

Dans une approche universelle, celle de l'OMS, la qualité des soins est définie comme la capacité de garantir à chaque patient l'assortiment d'actes diagnostiques et thérapeutiques qui lui assurera le meilleur résultat en terme de santé, conformément à l'état actuel de la science médicale, au meilleur coût pour un même résultat, au moindre risque iatrogène et pour sa plus grande satisfaction en terme de procédures, de résultats et de contacts humains à l'intérieur du système de soins (OMS 1982). Cet objectif s'inscrit dans un droit plus large et qui reste à accomplir pour de très nombreuses personnes dans le monde, celui du droit à la santé qui fait particulièrement référence aux enjeux d'accès aux soins mais aussi à l'information dans le domaine de la santé de façon générale.

Selon une perspective plus historique, Avedis Donabedian (1919-2000), médecin de santé publique ayant réalisé l'essentiel de sa carrière à l'université du Michigan aux Etats-Unis, est l'un des précurseurs dans ce domaine, avec ses travaux débutés dans les années 1950-1960 et portant sur l'évaluation de la qualité des soins. Ainsi, en 1980, il proposait que « *Les soins de haute qualité sont les soins visant à maximiser le bien-être des patients après avoir pris en compte le rapport bénéfices/risques à chaque étape du processus de soins* »¹⁰². Son approche du concept de la qualité des soins et de l'évaluation de celle-ci reste à ce jour une référence.

Aux USA, l'Institute of Medicine (IOM) définit actuellement la qualité des soins comme « *la capacité des services de santé destinés aux individus et aux populations d'augmenter la probabilité d'atteindre les résultats de santé souhaités, en conformité avec les connaissances professionnelles du moment* ». Dans ce pays également, l'agence publique, homologue de la HAS en France, l'Agency for Health Research and Quality (AHRQ), définit la qualité des soins comme des soins dont on a apporté la preuve qu'ils fonctionnaient, qu'ils répondent aux besoins et aux préférences des patients et qui les protègent d'erreurs et de dommages, définition basée sur les travaux de Hibbard JH^{103,104}.

En France, dans le cadre de ses travaux pour la diffusion publique des IQSS, la HAS précisait, en 2012, que ce travail n'avait pas pour but de proposer une définition consensuelle et définitive de la qualité des soins. Elle faisait cependant référence aux définitions citées ci-dessus et considérait que pour elle, « *la qualité d'un système de santé augmente lorsque les soins*

prodigués sont aussi efficaces, sûrs et accessibles que possible, et dans des conditions aussi équitables et efficaces que possible »¹⁰⁵.

Au-delà de la définition même du concept de qualité des soins, la façon de « l'aborder » dans un but d'évaluation aide également à en déterminer les contours et le contenu. Dans ce domaine, les travaux de A Donabedian restent une référence reconnue et largement intégrée dans des travaux plus récents. L'une des principales caractéristiques du modèle qu'il a proposé est son approche multidimensionnelle. Ainsi, dans le contenu, il considère 4 dimensions pour évaluer la qualité des soins, dimensions qui peuvent se décrire de façon concentrique depuis les soins fournis par les professionnels de santé en proximité, dans leurs dimensions techniques et relationnelles, jusqu'aux soins reçus par la population ou la communauté dans son ensemble, en passant par les installations et équipements utilisés pour fournir les soins et par la contribution des patients et de leur entourage à ces soins¹⁰². Dans son approche méthodologique pour évaluer les dimensions décrites, il prend en compte 3 domaines complémentaires et interdépendants qui font référence à 3 types d'indicateurs comme nous le détaillons dans le paragraphe suivant.

Depuis notamment la fin des années 1990, d'autres propositions ont intégré cette approche multidimensionnelle pour décrire tous les enjeux de l'évaluation de la qualité des soins. Ainsi, l'OMS décrit les 6 dimensions suivantes :

- L'efficacité (*Effective*), pour décrire que l'offre de soins doit être basée sur les connaissances et leur fondement scientifique (*Evidence Based Medicine*)
- L'efficacité (*Efficient*), pour décrire le souci de ne pas gaspiller de ressources (*no waste*)
- L'accessibilité (*Accessible*) selon une approche globale, c'est-à-dire au bon moment, au bon endroit avec des moyens adéquats
- L'acceptabilité (*Acceptable/patient centered*) pour décrire l'enjeu de soins centrés sur le patient et tenant compte de ses préférences
- L'équité (*Equitable*) pour décrire les enjeux d'un système de santé (ressources, organisations, financement) et d'une offre de soins ajustés aux caractéristiques sociales du patient et plus largement de la population
- La sécurité (*Safe*) pour décrire l'engagement des professionnels et du système de santé à proposer des soins minimisant les risques pour les patients

Cette approche universelle fait aujourd'hui référence pour décrire de façon globale la qualité d'un système de santé, d'un système de soins à l'échelle notamment de la population d'un pays.

Si elle se base sur ces définitions multidimensionnelles, l'évaluation de la qualité des soins doit alors mobiliser des méthodes et des outils adaptés répondant à chaque dimension décrite.

2.3.3 Une démarche qui s'appuie sur des méthodes et des outils adaptés :

A Donabedian, précurseur dans ce domaine, a développé son modèle et construit son approche conceptuelle de la qualité des soins alors que son objectif était initialement de travailler sur l'évaluation des pratiques et des organisations des professionnels de santé afin de disposer d'informations sur le niveau de la qualité des soins apportés aux patients et plus largement aux populations. Par ailleurs, comme l'écrivent A.P Conrandriopoulos et al dès 1993, le but ultime de l'évaluation est d'aider à la prise de décision quel que soit le « niveau » auquel on se situe c'est-à-dire celui du système de soins dans sa globalité, celui d'une structure de soins comme un établissement hospitalier ou celui d'une équipe de professionnels et de leurs patients¹⁰⁶.

2.3.3.1 Les indicateurs :

La démarche d'évaluation a toujours été intégrée, souvent d'ailleurs de façon implicite, aux pratiques des professionnels de santé et a largement contribué à l'évolution des connaissances et donc de leurs pratiques comme de leurs organisations et ainsi plus largement à celle de la structuration et du financement des systèmes de santé. L'évaluation de la qualité des soins s'est formalisée et développée, particulièrement dans sa dimension systémique, au cours de la 2nde moitié du 20^{ème} siècle. Ce développement a été motivé d'une part par l'évolution des connaissances médicales et par leur accès pour une population de plus en plus large, et, d'autre part, par la complexité croissante des organisations de soins et par les besoins financiers et les ressources qu'elles nécessitaient. Parallèlement, les interrogations et les attentes des populations vis-à-vis de la qualité des soins proposés et de plus en plus accessibles pour les pays occidentaux ont également contribué à ce mouvement. Dans ce contexte, cette démarche d'évaluation avait pour but d'apporter des informations nécessaires aux décisions de pilotage du système de soins comme aux choix d'interventions ou d'actions à l'intention directement des patients et des usagers.

Dans cette démarche, les professionnels de santé privilégient avant tout les résultats cliniques pour les patients. C'est le sens de leurs pratiques de soins au quotidien comme de leur démarche de recherche clinique par leurs choix de critères de jugement pour établir l'efficacité de telle ou telle intervention de soins. Comme le rappelait A. Donabedian dès les années 1960, cette voie a été pendant longtemps la voie privilégiée par les professionnels de santé, sinon la seule, considérant qu'elle répondait à l'objectif visant à produire de l'information sur l'impact d'une intervention sur le niveau de la qualité des soins. Elle reste à ce jour encore très largement mobilisée et reconnue par les professionnels et l'expression des résultats se fait notamment sous la forme d'indicateurs permettant également des comparaisons d'une étude à l'autre. Ces indicateurs de résultats peuvent faire référence à des résultats intermédiaires (par exemple les infections associées aux soins) comme à des résultats finaux qui traduisent un changement de l'état de santé des patients (la mortalité notamment). Ces indicateurs sont exprimés notamment sous la forme de taux ou de délais. Ils sont surtout utilisés dans le cadre de protocoles de recherche clinique afin de démontrer l'efficacité de telle ou telle intervention, notamment à visée thérapeutique, mais aussi de plus en plus dans le cadre de recherches observationnelles, en vie réelle, à l'échelle d'une population définie comme c'est le cas pour la SEP en France avec la mise en place de l'Observatoire Français de la SEP (OFSEP) depuis plusieurs années. Au-delà des discussions au sein des communautés scientifiques concernées, sur la pertinence même de tel ou tel indicateur de résultats, il faut souligner que les études dont sont issues ces résultats sont réalisées dans des conditions précises voire très spécifiques (critères de sélection des patients, conditions des pratiques et des organisations spécifiques et relativement différentes de celles du quotidien de la majorité des équipes prenant en charge les patients cibles ...) lesquelles ne sont pas toujours reproductibles à l'identique dans la vraie vie. De plus, si on se place dans la perspective d'une évaluation de la qualité des soins selon les approches multidimensionnelles mentionnées précédemment, ces indicateurs ne couvrent qu'une petite partie de ces dimensions et s'ils sont les seuls pris en compte, ils peuvent même entraîner un biais dans l'analyse de cette qualité des soins. En effet, certains peuvent être déterminés avant tout par des caractéristiques du patient lui-même et non par les pratiques et les organisations des professionnels de santé le prenant en charge ; c'est le cas par exemple pour la survie d'un patient après un événement de santé aigu comme un infarctus du myocarde. C'est pourquoi, pour évaluer la qualité des soins, il est nécessaire d'évaluer d'autres dimensions que celle de ces résultats, dimensions plus directement liées aux pratiques et aux organisations des professionnels. En ciblant ces autres dimensions, on fait l'hypothèse que la façon dont les soins sont organisés et celle dont les professionnels les mettent pratiquement en œuvre sont incontournables et déterminantes pour atteindre les résultats escomptés, indépendamment des caractéristiques du patient lui-même et de l'intervention elle-même. Le postulat de cette

approche est donc de considérer, dans une perspective populationnelle, que si ces soins ne sont pas déployés selon les recommandations de bonnes pratiques, elles-mêmes fondées sur les connaissances issues de la recherche, en dehors de certaines situations qui restent l'exception, il est hautement probable que leur impact sur les résultats finaux ne sera pas optimal, et qu'ils ne répondront donc pas au niveau de qualité attendu. C'est le sens d'un certain nombre de données issues d'études mettant en évidence l'hétérogénéité des pratiques médicales et s'interrogeant sur la pertinence de certaines d'entre elles^{107,108}.

Ce postulat et cette approche sont celles proposées par A. Donabedian dès 1966 et restent aujourd'hui des références dans le champ de la santé. Il a ainsi formalisé un modèle pour l'évaluation de la qualité des soins en tenant compte de 3 domaines liés entre eux : le domaine de la structure ou des ressources qui fait référence notamment à l'environnement organisationnel, à l'équipement, au matériel, à la main-d'œuvre ainsi qu'au financement, celui des processus qui fait référence aux activités et à leur conformité aux référentiels professionnels construits sur les données de la science et celui des effets qui fait référence aux résultats obtenus. A l'époque où il publiait cet article de référence, il soulignait par ailleurs les enjeux en termes de méthodes et d'outils pour concrétiser cette démarche d'évaluation de la qualité des soins¹⁰⁷. En effet, à ce moment-là, en dehors d'indicateurs de résultats, très peu d'outils étaient disponibles, notamment pour évaluer les pratiques et les organisations professionnelles en référence au domaine des processus de soins tel que défini dans son modèle.

Depuis, beaucoup d'études ont été engagées et publiées dans ce domaine et ont permis de disposer d'informations plus précises et ainsi discuter de la qualité des soins que ce soit pour des populations générales ou dans le cadre de pathologies spécifiques notamment des pathologies chroniques.

La qualité des soins et son évaluation sont aujourd'hui des concepts et des démarches bien intégrées dans les systèmes de soins occidentaux y compris français, même s'ils sont toujours l'objet de débats. Ces débats concernent d'ailleurs plutôt les méthodes et les outils mobilisés dans ce domaine qu'ils ne visent à une remise en cause de ces approches. En effet, au-delà des concepts et de leur modélisation, l'enjeu le plus essentiel est de disposer de méthodes et d'outils de mesure qui soient adaptés, reconnus par l'ensemble des acteurs du système concerné, pour un usage en vie réelle. Cet enjeu est déterminant pour que les résultats de ces mesures puissent être considérés comme valides et ainsi contribuer à définir des axes d'amélioration des pratiques et des organisations pertinentes. Cela impose de s'appuyer sur une méthodologie rigoureuse et souvent pluridisciplinaire, particulièrement dans le cadre des parcours de soins complexes comme ceux des patients atteints d'une pathologie chronique comme la SEP. C'est particulièrement le cas pour le développement d'indicateurs selon toutes les dimensions reconnues pour définir et évaluer la qualité des soins.

2.3.3.2 Les recommandations de bonnes pratiques et les indicateurs qualité :

En population générale, les études disponibles reposent sur de grandes enquêtes nationales par échantillonnage et sur des données déclaratives des personnes composant cette population¹⁰⁹. Elles peuvent aussi s'appuyer sur la sollicitation des professionnels de santé et notamment des médecins généralistes¹¹⁰. Elles décrivent surtout des indicateurs d'états de santé et de niveaux de consommations de soins, informations qui peuvent contribuer à la réflexion sur la qualité des soins. D'autres enquêtes, nationales voire internationales, ont également cherché à évaluer la qualité des soins perçue par les patients eux-mêmes. Cette démarche plus récente s'inscrit dans le mouvement d'implication des usagers du système de santé pour en définir les objectifs et les organisations. Ainsi, en 2008, une enquête a été organisée par le Commonwealth fund dans une dizaine de pays dont la France, par téléphone, auprès d'échantillons de personnes souffrant de problèmes de santé sérieux dont des maladies chroniques¹¹¹. Cette enquête a

également sollicité des médecins généralistes. En France, 851 patients souffrant d'une pathologie chronique ont participé et dans 9 cas sur 10 leur perception de la qualité des soins était excellente ou bonne.

L'élaboration de recommandations de pratiques sur la base des données actualisées de la science et en lien direct avec le mouvement de l'EBM, a permis, au fur et à mesure de leur publication, d'investiguer le domaine que A. Donabedian appelle celui des processus c'est à dire celui des pratiques et des organisations des professionnels de santé pour prendre en soins les patients. Ces recommandations sont élaborées avant tout dans le contexte de pathologies ou de groupe de patients précis. Les données issues d'évaluation de leur appropriation, par les professionnels de santé concernés, en pratique sont aujourd'hui multiples et touchent de nombreux champs des pratiques médicales, en particulier celui des pathologies chroniques. Cette démarche s'appuie également sur le développement d'indicateurs^{112,113,114,115}.

A titre d'exemple, on peut citer une enquête longitudinale réalisée en Angleterre à 5 ans d'intervalle pour évaluer, sur la base d'indicateurs liés au processus de soins, l'évolution des pratiques professionnelles (médecins généralistes) pour les 3 pathologies suivantes : le diabète de type 2, l'asthme et la maladie coronarienne. Incluant 2 300 patients en 1998 et près de 1 500 en 2003, les résultats de cette étude ont permis de mettre en évidence des évolutions positives dans le processus de soins mis en place par les médecins généralistes pour ces patients au cours de cette période de 5 ans, même si des marges d'amélioration subsistaient en 2003, en s'appuyant sur des indicateurs tels que notamment la surveillance de la tension artérielle, du poids, de la consommation de tabac, de la cholestérolémie et de la créatininémie¹¹⁶.

En France, les sociétés savantes et la HAS ont contribué à ce type de démarche d'évaluation, dans plusieurs domaines, sur la base des recommandations qu'elles ont élaborées, notamment dans le cas de pathologies aiguës à travers la prise en charge intra hospitalière des patients victimes d'un infarctus du myocarde ST + (IDM ST+) ou d'un accident vasculaire cérébral (AVC) et dans le cadre des campagnes annuelles de recueil des IQSS¹¹⁷. Dans le cas des IDM ST+ cette démarche a pu montrer que les pratiques des équipes avaient beaucoup évolué entre la 1^{ère} année de recueil en 2005 et la dernière année en 2017. Dans le cas des AVC, à l'issue des 3 premières années de recueil, en 2017, elle permettait d'identifier des marges d'amélioration pour la prise en charge pré hospitalière de ces patients avec la sensibilisation de la population aux signes précoces de l'AVC et pour leur prise en charge post hospitalière aiguë notamment en améliorant leur accès aux soins de réadaptation et rééducation¹¹⁸.

Concernant les pathologies neurologiques, des recommandations de pratique ont également été élaborées et diffusées dans de nombreux pays, depuis une vingtaine d'années. En France, la société française de neurologie met à disposition des professionnels et des patients des recommandations pour la prise en charge de pathologies chroniques comme l'épilepsie, les accidents vasculaires cérébraux, la maladie de Parkinson^{118,119,120}.

Aux Etats Unis particulièrement, sur la base des recommandations disponibles, plusieurs équipes ont également proposé des indicateurs pour évaluer les pratiques et les organisations des professionnels en vie réelle et ainsi contribuer à l'information sur le niveau de la qualité des soins apportés aux patients atteints par ces pathologies^{121,122,123}.

En France cette démarche a jusqu'à présent concerné la prise en charge des patients atteints d'AVC comme décrit précédemment, à travers notamment, depuis quelques années, des campagnes nationales d'évaluation ciblant particulièrement la partie intra hospitalière de cette prise en charge^{124,125}.

2.3.3.3 Les indicateurs qualité concernant les parcours de soins des patients atteints d'une SEP :

2.3.3.3.1 A l'échelle internationale :

Concernant la SEP, les démarches visant à évaluer les pratiques des professionnels selon l'approche proposée par A. Donabedian, restent rares en dehors de quelques études visant un moment ou une pratique précise de la prise en charge comme la réalisation des IRM cérébrales^{126,127}. Ce constat est valable en France comme dans les autres pays, alors que les recommandations pour le diagnostic comme pour la prise en charge thérapeutique de cette pathologie et de ses conséquences cliniques, sont disponibles dans beaucoup d'entre eux¹²⁸.

A l'échelle internationale, à notre connaissance, seule l'initiative d'envergure portée par l'American Academy of Neurology (AAN) en 2015, s'est inscrite dans une perspective plus large de parcours de soins de ces patients, permettant ainsi la mise à disposition des professionnels d'un set d'indicateurs qualité (quality measurement set) également approuvés par l'association des IDE américaines de neurosciences¹²⁹. Ces outils sont donc des indicateurs pour « aider les professionnels dans leur démarche d'évaluation et d'amélioration de la qualité de leur pratique ». Ce set est constitué de 11 indicateurs allant du diagnostic de la SEP à l'amélioration de la qualité de vie des patients, en passant par l'identification et la prise en charge de la fatigue, des troubles cognitifs ou dépressifs. Cependant et comme l'indique clairement l'AAN dans leur présentation en 2015, aucun n'avait encore été testé en vie réelle, aucune équipe n'ayant engagé d'étude dans ce sens. Depuis cette date, à notre connaissance une seule démarche de ce type a été publiée, apportant ainsi quelques informations sur le niveau de qualité des soins pour ces patients américains concernant la prise en charge thérapeutique, notamment médicamenteuse, de leur fatigue, leur spasticité et leur état de dépression ainsi que le délai d'initiation d'un traitement de fond pour ceux présentant une forme rémittente¹³⁰. Les résultats étaient basés sur des données déclaratives des patients, et montraient que les pratiques étaient conformes aux recommandations pour 2/3 des patients concernant les 3 premiers indicateurs et 1/3 pour le dernier.

2.3.3.3.2 A l'échelle nationale :

En France, les recommandations de bonnes pratiques de référence concernant la prise en charge des patients atteints d'une SEP sont celles de la conférence de consensus organisée en 2001 conjointement par l'ANAES et la fédération française de neurologie en collaboration avec de nombreux partenaires représentant d'autres spécialités médicales (médecine physique et de réadaptation, imagerie, médecine interne, urologie, ophtalmologie...) ainsi que d'autres professionnels de santé (kinésithérapeutes, psychologues...) et actualisées en 2006³⁸. A ce jour, sur ces bases, aucune démarche concertée et nationale pour l'élaboration d'indicateurs à but d'évaluation des pratiques et des organisations en référence à ces recommandations n'a été engagée. La revue de la littérature permet d'identifier une étude ciblant deux étapes de la maladie, celle du diagnostic et celle du suivi¹³¹. La méthodologie de cette étude était celle d'un audit basé sur l'analyse de la traçabilité des données dans les dossiers de patients pris en charge dans 17 services de neurologie hospitaliers. Au-delà des limites liées à cette méthodologie, le constat était celui d'une disparité importante des pratiques entre les centres, l'objectif principal de ce travail étant d'engager une discussion entre ces équipes sur la base de ces observations.

En dehors de cette étude, la campagne annuelle de recueil des IQSS contribue à l'évaluation de la qualité des soins dans le cadre des séjours hospitaliers (MCO et SSR) dans notre pays et peuvent donc parfois concerner des patients hospitalisés pour la prise en charge d'une SEP. A ce titre, s'il était possible de regrouper à l'échelle nationale les données concernant l'ensemble de ces patients pour une enquête annuelle, les résultats des indicateurs liés à la tenue des dossiers de ces patients, ceux liés à la prise en charge de leur douleur comme ceux liés à la lettre

de liaison au décours de leur séjour hospitalier pourraient peut-être apporter une information intéressante sur la qualité de leurs soins. En dehors du fait que l'accès à ces informations n'est actuellement pas possible, de nombreuses étapes du parcours de soins de ces patients comme de nombreuses spécificités liées à cette pathologie chronique ne seraient pas prises en compte en ne mobilisant que ces IQSS.

Pour construire une démarche d'évaluation de la qualité des soins tout au long du parcours de soins de ces patients, on ne dispose donc actuellement pas d'indicateurs standardisés en dehors de ceux publiés par l'AAN. Cependant, si ces outils sont spécifiques de la SEP, ils ne couvrent pas l'intégralité des étapes des parcours de soins de ces patients tels qu'ils se déroulent aujourd'hui dans nos systèmes de santé. Ainsi, la prise en charge des poussées, la coordination entre les professionnels, les délais d'accès à tel ou tel soin ou tel ou tel professionnel n'entrent pas dans le champ de ces indicateurs. De plus, les outils élaborés dans le contexte d'un pays comme les USA ne sont pas directement transposables dans celui d'un pays comme la France. En effet, la structuration des parcours comme les pratiques des professionnels sont déterminées, au-delà des données scientifiques et des recommandations disponibles, par des facteurs comme le financement des soins, les domaines de compétences des professionnels ou les conditions de leur coordination. Or, concrètement, les USA et la France, présentent des différences assez significatives dans ces domaines. C'est pourquoi la transposition des outils disponibles pour les USA, ne permet pas de répondre aux enjeux d'une évaluation de la qualité des parcours de soins des patients atteints d'une SEP en France depuis leur diagnostic jusqu'au stade d'aggravation du handicap au bout de plusieurs années pour ce qui concerne la forme la plus fréquente de la maladie (RR).

L'absence, pour la France, d'indicateurs standardisés, pour développer des démarches d'évaluation des pratiques et des organisations des professionnels selon le modèle proposé par A. Donabedian, dans le domaine de la prise en charge des patients atteints d'une SEP est l'un des leviers de notre travail de recherche. L'élaboration de ces indicateurs au regard des recommandations disponibles représente effectivement un travail conséquent et doit répondre à des standards méthodologiques reconnus. Ce type de démarche nécessite également des ressources importantes alors que l'élaboration des recommandations en mobilise déjà beaucoup, notamment du temps pour les professionnels experts du domaine.

Par ailleurs, il n'existe pas à ce jour de propositions alternatives d'un point de vue méthodologique : aucune nouvelle méthode ou aucun nouvel outil pouvant répondre à ces questions n'a été proposé dans ce champ à notre connaissance.

2.3.4 Comment intégrer les patients et leurs proches aidants à cette démarche d'évaluation ? :

Comme décrit précédemment, l'engagement des patients et de leur entourage, à travers notamment celui des associations les représentants, et donc la prise en compte de leur point de vue, fait partie intégrante de toute démarche d'amélioration de la qualité des soins.

La prise en compte de ce point de vue, est plus récente que les démarches reposant sur les recommandations professionnelles. Dans un article publié en 2002, M Wensing et ses collègues ont décrit les approches développées au cours des années précédentes pour l'intégration du point de vue des patients pour l'amélioration de la qualité de soins, tout en faisant référence aux méthodes et outils pouvant être mobilisés pour chacune¹³². Selon ces auteurs, cette intégration peut se concrétiser en amont comme en aval des soins, à l'échelle d'un patient comme à l'échelle d'une population. A l'échelle d'un patient donné, la prise en compte de son point de vue doit aider à adapter au mieux les interventions de santé qui lui sont proposés comme, par exemple, l'éducation à la santé mais aussi contribuer à des décisions partagées qui correspondent au mieux à ses préférences. A l'échelle de populations, cela doit contribuer aux

choix politiques et stratégiques ayant un impact sur la santé et sur la prise en charge des soins de cette population (communes, régions, pays).

Plus en amont, A. Donabedian, lorsqu'il conceptualise son modèle pour l'évaluation de la qualité des soins dans les années 1980, intégrait d'emblée ces enjeux et la place que doivent prendre les patients dans cette démarche, sans proposer cependant de modèle méthodologique pour y parvenir.

Le point de départ de ce mouvement a été de structurer la prise en compte de la parole, de l'avis du patient et d'intégrer ses retours au processus de soins et donc aux décisions à prendre pour engager ou poursuivre notamment un traitement pour chaque patient. Au-delà du fait que celui-ci puisse apporter des éléments complémentaires à toute information, toute donnée jusqu'alors recherchées par les professionnels de santé (notamment par l'interrogatoire et par l'examen clinique), il s'agissait de « reconnaître » que le patient est le seul à disposer d'autres informations exclusives et importantes pour le bon déroulé et la surveillance de sa prise en soins et donc pour les décisions diagnostiques ou thérapeutiques s'y rapportant. Cette dynamique s'est construite selon 2 axes complémentaires, l'un se centrant sur la prise en compte de « résultats » notamment d'ordre clinique pour le patient (symptômes généraux comme par exemple la douleur ou plus spécifiques d'une pathologie comme les effets indésirables liés à la prise d'un médicament...) et l'autre visant à recueillir l'avis, l'expérience des patients sur le déroulement du processus de soins. Si l'on peut considérer que conceptuellement ces 2 approches correspondent de fait à des résultats rapportés par le patient lui-même, il reste convenu actuellement de les distinguer tout en les considérant complémentaires l'une de l'autre. Ainsi, dans la littérature scientifique, comme de façon plus courante, elles sont désignées par les 2 termes suivants :

- Les Patient Reported Outcomes (PROs) qui font donc référence aux résultats, avec les Patient Reported Outcomes Measures qui désignent les outils développés pour mesurer et standardiser la prise en compte de ces résultats
- Les Patient Reported Expériences (PREs) qui font donc référence à l'expérience, avec les Patient Reported Experience Measures qui désignent les outils développés pour mesurer et standardiser ces retours des patients

Ce mouvement assez récent inclut désormais plus largement l'entourage des patients et particulièrement ceux que l'on appelle dans les pays anglo saxons les caregivers et en France les aidants, ces 2 termes recouvrant des rôles relativement divers selon les contextes et les pathologies des patients aidés (cf chapitre 2 de ce manuscrit). C'est là aussi l'expérience de ces proches, à travers l'aide qu'ils apportent aux patients dans la gestion de leur maladie, que l'on souhaite recueillir et prendre en compte dans le cadre d'une démarche de décision mais plus largement d'évaluation et donc d'amélioration de la qualité des soins pour ces patients.

Bien que relativement récentes, ces démarches se sont développées dans de nombreux pays, quelles que soient les pathologies (aigues comme chroniques) et quels que soient les contextes de leur prise en charge (hospitalier, ambulatoire...).

2.3.4.1 Les résultats rapportés par les patients (Patient Reported Outcomes) et leurs mesures (Patient Reported Outcomes Measures) :

Selon la définition de la Food and Drug Administration (FDA) aux USA, les PRO sont donc des mesures de l'état de santé du patient rapportés directement par lui, sans interprétation d'une tierce personne et notamment d'un médecin. La FDA a joué un rôle important pour le développement de ces pratiques lorsqu'elle a demandé que l'évaluation de l'efficacité de nouveaux traitements en oncologie intègre systématiquement cette approche à côté de celles jusqu'ici utilisées et correspondant à des mesures cliniques réalisées exclusivement par les

professionnels de santé. En France, il n'existe pas de correspondance « officielle » ou validée en termes de définition. L'ANAES fait référence « au point de vue du patient comme indicateur d'état de santé » qui inclut des indicateurs de « résultats » au sens du modèle proposé par A. Donabedian. Cette démarche, qui doit être standardisée pour le recueil des données comme pour l'interprétation des résultats, s'est, dans un 1^{er} temps, appuyée sur des outils développés depuis plusieurs années à savoir ceux mesurant la qualité de vie.

Aujourd'hui encore, ces outils sont les plus nombreux et les plus utilisés dans ce champ des PRO, dans beaucoup de systèmes de santé. Ils sont développés selon des standards méthodologiques établis et partagés et il existe des outils génériques, c'est à dire à l'intention de la population générale, comme spécifiques, c'est à dire dédiés aux patients atteints de telle ou telle pathologie, voire parfois aux proches aidants de patients atteints d'une pathologie spécifique et notamment d'une pathologie chronique. La prise en compte de ces données peut se faire l'échelle individuelle comme à celle de populations de patients touchés par une même pathologie.

2.3.4.1.1 La mesure de la qualité de vie liée à la santé :

Selon l'OMS, la qualité de vie se définit comme « *la perception qu'à un individu de sa place dans l'existence, dans le contexte de la culture et du système de valeurs dans lesquels il vit, et en relation avec ses objectifs, ses attentes, ses normes et ses inquiétudes* ». Cette définition particulièrement large et recouvrant des domaines aussi variés que la culture, les interactions sociales, ou l'économie, a conduit à préciser le concept de qualité de vie liée à la santé. Développé initialement surtout aux USA sous le terme de Health Related Quality of Life (HRQoL), des auteurs l'ont défini comme « *la valeur qui est attribuée à la durée de la vie en fonction des handicaps, du niveau fonctionnel, des perceptions et des opportunités sociales modifiées par la maladie, les blessures, les traitements ou les politiques de santé* »¹³³. Sur la base de ce concept, il s'agit, à côté des moyens médicaux classiques, de mieux apprécier les conséquences d'une maladie comme les effets d'une procédure de soins mais aussi ceux d'une politique de prévention, du point de vue et donc par le patient lui-même. De plus en plus, et, particulièrement dans le contexte de pathologies chroniques aux conséquences lourdes pour le patient et son entourage, il s'agit aussi de prendre en compte l'impact, sur leur santé, de l'engagement de ces proches aidants aux côtés des patients.

Pour concrétiser ces démarches, des outils ont été développés et publiés depuis les années 1990 et sont depuis largement utilisés, notamment dans le cadre des pathologies chroniques. Leur utilisation dans ce cadre paraît en effet particulièrement adaptée, le principe de ces mesures étant de disposer d'informations sur le long terme afin de mieux apprécier le retentissement de ces pathologies sur la vie quotidienne des patients et sur l'évolution de leur état de santé. Ces enjeux d'amélioration de la qualité de vie des personnes atteintes de maladies chroniques ont été, dans un 1^{er} temps, intégrés à des démarches de recherche clinique, pour mieux adapter les propositions thérapeutiques aux besoins de ces patients. Mais ils sont aussi portés d'un point de vue plus politique et stratégique, par exemple par l'OMS, mais aussi, en France, par les plus hautes instances politiques via un plan pour l'amélioration de la qualité de vie des personnes atteintes de maladies chroniques lancé en Avril 2007.

Les premiers instruments développés pour mesurer cette qualité de vie liée à la santé ont été des outils ciblant la population générale et utilisés pour tout type de population et tout type de pathologie : le SF 36 peut être considéré comme l'outil historique dans ce domaine et il est le plus cité dans la littérature¹³⁴. Outil standardisé multidimensionnel (dimensions liées à l'activité physique, aux douleurs physiques, à la vie et aux relations avec les autres, à la santé psychique...) et développé selon les méthodes psychométriques de référence, il a d'abord été déployé aux Etats-Unis puis adapté dans des dizaines de pays selon leur contexte culturel. En effet, cette étape d'adaptation fait partie des standards méthodologiques dans ce domaine et ne

peut se limiter à une simple traduction de l'outil original¹³⁵. De plus, des données de référence de plusieurs populations générales, dont la population française, ont été recueillies pour des échantillons représentatifs et sont mises à disposition notamment des chercheurs, permettant ainsi de comparer les données issues d'une population d'étude à celles de cette population de référence et d'aider à mieux interpréter les résultats de qualité de vie liée à la santé de cette étude¹³⁶.

Dans le cadre de notre travail de recherche, nous avons mobilisé une version courte du SF36 pour mesurer la qualité de vie des proches aidants des patients atteints d'une SEP.

A côté de ces outils génériques, de nombreux instruments spécifiques à une pathologie ou un groupe de patients (par exemple les enfants) ont été développés, toujours particulièrement dans le contexte des pathologies chroniques.

Pour ce qui concerne les pathologies neurologiques, des questionnaires de qualité de vie liée à la santé sont actuellement disponibles en langue française (donc adaptés au contexte culturel français) pour la maladie de Parkinson, l'épilepsie mais aussi pour la SEP.

Au-delà des interactions directes entre patients et professionnels de santé et d'observations selon des approches dites qualitatives, la formalisation et la standardisation de la prise en compte de résultats du point de vue des patients, particulièrement ceux atteints d'une pathologie chronique, dans le choix et le déroulement de leurs soins, se sont, jusqu'ici, beaucoup appuyés sur des outils de mesure de la qualité de vie liée à la santé. De nombreux outils sont aujourd'hui disponibles et les résultats issus des études les mobilisant sont, au même titre que les données collectées par les professionnels de santé, intégrées pour l'aide à la décision, validant ainsi concrètement la place et les préférences des patients, voire de leurs proches aidants, pour l'amélioration de la qualité de leurs soins.

Concernant les patients atteints d'une SEP, des outils sont disponibles et utilisés, y compris en France, depuis plusieurs années.

2.3.4.1.2 Les données disponibles pour les patients atteints d'une SEP :

Concernant la SEP, un 1^{er} outil pour la mesure de la qualité de vie liée à la santé de ces patients a été publié par une équipe californienne en 1995¹³⁷. Il est intitulé Multiple Sclerosis Quality of Life (MSQOL)-54 Instrument, et comporte 52 items répartis selon 12 dimensions et 2 items indépendants. Il est en partie issu du questionnaire générique de qualité de vie SF36 auquel des questions spécifiques au contexte des patients atteints d'une SEP ont été ajoutés. Il n'est donc pas considéré comme un instrument de mesure de la qualité de vie totalement spécifique à la SEP. Adapté dans de nombreux pays, il est disponible dans de nombreuses langues dont une version traduite en français en 2000¹³⁸. En 2008, dans le cadre d'une coopération internationale impliquant une dizaine de pays, un instrument spécifique pour les patients français et pour ceux d'autres pays notamment européens comme l'Espagne, le RU, l'Allemagne mais aussi asiatiques, a été développé et validé selon les standards méthodologiques^{139,140}. Appelé MusiQoL cet outil comprend 31 items ou questions répartis selon les 9 dimensions suivantes : activités de la vie quotidienne, bien-être psychologique, relations avec les amis, symptômes, relations avec la famille, relations avec le système de soins, vie sentimentale et sexuelle, coping, rejet. Utilisé, depuis sa publication, dans de nombreuses études cliniques incluant des patients atteints d'une SEP, c'est également l'outil que nous avons utilisé dans le cadre de notre recherche.

Les résultats actuellement disponibles à propos de la qualité de vie des patients atteints d'une SEP mesurée par les outils décrits ci-dessus montrent des scores inférieurs à ceux de la population générale de référence, révélant donc une qualité de vie dégradée par rapport à cette population générale, en France comme dans les autres pays pour lesquels ces données sont

disponibles^{141,142}. Les données françaises permettent de constater que cet effet de la maladie sur la qualité de vie n'est pas spécifique au stade d'aggravation significative du handicap (c'est-à-dire au bout de 10 à 15 ans d'évolution de la maladie pour les formes RR) mais se manifeste dès les 1ères années, y compris pour des patients présentant peu ou pas d'incapacité locomotrice. Ce sont alors surtout les dimensions liées à l'état de santé général, à la fatigue et au sommeil qui sont impactées¹⁴³.

2.3.4.1.3 Les autres démarches mises en place :

Si l'évaluation de la qualité de vie liée à la santé des patients reste celle la plus formalisée et standardisée à ce jour, d'autres démarches ont été proposées en lien notamment avec la mise à disposition d'une offre conséquente de traitements de fond de la SEP depuis quelques années. En effet, ces traitements sont des traitements au long cours et engagent de nouveaux enjeux sur les préférences des patients mais aussi sur leur observance comme leur implication dans l'identification et le repérage d'effets indésirables. Ainsi, en France, dans le cadre du traitement par Natalizumab (immunosuppresseur), un plan de gestion des risques a été mis en place sous l'égide de l'Agence nationale de Sécurité du Médicament et des produits de santé (ANSM) lors de son autorisation de mise sur le marché. Il implique, au-delà des professionnels, les patients bénéficiant de ce traitement à travers un programme d'information et d'éducation et un engagement signé en commun (patient et neurologue) après les 2 premières années de traitement si celui-ci est poursuivi¹⁴⁴.

A côté de cette initiative des autorités de santé, les laboratoires pharmaceutiques commercialisant ces traitements soutiennent également des initiatives privées visant à recueillir, par le patient lui-même, des informations standardisées sur son état de santé et sur son traitement de fond. C'est par exemple le cas du Laboratoire Roche qui soutient le projet MSCOpilot de la société AdScientam, qui correspond au développement et à la mise à disposition des patients d'une application leur permettant de réaliser au fil des jours le recueil standardisé de nombreuses données et notamment celles permettant au clinicien d'apprécier l'évaluation du handicap entre 2 consultations, à travers la mesure de l'EDSS¹⁴⁵. Dans ce domaine, et en dehors du soutien par un laboratoire pharmaceutique, nous pouvons également citer l'initiative d'une équipe londonienne publiée en 1994 et proposant un outil d'auto évaluation de son handicap par le patient lui-même : il s'agit d'un auto questionnaire constitué de 6 questions principales relatives à l'autonomie physique des patients mais aussi à leurs interactions sociales et leur autonomie financière et comportant chacune 5 à 6 modalités de réponses¹⁴⁶. Depuis, sa publication, cet outil n'est pas utilisé en routine dans le cadre du suivi des patients, mais il peut être mobilisé dans le contexte d'études cliniques dès lors qu'une mesure de l'EDSS conformément au standard établi (c'est-à-dire par un médecin habilité) n'est pas accessible. C'est d'ailleurs le choix que nous avons fait dans le cadre de ce travail. Pour rappel, à ce jour, la mesure du niveau et de l'évolution du handicap dans le cadre du suivi de patients atteints d'une SEP, partout dans le monde, est celle de l'EDSS, outil standardisé de référence depuis plus de 50 ans et utilisé dans le cadre des essais cliniques comme du suivi, en vie réelle, des patients, notamment dans les centres de référence disposant des compétences requises¹⁴⁷. Cette mesure fondamentale pour l'évaluation clinique et la prise de décision est d'ailleurs l'un des items intégrés à la base EDMUS (European Database for Multiple Sclerosis), logiciel utilisé dans tous les centres de référence européens pour le suivi des patients, et outil de mise en réseau des données collectées, dans le cadre notamment de l'OFSEP, à finalité de recherche¹⁴⁸.

A notre connaissance, à ce jour, il n'existe pas d'autres démarches s'appuyant sur des outils validés et standardisés pour recueillir des « résultats » du point de vue des patients atteints d'une SEP.

La prise en compte de résultats du point de vue du patient lui-même pour le suivi des patients atteints d'une SEP s'est progressivement développé à côté de ceux observés et mesurés par les professionnels de santé. A ce jour, au-delà des éléments issus du colloque singulier entre le patient et ces professionnels, ils reposent avant tout sur des outils standardisés pour mesurer la qualité de vie de ces patients. Nous disposons ainsi, y compris en France, de données démontrant l'impact péjoratif de cette maladie sur la qualité de vie des patients, cela relativement précocement après le début de la maladie. Au-delà, d'autres démarches ont été initiées, notamment pour apprécier l'évolution du handicap qui est un critère de suivi et de décision important pour cette maladie, mais restent encore peu développées à ce jour. Au-delà des patients, des démarches concernent désormais également leurs proches aidants

2.3.4.1.4 Des démarches qui peuvent également impliquer les proches aidants :

Concernant les proches aidants, si on ne peut pas les inclure dans une démarche relative au recueil de données (outcomes) du point de vue des patients, des démarches se sont cependant développées pour recueillir également leur point de vue quant à l'impact, d'abord pour eux-mêmes, de la maladie de leur proche. C'est avant tout au fardeau, à l'épuisement de ces proches aidants qu'elles se sont intéressées. Cette démarche, adaptée au contexte et conséquences de nombreuses pathologies chroniques, repose sur des outils validés et standardisés comme par exemple l'échelle de Zarit qui explore à la fois des dimensions psychologiques et physiques de cet épuisement¹⁴⁹. Ces études ont pu mettre ainsi en évidence le rôle de ces proches aidants auprès du patient et son impact, globalement négatif, pour sa propre santé, avec des conséquences qui pèsent sur le patient comme sur le proche aidant lui-même^{150,151,152,153}.

Parce qu'elle apporte une information précieuse, du point de vue du proche aidant, sur les conséquences de son engagement auprès de l'aidé, cette mesure tend même à se systématiser dans le cadre des publications concernant des pathologies chroniques psychiatriques ou la maladie d'Alzheimer^{154,155}.

Depuis quelques années, c'est plus largement la qualité de vie liée à la santé de ces proches aidants qui est investiguée, selon des approches qualitatives ou quantitatives par la mobilisation d'outils standardisés de mesure de la qualité de vie¹⁵⁶. Pour les approches quantitatives, les outils les plus utilisés sont des outils génériques tels que le SF36 dans sa version intégrale ou abrégée (SF12), l'EQ5D ou encore le questionnaire développé par l'OMS^{157,158}. Au-delà de ces outils génériques, comme pour les patients, quelques outils ont été développés afin de cibler des populations spécifiques c'est à dire des proches aidants de patients affectés par une même pathologie. C'est le cas pour les proches aidants de patients atteints de cancer avec un outil désormais disponible dans de nombreux pays, mais aussi pour ceux dont l'aidé souffre de pathologies psychiatriques comme la schizophrénie^{159,160}. A ce jour cependant, ces démarches sont beaucoup moins développées que pour les patients et les données disponibles pour les proches aidants de patients atteints de pathologie chronique, en vie réelle, reposent donc avant tout sur des questionnaires génériques. Globalement, quel que soit le pays et quelle que soit la maladie chronique considérés, les résultats de ces études vont toutes dans le sens d'une dégradation de la qualité de vie de ces proches aidants par rapport à la population générale, à la fois pour les dimensions physiques et les dimensions psychologiques^{153,161,162}.

Concernant plus précisément la SEP, en France, à notre connaissance, il n'existe pas d'étude publiée explorant la qualité de vie et le niveau d'épuisement de proches aidants de patients atteints de cette maladie. En dehors de la France, et notamment en Europe, quelques équipes ont publié des données dans ce domaine, lesquelles montrent que la qualité de vie de l'aidant se dégrade et son niveau d'épuisement s'aggrave plus le handicap du patient s'aggrave^{163,164,165}. De plus, l'équipe espagnole du CAREQOL-MS study group a validé le seul questionnaire de mesure de la qualité de vie spécifique pour les aidants de patients atteints d'une SEP publié à

ce jour¹⁶⁶. Cependant, à notre connaissance, à ce jour, aucune donnée issue de son utilisation en vie courante n'est encore disponible et cet instrument n'a pas été adapté à d'autres contextes que celui de l'Espagne.

Concernant la mesure du fardeau de ces proches aidants, les études publiées, dont aucune française, vont dans le sens des données disponibles pour les pathologies chroniques en général et illustrent l'impact péjoratif de cet engagement auprès du proche malade, d'un point de vue physique comme psychologique^{56,167}.

La prise en compte de résultats du point de vue de leurs proches aidants au cours du suivi des patients atteints d'une pathologie chronique est une démarche relativement récente et qui est encore loin d'être systématique. Actuellement les mesures les plus développées et prises en compte sont celles de l'épuisement et du fardeau de ces proches aidants ainsi que de leur qualité de vie. Elles reposent sur des outils validés et reconnus internationalement comme l'échelle de Zarit ou les questionnaires génériques de qualité de vie. Certains questionnaires de qualité de vie spécifiques à telle ou telle pathologie ont également été développés, même s'ils restent encore l'exception.

Concernant la SEP, des données sont disponibles dans les 2 domaines et reposent sur les outils génériques. Elles restent cependant encore modestes, notamment en France, alors qu'elles témoignent indiscutablement de l'impact négatif de l'implication des proches aidants sur leur qualité de vie, lequel n'est pas sans conséquence pour le patient lui-même.

A côté de ces données, d'autres données devraient être prise en compte au cours du suivi des patients atteints d'une pathologie chronique, dont ceux atteints d'une SEP qui vivent des dizaines d'années avec cette pathologie. Il s'agit du vécu, de l'expérience des patients comme de leurs proches aidants vis-à-vis du parcours de soins. En effet, elles aussi devraient contribuer à adapter et ainsi améliorer la prise en charge proposée à ces patients.

2.3.4.2 L'expérience des soins vécus par les patients (Patients Reported Experiences) et ses mesures (Patients Reported Experience Measures) :

Intégrer le vécu et le ressenti des patients vis-à-vis de leur parcours de soins, particulièrement dans le contexte de pathologies chroniques, est une source d'informations désormais largement reconnue pour améliorer des enjeux importants lors de ces parcours comme, par exemple, les relations avec les professionnels de santé et leur coordination, leur coopération tout au long de ce parcours.

A ce jour, l'approche standardisée la plus développée depuis une quarantaine d'années et dans de nombreux pays pour répondre à cette ambition, est celle de la mesure de leur satisfaction à l'issue d'un épisode ou d'un parcours de soins. Nous n'aborderons pas, dans le cadre de ce travail, une approche développée de façon parallèle et complémentaire à celle de la mesure de la satisfaction, à savoir le recueil et le traitement des plaintes et réclamations, obligation s'étant imposée depuis quelques décennies dans de nombreux pays, dont la France, notamment pour les établissements sanitaires.

La prise en compte du vécu des patients à travers l'évaluation de leur satisfaction à l'occasion d'un épisode de soins, comme notamment un séjour hospitalier, est une démarche qui s'est concrétisée il y a une quarantaine d'années dans les systèmes de santé occidentaux. Le RU, les USA mais aussi les Pays Bas ou l'Australie ont été parmi les pays les plus précurseurs dans ce domaine. En France, cette démarche s'est structurée surtout dans le cadre de la démarche d'accréditation et de certification des établissements sanitaires et par la voie réglementaire à travers diverses dispositions du législateur à partir de 1996 (ordonnances Juppé) et avec

notamment la loi de Mars 2002 et la représentation des usagers dans les établissements sanitaires ainsi que dans les établissements médico-sociaux.

2.3.4.2.1 La mesure de la satisfaction des patients et de leur entourage :

Répondre à la satisfaction du patient est l'une des dimensions que l'OMS a intégrées dans sa définition de la qualité des soins. Cependant, même si l'évaluation de la satisfaction des patients est un mouvement qui s'est imposé dans de nombreux pays, le concept même de la satisfaction liée aux soins reste encore mal défini à ce jour. A ce débat, s'ajoute celui sur la validité et la légitimité des instruments utilisés pour mesurer cette satisfaction dont beaucoup ont été développés de façon spontanée et empirique, notamment par défaut de cadre théorique dans lequel les développer, par des structures et des professionnels de santé, sans, la plupart du temps, inclure dans cette démarche les patients eux-mêmes. Ces constats, associés au faible impact des résultats des enquêtes réalisées pour l'amélioration de la qualité des soins, ont beaucoup contribué au scepticisme des professionnels de santé à l'égard de cette démarche.

Notre travail n'a pas pour but de répondre à ces questions, mais il nous paraît important, dans le cadre de notre recherche, d'en poser les enjeux et d'en partager les principaux outils et résultats. En effet, la mesure de la satisfaction reste à ce jour la méthode la plus utilisée dans nos systèmes de santé pour intégrer le point de vue des patients ou de leur entourage afin de contribuer à l'évaluation et l'amélioration de la qualité des pratiques et des organisations de soins. Les données disponibles représentent donc des informations pertinentes au regard de notre travail et contribuent à expliquer pourquoi nous avons choisi de développer un autre outil s'appuyant lui-même sur un autre concept, pour recueillir le point de vue des patients et de leurs proches aidants, afin de contribuer à l'évaluation de la qualité des parcours de soins des patients atteints d'une SEP en France, plutôt que de nous appuyer sur des outils de mesure de la satisfaction déjà disponibles.

En fait, la mesure et l'analyse de la satisfaction des patients se sont déployées probablement d'abord pour des raisons politiques et économiques, avant même que les fondements théoriques de ce nouveau concept dans le champ de la santé n'aient été parfaitement établis et validés. Comme nous l'avons déjà évoqué, les systèmes de santé occidentaux, alors qu'ils se trouvaient, pour la première fois, confrontés à de réelles limites de financement, ont entamé à partir des années 1970-1980 un tournant majeur dans l'approche des pratiques et des organisations notamment médicales, afin qu'elles soient plus centrées sur les patients eux-mêmes plutôt que leur maladie. Ce mouvement a alors entraîné des besoins de mesures du point de vue, de l'avis des patients, lesquels se sont traduits par des initiatives et l'élaboration d'outils de mesures de la satisfaction de ces patients, sur le modèle de celles de la satisfaction des clients dans de nombreux autres domaines d'activités notamment des services. Pour de multiples raisons, c'est surtout dans le cadre de séjours dans les établissements hospitaliers, qu'ils se sont déployés. Plusieurs théories visant à définir ce concept ont alors été développées et publiées mais aucune n'a permis de le modéliser dans sa globalité et n'est donc devenue la théorie de référence. Ces recherches ont particulièrement mobilisé les champs de la psychologie et de la sociologie¹⁶⁸. Intuitivement, on perçoit la complexité de définir un objet aux déterminants multiples et interagissant les uns avec les autres. En effet, la personnalité du patient comme ses caractéristiques socio-démographiques sont à prendre en compte mais aussi son état de santé et sa maladie, son environnement social et culturel tout comme l'organisation et le financement du système de santé dans lequel il est pris en charge. Les auteurs considèrent que répondre, pour un patient donné, à un questionnaire de satisfaction à l'issue d'un épisode de soins, induit de sa part une réponse subjective (on parle souvent de perception du patient) déterminée par ses attentes en termes de résultat final mais aussi de la façon dont ce résultat est obtenu, ainsi que par ses valeurs, sa culture, à la fois personnelles et celles de sa communauté. Par ailleurs, selon eux, la satisfaction est un concept multidimensionnel comprenant l'évaluation, du point de vue

du patient, du résultat et de l'efficacité du processus de soins, de l'accès au service, de l'accès à l'information, mais aussi de ses relations avec les professionnels et enfin de son implication, en tant que patient, dans les décisions et les choix relatifs à ce processus de soins^{169,170,171,172}. A Donabedian avait également intégré la prise en compte du vécu du patient comme un des éléments constitutifs de la qualité des soins et de sa démarche d'évaluation à travers l'évaluation de la satisfaction. Il considérait que celle-ci résultait tout d'abord de l'interaction entre le patient lui-même et les professionnels de santé mais aussi le système de santé plus largement, tout en prenant en compte le résultat de la prise en charge et en faisant référence à un système de valeurs propre à chaque patient¹⁷³.

La notion de satisfaction liée à la réalisation notamment d'un épisode ou d'un acte de soins, est donc relative, son niveau variant d'un patient à l'autre, pour un même type de soins, dans un même contexte et pour un même résultat clinique du point de vue des professionnels. De plus, elle peut évoluer, pour un même patient, selon notamment l'évolution de son système de valeurs. C'est aussi pourquoi, au-delà des discussions persistantes sur la pertinence de ce concept pour contribuer à l'évaluation de la qualité des soins, la prise en compte des résultats d'enquête de satisfaction à l'échelle d'un établissement ou d'un système de santé, reste complexe et in fine relativement modeste.

A ce jour, notamment en France et pour des raisons avant tout réglementaires, la mesure de la satisfaction des patients hospitalisés reste une obligation insuffisamment intégrée au processus global d'amélioration de la qualité des soins, peu appropriée par les professionnels de santé et donc à l'impact relativement faible

Par ailleurs, dans de nombreux systèmes de santé lorsque le patient ne peut compléter lui-même le questionnaire de satisfaction, on considère valide que son entourage puisse le faire à sa place. Ces données sont alors incluses au même titre que celles des autres patients, notamment dans le cadre des enquêtes en milieu hospitalier. Cette pratique renforce probablement les questions quant à la pertinence de telles données pour contribuer à mesurer et à améliorer la qualité des parcours de soins de ces patients.

2.3.4.2 Les outils disponibles pour mesurer la satisfaction :

La formalisation de cette approche, à la fin des années 1970 et au début des années 1980, a conduit au développement de nombreux outils de mesure, en particulier dans le contexte hospitalier, dans tous les pays occidentaux. Ainsi, en France, l'article L 710-1-1 de l'ordonnance du 24 Avril 1996 a rendu obligatoire, pour tous les établissements de santé publics et privés, l'évaluation régulière de la satisfaction des patients avec également la remise d'un livret d'accueil avec la charte du patient hospitalisé lors de son admission. Les démarches d'évaluation externe, comme la certification des établissements de santé en France, intègrent également cette obligation et prennent en compte les résultats de ces évaluations (*décret n° 97-1165 de Décembre 1997*). Les procédures de renouvellement d'autorisation d'activité ou d'équipement doivent également, selon ce décret, tenir compte de cette démarche et de la prise en compte de ses résultats par l'établissement. Aux USA, une partie des financements des soins réalisés par les hôpitaux dans le cadre du programme Medicare dépendent de leurs scores de satisfaction des patients, mesurée par des enquêtes dédiées et s'appuyant sur des questionnaires standardisés à l'échelle nationale¹⁷⁴.

Dans tous ces pays, ces évaluations s'appuient sur des questionnaires de sortie mais aussi sur des enquêtes spécifiques que chaque établissement peut initier auprès de publics ciblés comme par exemple celui des urgences, celui de consultations externes, de secteurs ambulatoires... Sans passer en revue l'ensemble des outils disponibles, nous citerons les exemples les plus significatifs et les plus utilisés ainsi que ceux ayant un rapport plus direct avec le sujet de notre travail.

Aux Etats Unis, l'outil le plus utilisé, depuis le début des années 2000, est le Hospital Consumer Assessment of Healthcare Providers and Systems (HCAHPS) imposé par les programmes Medicare et Medicaid pour les séjours financés par ces 2 systèmes de financement public dans tout établissement de santé américain¹⁷⁵. Cette enquête en continue s'adresse à un échantillon de patients adultes entre 2 jours et 6 semaines après leur sortie de l'hôpital. Cet outil les interroge par 29 questions faisant référence à plusieurs dimensions comme la communication avec les professionnels et l'accès aux informations, la qualité (propreté, respect de l'intimité...) des locaux, la préparation de la sortie... Une question permet au patient d'indiquer s'il recommanderait ou pas cet établissement à l'issue de son récent séjour¹⁷⁶.

Au Royaume Uni, une 1^{ère} enquête nationale d'envergure couvrant les établissements hospitaliers et s'appuyant sur un questionnaire standardisé a été réalisée entre 1992 et 1993¹⁷⁷. C'est en 2002 que le principe d'une enquête en continue, à l'échelle nationale, sous l'égide du NHS et ciblant les séjours hospitaliers, s'est concrétisé, avec publication de résultats annuels. Cette enquête qui s'appelle le NHS Adult Inpatient Survey s'appuie sur le CORE Questionnaire (Clinical Outcomes in Routine Evaluation). Au-delà de cette enquête « généraliste » annuelle, le NHS développe d'autres travaux originaux en lien avec la mesure de la satisfaction ciblant par exemple la prise des médicaments par les patients afin de contribuer à l'amélioration de leur observance dans ce domaine¹⁷⁸.

Aux Pays Bas également la prise en compte du vécu des patients pour l'amélioration des soins et du système de santé a fait très tôt l'objet de travaux de recherche et de développement d'outils dédiés notamment pour formaliser le retour des patients après un épisode de soins hospitalier, mais aussi pour prendre en compte celui de populations spécifiques comme les personnes âgées, ou atteintes par une maladie donnée comme les patients atteints par le virus du SIDA ou les patients souffrant d'asthme chronique. Ces outils développés à l'échelle nationale sont appelés les questionnaires QUOTE pour Quality Of care Through the patient's Eyes¹⁷⁹. Ce sont également les équipes néerlandaises de R Grool et M Wensing qui sont à l'initiative du développement des premiers outils dédiés au recueil de la satisfaction des patients suite à une consultation de médecine générale. Cette initiative impliquant d'emblée de nombreux autres pays européens, s'est concrétisée à partir du milieu des années 1990 et a permis de développer un instrument commun et traduit dans plusieurs langues, au début des années 2000. Comme dans le contexte hospitalier, les quelques enquêtes réalisées avec cet outil dédié à la médecine générale font état de résultats particulièrement positifs quant à la satisfaction des patients vis-à-vis de la qualité de leur médecin généraliste et de leurs pratiques¹⁸⁰. En France cependant, en dehors de cette expérience européenne, cet outil n'a pas été déployé dans les cabinets de médecine générale et n'a été mobilisé que dans le cadre de quelques travaux de thèse.

En France, la même démarche s'est mise en place à la même période dans le cadre des séjours hospitaliers. Elle s'est inscrite notamment dans la mise en place et le rôle des commissions représentants les usagers ainsi que le déploiement de la certification des établissements de santé pilotée par la HAS. Elle a consisté en une obligation pour les établissements de santé accueillant des patients en Médecine – Chirurgie – Obstétrique, à déployer des enquêtes par questionnaires en leur laissant dans un premier temps le choix des outils utilisés. Au-delà de présentations dans des instances hospitalières comme la CME, la CRUQPC – CDU, les résultats étaient pris en compte lors de chaque visite de certification par les experts de la HAS. Dès cette époque, les constats largement partagés, et concordant avec ceux des autres pays cités ci-dessus, sont ceux d'un faible taux de réponse et des difficultés des établissements à motiver les patients pour remplir ces questionnaires au moment notamment de leur sortie, ainsi que l'impact relativement modeste de leurs résultats pour contribuer aux plans d'actions pour l'amélioration de la qualité et de la sécurité des soins.

Puis, cette démarche s'est uniformisée à partir de 2010, en s'appuyant sur un questionnaire national de référence appelé SAPHORA. En 2014, une enquête nationale dédiée appelée E

Satis, s'appuyant sur ce questionnaire et se déroulant sous la forme d'entretiens téléphoniques avec les patients via des instituts de sondage, est mise en place. Depuis 2015, ce recueil annuel est intégré à celui des indicateurs nationaux IQSS et confié à la HAS¹⁸¹. Ce nouveau dispositif E Satis repose sur une version actualisée du questionnaire de référence et la campagne nationale s'appuie, à partir de 2016, sur une enquête réalisée via le web. Depuis, elle a lieu chaque année, et porte, pour chaque établissement sanitaire, sur un échantillon de patients ayant séjourné au cours de l'année dans un service de court séjour. A l'issue de la campagne, la HAS diffuse à chaque établissement son score de satisfaction globale, score également accessible pour tout public sur le site Scopesante.fr¹⁰¹. Ainsi, les résultats publiés pour l'année 2017 indiquent, à l'échelle nationale, que les patients expriment un bon niveau de satisfaction concernant la prise en charge par les équipes soignantes mais qu'ils sont plus insatisfaits à propos de l'hébergement et des repas et encore plus à propos de l'organisation de leur sortie déplorant surtout un manque d'informations sur cette étape de leur prise en charge¹⁸².

Concernant plus précisément les patients atteints d'une maladie chronique et notamment ceux atteints d'une SEP, ils peuvent évidemment faire partie des patients tirés au sort annuellement s'ils ont effectué un séjour dans établissement de santé et ainsi répondre à l'enquête E Satis. Cependant, dans le contexte de ces pathologies chroniques, les séjours hospitaliers ne sont pas les seuls éléments du parcours de soins et ne sont pas nécessairement les plus représentatifs. Par ailleurs concernant la SEP, beaucoup d'hospitalisations se déroulent dans le cadre d'hôpitaux de jours, lesquels n'entrent pas dans les critères de sélection des patients pour cette enquête. Enfin, à ce jour, aucune analyse ciblant une population de patients donnée comme ceux atteints d'une SEP n'a été réalisée à partir des bases de données E Satis.

Pour tenter de mieux cibler une population concernée par un même problème de santé, certaines équipes ont souhaité développer des questionnaires de satisfaction spécifiques à cette population et à leur pathologie. Parmi ces expériences on peut notamment citer les outils développés à partir de l'outil générique QUOTE aux Pays Bas. Ainsi, au cours des années 2000, des outils dédiés pour les patients atteints d'asthme, de bronchite chronique, de polyarthrite rhumatoïde, d'une pathologie hépatique ou porteur du virus HIV, ont été développés^{183,184}. Chacun de ces questionnaires comportait une première partie de questions reprises du questionnaire générique et une seconde correspondant à des questions spécifiques à la population et la pathologie ciblées. Aucun de ces outils n'a été adapté au contexte français, le questionnaire générique ne l'ayant pas été lui-même. A notre connaissance, aucun instrument de ce type n'a été développé jusqu'à ce jour pour des patients atteints de pathologies neurologiques dont la SEP, dans aucun pays.

La mesure de la satisfaction des patients reste encore actuellement le modèle le plus développé, voire imposé à travers des processus d'évaluation externe, dans tous les systèmes de soins pour évaluer leurs vécus et leurs ressentis vis-à-vis de la qualité des soins. Au-delà des débats qui perdurent sur ce concept et sa pertinence pour répondre à cet objectif, le constat des limites des outils développés pour que les résultats de ces mesures soient une aide contributive à l'amélioration de la qualité des soins est aujourd'hui largement partagé. Il impose dès lors de s'engager dans de nouvelles approches. L'évaluation de l'expérience des patients comme de leurs proches aidants est celle à laquelle le plus de projets de recherche et de publications sont actuellement consacrés.

2.3.4.2.3 Une nouvelle perspective : évaluer l'expérience des patients et de leur entourage :

Alors que les limites liées à la mesure de la satisfaction des patients sont donc aujourd'hui reconnues et alors que la prise en compte du point de vue des patients et plus largement des usagers du système de santé pour l'amélioration de la qualité des soins s'est de plus en plus affirmée comme un enjeu central pour les systèmes de santé, une autre approche pour

développer ces démarches a émergé depuis quelques années : celle de la mesure de l'expérience de ces patients, de ces usagers.

Ainsi, dès 2003, le Picker Group, particulièrement investi dans la recherche concernant les démarches qualité « patient- centré », publiait une synthèse rappelant d'abord les différences entre le concept de satisfaction et celui d'expérience puis décrivant 8 dimensions relatives à la mesure de l'expérience patient et comparant les résultats d'une étude dans 5 pays¹⁸⁵. Depuis, des travaux de synthèse ont été publiés dans plusieurs pays dont la France sur différentes approches pour mesurer l'expérience des patients, voire également de leur entourage ou de leurs proches aidants, et sur l'intérêt de ces mesures pour l'amélioration de la qualité des soins^{186,187}.

Cette démarche s'intègre plus largement dans celle de la prise en compte des savoirs expérientiels des patients dans l'objectif de pratiques plus collaboratives avec les professionnels de santé comme l'explique L Flora et ses collègues dans une note de synthèse publiée en 2010¹⁸⁸. Il s'agit selon eux de mobiliser les compétences acquises par les patients, plus particulièrement dans le contexte des pathologies chroniques, ainsi que leurs savoirs issus de l'expérience de leur vécu lors des contacts avec le système de soins et beaucoup plus largement de leur quotidien avec la maladie. Le principe est donc d'interroger les patients, comme leurs proches aidants, sur la façon et quand les « événements » se sont déroulés et non plus sur leur niveau de satisfaction sur ce déroulement et sur ses résultats^{185,189}.

Dès lors, l'enjeu de la mesure de cette expérience devient une préoccupation incontournable. Or, les outils de mesure de la satisfaction, outils les plus répandus et les plus employés à ce jour dans nos systèmes de santé, ne permettent pas d'accéder à cette expérience des patients comme de leurs proches aidants. Ainsi, Bleich et al, dès 2009, sur la base des résultats d'une enquête de satisfaction réalisée en 2003 et ayant mobilisé des dizaines de milliers de patients dans plus de 21 pays, montraient que cette satisfaction dépendait avant tout de facteurs externes au système de soins et non de l'expérience vécue par ces patients lors d'épisodes de soins¹⁹⁰. Face à ce constat et alors que les outils dédiés à l'évaluation de l'expérience patient ne sont pas encore développés et disponibles dans tous les systèmes de soins, plusieurs d'entre eux, dont en France, ont fait le choix d'intégrer des items ou des questions plus en lien avec la mesure de l'expérience dans des questionnaires déjà en place pour évaluer la satisfaction des usagers du système de soins¹⁹¹.

En dehors de ces initiatives, il existe plusieurs méthodes pour mesurer l'expérience de patients ou de proches aidants, selon une approche qualitative comme les entretiens semi-directifs et les focus group, mais aussi selon une approche quantitative à travers des questionnaires dédiés¹⁸⁷. Au-delà de leur maîtrise et de considérations pratiques et opérationnelles pour leur mise en œuvre, le choix de la méthode est surtout déterminé par les objectifs que l'on se fixe lorsqu'on engage ce type de mesure. Parmi ces objectifs possibles, on peut particulièrement distinguer ceux visant à apporter une information au « grand public » c'est-à-dire aux potentiels usagers d'un établissement, d'une structure de soins, et visant à comparer les résultats de ces structures à l'échelle d'un territoire donné, et celles visant avant tout à l'amélioration des pratiques et des organisations internes à un établissement, une structure voire une équipe de soins¹⁸⁶.

En pratique, la plupart des démarches entreprises à ce jour dans ce domaine ciblent le retour d'expérience des patients dans le cadre ou à l'issue d'un séjour hospitalier, même si quelques initiatives concernent les consultations externes ou des hospitalisations en service de longue durée. Elles s'appuient aussi bien sur des approches qualitatives comme la méthode du patient shadowing ou celle du patient traceur largement mobilisée dans le cadre des démarches de certification des établissements de santé, que sur des approches quantitatives s'appuyant sur des questionnaires surtout généralistes mais parfois spécifiques d'une pathologie ou d'un acte de soins^{192,193}.

A ce jour, peu d'initiatives ou de projets ont directement ciblé les proches aidants ou l'entourage des patients, même s'ils peuvent être mobilisés pour répondre avec le patient,

notamment lorsque celui-ci est un enfant ou lorsqu'il présente des troubles cognitifs, lors de démarches d'évaluation comme des patients traceurs ou lors d'enquêtes¹⁹⁴.

De même, peu se sont projetées selon une perspective prenant en compte plus largement le parcours de soins des patients plutôt qu'un acte de soins ou un séjour hospitalier, et ciblant plus particulièrement des patients atteints d'une pathologie chronique¹⁹⁵.

A notre connaissance, aucune expérience de ce type n'a, jusqu'à ce jour, concerné ni des patients atteints d'une SEP, ni leurs proches aidants, en France comme ailleurs dans le monde.

Si la démarche d'évaluation de l'expérience des patients comme de leur entourage est de plus en plus prise en considération dans nos systèmes de santé, l'arsenal des outils disponibles est encore modeste. Ce constat est particulièrement vrai quand on se projette dans le contexte d'une pathologie chronique et selon une perspective globale de parcours de soins et non plus d'un épisode de soins. Il est vrai quelques soient les pays et il est vrai pour une pathologie comme la SEP. L'un des enjeux et des objectifs de notre démarche de recherche est donc de développer et de mettre à disposition des patients atteints par cette maladie, comme de leurs proches aidants, des outils élaborés avec eux et leur permettant de partager leur vécu vis-à-vis de la qualité du parcours de soins de ces patients, en France.

3 Les questions de recherche et leurs objectifs

Depuis quelques dizaines d'années, dans tous les pays occidentaux et même au-delà, les enjeux de qualité des soins se sont imposés dans un cadre plus général d'évaluation de la santé des populations et d'évaluation des prises en charge médicales et thérapeutiques. Ces enjeux rejoignent ceux liés à une meilleure organisation des parcours de soins des patients alors que les systèmes de soins se complexifient, cela en particulier pour les patients atteints d'une pathologie chronique, et que les enjeux de financement des soins sont également une question prioritaire.

Mieux évaluer la qualité des soins apportés à des patients atteints d'une pathologie chronique comme la SEP est donc un enjeu important dans le contexte actuel de nos systèmes de santé et plus largement de nos sociétés occidentales. Il s'agit notamment de s'assurer que les pratiques et les organisations mises en place correspondent effectivement aux besoins et aux attentes des patients et de leur entourage tout en répondant aux données actualisées de la science. Cet objectif représente une évolution importante pour nos systèmes de santé au regard de leur histoire et particulièrement de la place des patients et de leur entourage dans les décisions et les organisations liées aux soins.

Pour y répondre, nous devons disposer d'outils reconnus par tous et développés selon les standards méthodologiques actuels. Par ailleurs, même si cette pathologie et son contexte de prise en charge, peuvent présenter des points communs avec d'autres pathologies chroniques, leurs spécificités sont réelles et documentées. C'est pourquoi la nécessité de disposer d'outils spécifiques à cette pathologie, à ces patients et leurs proches aidants, nous paraît s'imposer.

Or, à ce jour, dans le domaine de la prise en charge des patients atteints d'une SEP, ils sont particulièrement rares, pour ne pas dire inexistant, et la reconnaissance des quelques outils publiés semble assez modeste si on se réfère à leur utilisation en pratique, dans le cadre notamment d'études cliniques ou de projets de recherche.

Face à ces constatations, 2 questions principales ont structuré la base de réflexion du travail entrepris dans le cadre de cette thèse :

- La première interrogeait l'apport d'une démarche visant à mesurer la qualité des soins pour les patients atteints d'une SEP, pour ces patients eux-mêmes mais aussi pour leur

entourage ainsi que pour les professionnels de santé impliqués dans cette prise en charge ?

- La seconde visait à mobiliser les freins liés à l'engagement, dans cette démarche, notamment des professionnels de santé, acteurs incontournables pour travailler et avancer sur ce sujet, et liés à l'utilisation des quelques outils de mesure disponibles dans ce domaine ?

Sur la base de ces deux questions, nous avons décliné deux objectifs généraux pour chercher à y répondre :

- Objectif général 1 : développer et déterminer l'intérêt d'un outil de mesure de la qualité des soins sous le prisme de la dyade patient-proche aidant

- Objectif général 2 : développer et déterminer l'intérêt d'indicateurs de la qualité des soins élaborés selon le point de vue des professionnels de santé

Chaque objectif général a été traité en 2 étapes :

- Etape 1 : Maîtrise de la mesure de la qualité de soins

Il s'agit de mettre à disposition de la communauté (patients et entourage, cliniciens, décideurs en santé) des outils valides de la mesure de la qualité des soins à travers une démarche holistique : les 3 points de vue cliniciens-patients-proches aidants ont été retenus.

- Etape 2 : Intérêt de la mesure de la qualité des soins : dans la pratique clinique, dans le vécu des patients et leur entourage

Il s'agit d'apporter des éléments à la communauté scientifique permettant d'identifier l'intérêt de la mesure de la qualité des soins dans la prise en charge courante des patients, ainsi que les freins à son utilisation.

Chacun des objectifs est développé dans le chapitre suivant de ce manuscrit par la mise en place de projets spécifiques.

4 La mesure de la qualité des parcours de soins des patients atteints d'une SEP en France : le point de vue de la dyade patient – proche aidant :

Outre l'équipe de santé publique du CHU de Rennes et l'équipe d'accueil EA 3279 CEReSS (Centre d'études et de recherche sur les Services de Santé et la qualité de vie) de l'Université Aix-Marseille, ce travail de recherche s'est appuyé sur 2 autres soutiens importants :

- un réseau de professionnels de santé, experts dans la prise en charge des patients atteints d'une SEP en France, qui est particulièrement bien structuré avec notamment les réseaux SEP régionaux, les services hospitalo-universitaires d'expertise de la SEP et l'Observatoire Français de la SEP (OFSEP), ainsi qu'un système de recueil de données commun et dédié, le réseau EDMUS (European Database for Multiple Sclerosis), initié au milieu des années 1970 en France (Hospices Civils de Lyon) et déployé depuis les années 1990 à l'échelle européenne
- un réseau d'associations dédiées à la lutte contre cette maladie et au soutien des patients et de leur entourage parmi lesquelles notamment l'ARSEP (Fondation pour l'aide à la recherche sur la sclérose en plaques), la ligue Française contre la SEP, toutes les 2 bien implantées nationalement et disposant de relais ou d'antennes dans la plupart des régions françaises

Les financements nécessaires à la conduite de ce travail ont été obtenus suite à des réponses à plusieurs appels à projets nationaux. Les démarches de soumission puis de soutien et de suivi du déroulement des projets financés ont été assurées en lien avec la direction recherche et innovations du CHU de Rennes, laquelle a passé une convention avec la direction recherche de l'Assistance Publique- Hôpitaux de Marseille (AP-HM).

Nous avons soumis notre projet à 4 appels à projets de recherche nationaux. Il a été retenu par chaque appel à projet et tous ont attribué les financements sollicités.

Le projet a d'abord été déposé et accepté à l'appel à projets Programme de REcherche en Qualité HOSPitalière (PREQHOS) 2010, financé par le ministère de la santé. Nous avons soumis à cet appel à projets les objectifs qui ciblaient l'évaluation de la qualité du parcours de soins du point de vue des professionnels d'une part et du point de vue des patients d'autre part. Les financements obtenus étaient de 198 000 euros. Ils ont permis d'engager le travail visant à développer et valider des indicateurs pour évaluer la qualité des pratiques et des organisations de la prise en charge des patients atteints d'une SEP en France, par les professionnels de santé experts de cette maladie. Ils ont également permis de reconstituer une cohorte de 700 patients français dont les 1ers symptômes de la maladie étaient identifiés entre le 1^{er} Janvier 2000 et le 31 Décembre 2001. Cette cohorte nous a permis de tester, en vie réelle, les indicateurs de pratique validés par les professionnels de santé, par le recueil des données correspondantes dans les dossiers sources (hospitaliers et de ville) de ces patients et cela sur une période de 10 années d'évolution et de suivi de la maladie.

Nous avons pu enfin engager le travail correspondant à l'objectif de l'évaluation de la qualité des parcours par les patients atteints d'une SEP eux-mêmes. Ce travail a nécessité la collaboration de 2 sociologues de la santé (Mes Karine Chauvin et Marie Elisabeth Cosson) qui ont réalisé un recueil de données basé sur des focus groupes et des entretiens semi directifs individuels, données qui ont été analysées au sein de l'équipe EA 3279 CEReSS. Les résultats de cette analyse ont été la base pour l'élaboration du questionnaire MusiCare visant à évaluer l'expérience des patients vis-à-vis de la qualité de leur prise en charge, comme nous le détaillons dans le paragraphe suivant.

En 2013, nous avons soumis notre projet à 3 autres appels à projets nationaux. Tout d'abord au Programme de REcherche sur la Performance du Système de soins (PREPS) financé par le ministère de la santé, puis aux appels à projets de la Fondation de France (« soigner, soulager, accompagner ») et de l'ARSEP. Les objectifs de ces demandes de financement étaient, d'une part de compléter les besoins pour poursuivre le travail engagé et, d'autre part, d'ajouter à ce projet l'objectif visant à intégrer le point de vue des proches aidants des patients à cette démarche d'évaluation de la qualité des parcours de soins. Ce projet a été accepté à ces 3 appels à projets pour un financement total de près de 400 000 euros (265 000 euros pour le PREPS, 50 000 euros pour la Fondation de France et 75 000 euros pour l'ARSEP). Grâce à ces financements complémentaires, nous avons donc pu poursuivre et finaliser l'ensemble des projets visant à répondre aux objectifs de notre recherche.

Par ailleurs, l'OFSEP a apporté le soutien de son comité scientifique à l'ensemble de ce projet.

L'ensemble des autorisations réglementaires nécessaires (Comité de Protection des Personnes – CPP, Comité Consultatif sur le Traitement de l'Information en matière de Recherche dans le domaine de la Santé - CCTIRS, Commission Nationale de l'Informatique et des Libertés - CNIL) pour le déroulement de l'intégralité du projet de recherche ont été obtenues début 2015. Le projet a alors été enregistré au registre Clinical Trials le 9 mars 2015 sous le numéro NCT02388334.

4.1 Mobiliser l'expérience des patients et de leurs proches aidants pour évaluer la qualité des parcours de soins atteints d'une SEP en France : le Musicare

4.1.1 Contexte et objectifs :

Les enjeux pour mieux évaluer la qualité de la prise en charge des patients atteints d'une pathologie chronique comme la SEP sont aujourd'hui bien identifiés dans nos systèmes de santé. L'un d'eux concerne la prise en compte, dans ce processus, du point de vue de ces patients comme de leurs proches aidants, à travers la mesure de leur vécu, de leur expérience vis-à-vis de la qualité de leur parcours de soins. Il s'agit cependant de démarches complexes et devant s'appuyer sur des outils validés et reconnus, outils dont nous ne disposons pas actuellement.

Les objectifs de notre travail étaient donc de développer un outil de mesure (questionnaire) de l'expérience des patients atteints d'une SEP en France vis-à-vis de la qualité de leur parcours de soins ainsi que de celle de leurs proches aidants. Etant donné le contexte d'évolution de la maladie, c'est-à-dire, pour la forme la plus fréquente, par poussées entrecoupées de périodes de rémission sans manifestation aiguë, ainsi que le contexte de la prise en charge de ces patients, c'est-à-dire sur un mode surtout ambulatoire, l'approche de cette mesure ne pouvait se focaliser sur des épisodes de soins comme des séjours hospitaliers. Or, les seuls outils actuellement disponibles pour mesurer l'expérience des patients vis-à-vis des soins dont ils bénéficient dans le cadre de nos systèmes de santé ciblent ces épisodes^{196,197,179}. Cette démarche devait donc s'inscrire dans une perspective plus large de parcours de soins du patient et sur une période de temps relativement longue incluant des étapes significatives comme celles du diagnostic, de la survenue de poussées, de la mise en route d'un traitement de fond, de l'aggravation significative du handicap... Par ailleurs, le contexte de cette maladie et le rôle incontournable des proches aidants auprès des personnes malades tout au long de ce parcours de soins, nous ont conduits à intégrer à cette démarche le point de vue de ces proches aidants par l'élaboration d'un outil dédié pour évaluer leur expérience de la qualité du parcours de soins des patients.

4.1.2 Méthodologie :

Le développement du questionnaire, de façon identique pour les patients et pour leurs proches aidants, a fait appel à une démarche codifiée comprenant une étape qualitative de construction suivie d'une étape quantitative de validation^{1136,198,199}. Elle repose sur les principes suivants :

- Se baser sur le point de vue des patients et sur celui de leurs proches aidants
- Répondre aux critères de validation métrique reconnus
- Présenter des propriétés de sensibilité au changement avérées

4.1.2.1 L'étape qualitative :

Cette étape a pour objectif de générer les questions (items) constituant la version V0 de ces questionnaires. Elle s'est basée sur des entretiens semi directifs et des focus groupes, et a permis de générer des hypothèses, notamment les dimensions que devraient intégrer chacun des questionnaires. Cette étape du projet a été réalisée en collaboration avec 2 sociologues de la santé (Me K Chauvin et Me ME Cosson) qui ont conduit les entretiens et animé les focus groupes en s'appuyant sur un guide d'entretien semi-structuré. A titre personnel j'ai co-animé les premiers focus groupe patients ayant eu lieu entre 2011 et 2012. Par contre, cette présence de 2 interlocuteurs dans le cadre des entretiens individuels patients comme proches aidants ne nous a pas paru adaptée.

4.1.2.1.1 Concernant les patients :

Le guide d'entretien a été élaboré en collaboration avec ces 2 sociologues et a mobilisé les données issues de la revue de la littérature dans le domaine de la qualité des soins pour les patients atteints d'une SEP ainsi que l'expérience de professionnels de santé, spécialisés dans ce domaine et partenaires de notre projet. Les thèmes abordés ont été les suivants : la vie quotidienne ; la situation familiale ; l'insertion professionnelle ; la situation économique et sociale ; les loisirs ; l'entrée dans la maladie ; l'annonce du diagnostic ; les périodes de poussées ; les traitements ; la prévention ; l'information tout au long du parcours de soin ; la coordination de l'ensemble de la prise en charge ; la participation à la décision et à la prise en charge ; la qualité de vie ; les accompagnants. Chaque thème était décliné par des questions permettant de questionner les différentes dimensions de ce dernier. Le guide a été testé lors des premiers focus groupes auxquels j'ai participé, et quelques questions ont ensuite été supprimées ou ajoutées.

Le focus peut être assimilé à un entretien collectif. Son intérêt est de recueillir une pensée collective d'usagers à partir d'une confrontation des discours autour d'un sujet ou de thèmes. L'analyse des points de convergence et de divergence permet de mettre à distance la dimension subjective présente dans l'évaluation de la qualité des soins. Cette méthode a été couplée avec de l'observation directe portant sur les réactions ou les émotions provoquées par certains sujets questionnés ou débats engagés entre les participants au cours de ces rencontres. Au total, 6 focus groupes incluant chacun de 5 à 8 patients ont été réalisés dans des régions et villes différentes (Rennes, Vannes, Nancy, Nantes, Angers). L'ensemble de ces focus ont été enregistrés et retranscrits intégralement. L'analyse des données a été effectuée par les sociologues, en collaboration avec l'équipe pilote du projet, à partir des retranscriptions selon une analyse verticale (par focus) et une analyse horizontale (sur l'ensemble des focus). Cette analyse a été couplée à celle des entretiens semi directifs réalisés également par ces sociologues, analyse conduite par Me E Delepau (psychologue) sous la direction de Me K Baumstarck et en collaboration également avec l'équipe pilote du projet.

Des entretiens semi-directifs avec les patients ont été réalisés en complément des focus groupes, également par les sociologues et sur la base du même guide d'entretien. Vingt-cinq entretiens individuels ont été réalisés et analysés. Les critères de confusion retenus pour sélectionner ces

patients ont été avant tout le sexe et la forme de la maladie. L'échantillon était donc constitué de 4 hommes et 8 femmes présentant une forme rémittente, 6 hommes et 7 femmes présentant une forme progressive (primitive ou secondaire). L'analyse de ces entretiens, réalisé par Me E Delepau en lien avec l'équipe pilote du projet, a constitué en une 1^{ère} étape d'analyse manuelle qui a permis d'identifier les 9 thèmes suivants relatifs à la qualité des soins perçue: aspects physiques, aspects relationnels, aspects psychologiques, mobilité et autonomie, délais d'accès aux soins et aux professionnels, information, organisation des soins et des professionnels, décision partagée, entourage. Un score d'occurrence a été calculé pour chacun des thèmes abordés (de 100% à 36%). Une analyse textuelle a ensuite été réalisée sur l'ensemble du corpus à l'aide du logiciel Alceste et qui a permis d'identifier les 5 thématiques principales suivantes : aspects socioéconomiques, vie quotidienne, aspects thérapeutiques et soins, suivi médical et place du neurologue, organisation des soins.

Un ensemble d'items a ainsi été identifié et défini sur la base des résultats obtenus par la combinaison de l'analyse des entretiens individuels et celle des focus groupes. Une 1^{ère} version du questionnaire a été élaborée par l'équipe projet sur cette base. Au-delà des questions candidates pour cette version V0, (Annexes) les modalités de mise en forme des questions de l'outil ont été discutées (forme ordinale, nombre de modalités impaires). Cette version V0 a été testée auprès de 10 autres patients sur des critères de clarté, de compréhension, d'acceptabilité des questions et de facilité et de temps de remplissage du questionnaire. Leur avis sur le contenu de l'outil à la recherche notamment d'éventuels manques a aussi été sollicité. Une version V1 du questionnaire a été produite (Annexes).

Tous ces patients ont accepté de participer (consentement signé) à ces focus groupes et ces entretiens individuels après information initiale des objectifs de la recherche et de cette sollicitation. Cette sollicitation et cette information ont été réalisés dans un 1^{er} temps par un professionnel de l'équipe les prenant en charge (neurologue ou médecin rééducateur) puis par l'équipe pilote du projet et l'une des 2 sociologues. Les focus groupes ont été organisés dans des lieux « neutres » c'est-à-dire en dehors d'un établissement de santé ou d'une structure de soins.

4.1.2.1.2 Concernant les proches aidants :

Seuls des entretiens individuels semi-directifs ont été réalisés. Ils ont été conduits par les 2 sociologues associées à cette étude sur la base d'une grille d'entretien construite selon la même démarche que pour les patients (revue de la littérature et sollicitation de professionnels de santé experts dans la prise en charge des patients atteints d'une SEP). L'option de focus groupes n'a pas été retenue parce que les proches aidants sollicités ne souhaitaient pas se retrouver dans le contexte d'un groupe de proches aidants pour évoquer leur situation personnelle et celle du patient aidé.

Les thèmes abordés ont été les suivants : la vie quotidienne ; la situation familiale ; l'insertion professionnelle ; la situation économique et sociale ; les loisirs ; l'entrée dans la maladie ; l'annonce du diagnostic ; les périodes de poussées ; les traitements ; la prévention ; l'information tout au long du parcours de soin ; la coordination de l'ensemble de la prise en charge ; la participation à la décision et à la prise en charge ; la qualité de vie ; le rôle du proche aidant auprès du patient.

Soixante-douze entretiens individuels ont été réalisés et analysés. Les critères de confusion retenus pour sélectionner ces proches aidants ont été, comme pour les patients, le sexe et la forme de la maladie de l'aidé, ainsi que la nature du lien entre le proche aidant et le patient (conjoint ou autre lien) (cf tableau ci-dessous).

Forme SEP	Rémittente				Progressive			
Sexe patient	Homme		Femme		Homme		Femme	
Lien avec le patient	Conjoint	Autre lien	Conjoint	Autre lien	Conjoint	Autre lien	Conjoint	Autre lien
Effectif	11	2	14	5	15	2	16	7

L'analyse de ces entretiens, réalisé par E Delepau en lien avec l'équipe pilote du projet, a constitué en une 1ère étape d'analyse manuelle qui a permis d'identifier les 10 thèmes suivants relatifs à la qualité des soins perçue en lien avec la maladie et classés à l'aide d'une grille d'analyse : aspects physiques, aspects relationnels, aspects psychologiques, mobilité et autonomie, délais d'accès aux soins et aux professionnels, information, organisation des soins et des professionnels, rôle et besoins de l'aidant, décision partagée, soutien des professionnels à domicile. Une analyse textuelle a ensuite été réalisée sur l'ensemble du corpus à l'aide du logiciel Alceste et qui a confirmé les thématiques identifiées par l'analyse manuelle.

Un ensemble d'items a été identifié et défini sur la base des résultats obtenus par la combinaison de l'analyse des entretiens individuels et celle des focus groupes. Une 1ère version du questionnaire a été élaborée par l'équipe projet sur cette base. Au-delà des questions candidates pour cette version V0, (Annexes) les modalités de mise en forme des questions de l'outil ont été discutées (forme ordinale, nombre de modalités impaires). Cette version V0 a été testée auprès de 10 autres proches aidants sur des critères de clarté, de compréhension, d'acceptabilité des questions et de facilité et de temps de remplissage du questionnaire. Leur avis sur le contenu de l'outil à la recherche notamment d'éventuels manques a aussi été sollicité. Une version V1 du questionnaire a été produite (Annexes).

Tous ces proches aidants ont accepté de participer (consentement signé) à ces entretiens individuels après information initiale des objectifs de la recherche et de cette sollicitation, d'abord par le patient lui-même, puis par l'équipe pilote du projet et l'une des 2 sociologues.

4.1.2.2 L'étape quantitative :

Elle a pour objectif principale la validation d'une version définitive des questionnaires incluant leur validité externe, leur validité interne, leur reproductibilité et leur sensibilité. Pour cette étape nous avons regroupé la phase de tri d'items et celle de validation proprement dite des questionnaires. Le tri d'items, sur la base de la version V1 des questionnaires, a consisté à supprimer les items non compris, redondants, ceux ayant un taux de réponse faible en s'appuyant notamment sur l'analyse des distributions des réponses aux items, la recherche des effets plafond et des effets plancher, les index de discrimination, la matrice de corrélations d'items, selon les méthodes statistiques de référence. Pour ces versions V1 des questionnaires, nous avons choisis 4 modalités de réponse possible aux questions auxquelles était ajouté une modalité « ne se prononce pas » :

-pour la majorité des questions ces modalités étaient les suivantes : tout à fait d'accord, plutôt d'accord, plutôt en désaccord, pas du tout d'accord

- pour les questions concernant l'accès aux professionnels et aux lieux de soins elles étaient les suivantes : mieux que souhaité, comme souhaité, un peu moins que souhaité, beaucoup moins que souhaité

Pour toutes les questions, nous avons décidé d'interroger les patients et leurs aidants proches sur une période, rétrospective, de 12 mois. En effet, notre but était de construire un outil qui puisse aborder le parcours de soins de ces patients de façon globale. Or, la SEP est une maladie chronique qui se déclenche chez des patients relativement jeunes et qui persiste jusqu'à leur décès. Le parcours de soins de ces patients se déroule donc sur des dizaines d'années, émaillé de contacts divers avec les professionnels et le système de soins, selon une périodicité qui peut être très variable au fil du temps et fonction des événements qui marquent la maladie (poussées, mise en route et suivi de traitements de fond, passage à une forme secondairement progressive...). Pour éviter que le retour d'expérience ne soit particulièrement marqué par un de ces épisodes aigus et pour que les décisions et actions d'amélioration issues de l'analyse des résultats de ces retours d'expérience s'inscrivent d'abord sur des enjeux de long terme et concernent le système de soins dans sa globalité, nous avons donc fait le choix d'interroger les patients et leurs proches aidants sur la qualité de ce parcours au cours des 12 derniers mois. Cependant, l'expérience des patients et de leurs proches aidants lors d'épisodes de soins ou d'événements aigus, doit être également prise en compte. Pour cela, nous pensons qu'il est plus pertinent de mobiliser des approches plus qualitatives et adaptée à l'échelle d'une équipe ou d'un territoire de santé (notamment pour la coordination entre la ville et l'hôpital et entre le sanitaire et le médico-social), comme par exemple la méthode du patient traceur. Cette méthode d'évaluation des pratiques professionnelles est depuis quelques années largement diffusée notamment dans les établissements de santé et ses enseignements devraient être pris en compte en complément de ceux d'une approche quantitative que permet un questionnaire comme MusiCare.

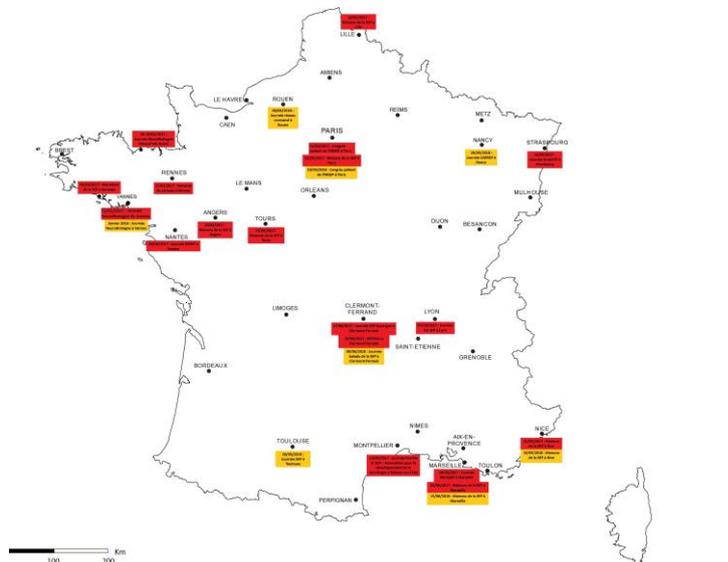
Nous avons mobilisé 15 patients et 15 proches aidants pour qu'ils répondent au questionnaire qui leur était destiné et commentent leur compréhension et le contenu du questionnaire. Ils ont donc indiqué ce qu'ils pensaient inutile ou à améliorer que ce soit sur le contenu, sur la formulation des questions ou sur les modalités de réponse. Ainsi, les questions qu'ils jugeaient incompréhensibles, inutiles (celles auxquelles ils n'avaient pas ou peu répondu), ou ambiguës ont été retirées de la version V1 après discussion entre les membres du comité de pilotage, aboutissant à une version V2 des questionnaires.

A l'issue de cette étape nous avons pu engager la phase de validation finale de la structure des versions V2 des questionnaires ainsi que leur reproductibilité. Pour concrétiser cette étape qui, selon les standards méthodologiques, doit mobiliser plusieurs centaines de patients et de proches aidants, nous nous sommes appuyés sur les réseaux des professionnels intervenant dans le parcours de soins de ces patients ainsi que des associations, à travers toute la France. Grâce à ce réseau nous avons appelé à participer les patients atteints d'une SEP et leurs proches aidants à travers des communications lors de journées régionales organisées régulièrement à leur attention et celle de leurs proches aidants. Cette démarche nous a permis de toucher toutes les régions de la métropole entre Juin 2017 et Novembre 2018. La carte ci-dessous représente toutes les réunions auxquelles Me E Chrétien, ingénieure chef projet pour cette étude et moi-même avons participées. A chaque fois nous avons réalisé une présentation orale du projet et lancé un appel à participation aux patients et à leurs aidants proches présents. Au-delà de ce mode de recrutement efficace, nous nous sommes appuyés sur les réseaux régionaux SEP, qui ont relayé nos appels à participation via leurs sites internet ou leurs mailing list. De même plusieurs associations de lutte contre la SEP ont relayé cet appel à participer également via leurs moyens numériques ou lors de réunions de leurs membres. Enfin, les équipes de neurologie et de médecine physique et de réadaptation mobilisées, hospitalière comme de ville, ont également relayé notre appel à participation dans leurs services respectifs, notamment lors de consultations avec les patients, lesquels étaient également sollicités pour proposer à leur proche aidant de participer. Ces sollicitations se sont appuyées notamment sur le bulletin de participation ci-dessous :

<p>BULLETIN D'INSCRIPTION</p> <p>Je suis patient :</p> <p>➤ NOM / PRENOM : _____</p> <p>➤ EMAIL : _____</p> <p>➤ NUMERO DE TELEPHONE : _____</p> <p>➤ ANNEE DE VOTRE DIAGNOSTIC ?</p> <p>➤ Qui est votre aidant principal (non professionnel; ex : conjoint, amis, parent...)</p> <p>J'accepte d'être contacté par l'équipe de recherche Fait à _____ le _____</p> <p>Signature _____</p>	<p>Améliorez la prise en charge de la SEP en participant à la recherche</p>  <p>Elaborer un questionnaire pour mesurer la qualité de la prise en charge, du point de vue des patients et de leur aidant principal</p> <p>Informations et participation emilie.chretien@chu-rennes.fr</p> 	<p>Pour vous inscrire, merci de renseigner les informations suivantes !</p> <p>Dans le cadre d'un projet national de recherche, nous élaborons un questionnaire qui explorera votre point de vue et celui de votre aidant principal, sur la qualité de la prise en charge de votre maladie</p> <p>Pour valider ce questionnaire nous avons besoin de vous ! VOUS SOUHAITEZ PARTICIPER ? Merci de nous laisser vos coordonnées</p> <p>➤ Nous vous contacterons au printemps pour solliciter votre participation à l'étape de validation du questionnaire</p> <p>➤ Si vous répondez aux critères d'inclusion de l'étude, nous vous demanderons de remplir un questionnaire (l'un sera dédié aux patients et l'autre aux aidants)</p> <p>➤ Nous analyserons vos réponses de façon anonyme</p>	<p>BULLETIN D'INSCRIPTION</p> <p>Je suis aidant:</p> <p>➤ NOM / PRENOM : _____</p> <p>➤ EMAIL : _____</p> <p>➤ NUMERO DE TELEPHONE : _____</p> <p>➤ Quelle est votre lien avec le patient aidé (ex : conjoint, ami, parent...)</p> <p>J'accepte d'être contacté par l'équipe de recherche Fait à _____ le _____</p> <p>Signature _____</p>
---	--	---	--

Le recueil des données pouvait être réalisé sous format numérique à partir d'un lien individuel transmis à chaque participant ou sous format papier à partir de questionnaires envoyés, à sa demande, à l'adresse postale du participant avec une enveloppe timbrée pour le retour à l'adresse du service de santé publique et d'épidémiologie du CHU de Rennes.

Figure 1 : liste des participations aux rencontres régionales patients – aidants, entre 2017 (en rouge) et 2018 (en jaune) :



Les critères d'inclusion des patients étaient les suivants : patient âgé de 18 ans et plus dont le diagnostic de SEP était confirmé selon les critères de McDonald 2010 (excluant les syndromes cliniquement isolés) et ayant une bonne maîtrise de la langue française (lecture et compréhension)⁷.

Chaque patient inclus s'est engagé par consentement écrit et ne pouvait participer qu'une seule fois.

Au-delà de la version V2 du questionnaire, chacun devait également renseigner :

- des caractéristiques socio-démographiques et liées à la maladie
- des questionnaires de qualité de vie : l'un spécifique à la SEP, MusiQoL^{139,200}
- un questionnaire explorant les stratégies de Coping : Brief Cope²⁰¹
- une échelle d'auto évaluation du handicap : London Scale²⁰²
- des échelles visuelles analogiques pour évaluer les niveaux de fatigue, d'anxiété et de dépression depuis le début de la maladie et au moment même de cette enquête

Les critères d'inclusion des proches aidants étaient les suivants : proche aidant désigné par le patient (répondant lui-même au critère d'inclusion correspondant), âgé de 18 ans et plus, n'étant

pas atteint d'une SEP et ayant une bonne maîtrise de la langue française (lecture et compréhension)

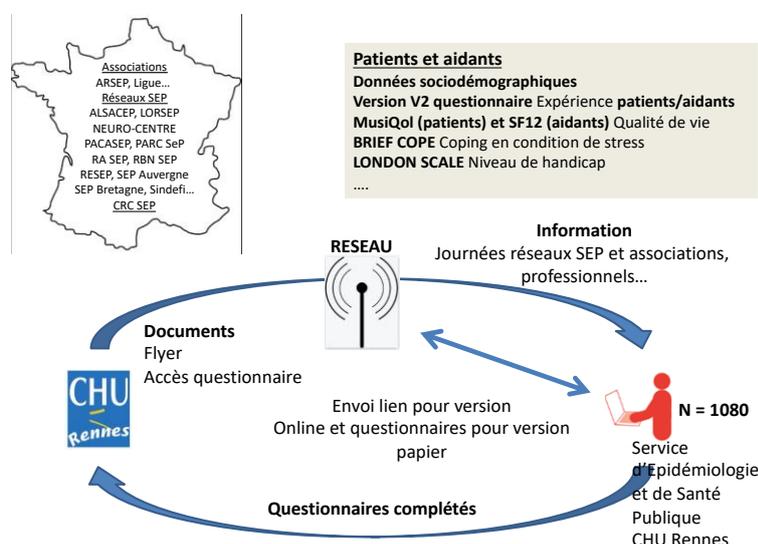
Chaque proche aidant inclus s'est engagé par consentement écrit et ne pouvait participer qu'une seule fois.

Au-delà de la version V2 du questionnaire, chacun devait également renseigner :

- des caractéristiques socio-démographiques et des informations relatives à leur lien de parenté, ou pas, avec l'aidé
- une mesure de la charge de l'aidant : échelle de Zarit²⁰³
- un questionnaire de qualité de vie : SF-36¹³⁶
- un questionnaire explorant les stratégies de Coping : Brief Cope²⁰¹

Toutes les données ainsi renseignées ont été centralisées dans une base sécurisée sur le réseau du service de santé publique et d'épidémiologie du CHU de Rennes.

Schématisation de la diffusion des questionnaires, du recueil et de la centralisation des données :



4.1.3 Résultats :

Plus de 1000 patients et de proches aidants ont été ainsi recrutés pour participer à l'étape de validation du questionnaire. La 1^{ère} version composée de 64 items issus de la phase qualitative a été soumise à un échantillon randomisé de 780 d'entre eux. Elle a été soumise dans une version « patients » aux patients eux-mêmes et dans une version « aidants » aux proches aidants. A l'issue du processus de validation une version composée des 35 mêmes items a été générée pour les patients comme pour les aidants. Musicare comprend 5 dimensions composées chacune de plusieurs questions : l'information à propos de la maladie, l'information à propos des traitements de la maladie, l'information à propos des symptômes et des investigations comme les examens complémentaires, les relations et la communication avec les professionnels de santé, les délais d'accès aux soins, l'accueil dans les lieux de soins. La validité interne de l'outil était satisfaisante. Sa validité externe montrait des associations attendues entre le score du questionnaire et des données socio-démographiques et cliniques pour les patients comme pour les proches aidants. Le questionnaire a également montré une bonne reproductibilité et une bonne sensibilité pour la partie patients.

4.1.4 Discussion :

Notre démarche a permis de valider le 1^{er} questionnaire de mesure de l'expérience de patients atteints d'une SEP mais aussi de leurs proches aidants, vis-à-vis de la qualité de leur parcours de soins, en langue française. D'un point de vue méthodologique, ce questionnaire original répond aux standards psychométriques attendus. Il permet de prendre en compte la dimension globale du parcours de soins de ces patients et non de se focaliser sur un épisode précis comme un séjour hospitalier, comme c'est le cas pour les questionnaires génériques mesurant l'expérience patient, actuellement disponibles. Les 5 dimensions de ce questionnaire rejoignent les résultats d'autres études explorant les besoins des patients et de leurs proches aidants vis-à-vis de leur prise en charge. Concernant les données renseignées par les patients et les proches aidants, elles rejoignent les résultats d'études publiées à savoir, par exemple, que le niveau de fatigue, la sévérité du handicap influencent négativement l'expérience des soins vécus par le patient, ou que plus le fardeau perçu par le proche aidant est important plus son expérience de la qualité du parcours de soins est dégradée. Enfin, le niveau d'expérience vécue vis-à-vis du parcours de soins est corrélé à la qualité de vie des patients comme de leur proche aidant. La validation de cet outil devrait être complétée par des études complémentaires permettant de mobiliser d'autres patients et proches aidants notamment pour valider la sensibilité du questionnaire proches aidants mais aussi pour étudier plus précisément les liens entre le niveau de handicap (EDSS) et le vécu de la qualité des soins par les patients. Dès à présent cet outil pourrait être mobilisé pour disposer de données contributives pour évaluer ou proposer des interventions pour améliorer la qualité des parcours de soins des patients atteints d'une SEP en France.

4.1.5 Article : cf chapitre annexes

4.2 Documenter les interactions potentielles du vécu des individus porteurs d'une SEP et celui de leur proche aidant :

4.2.1 Contexte et objectifs :

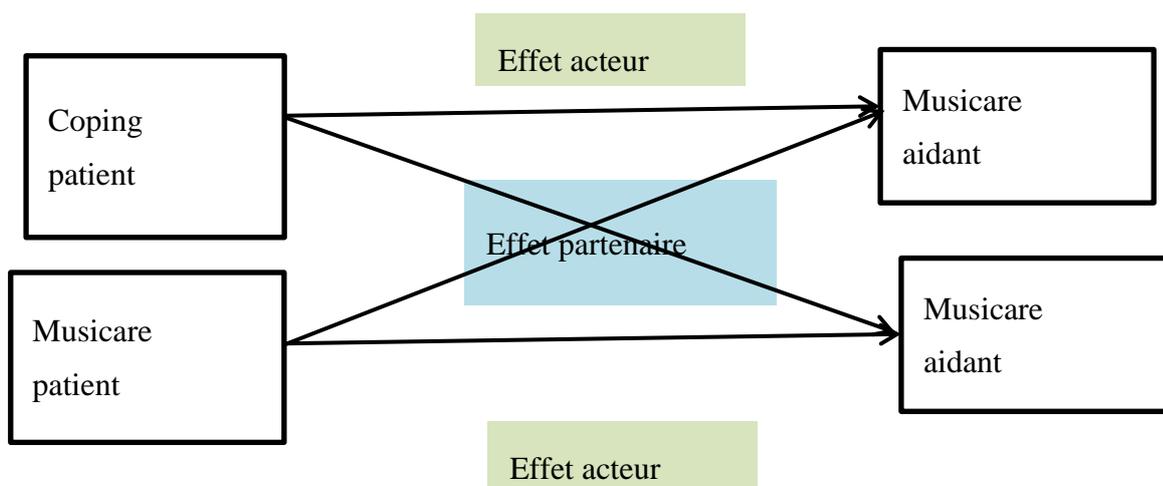
Les conséquences de la SEP sur la vie personnelle, professionnelle et sociale du patient mais aussi sur celle de son entourage, sont à la fois physiques, psychologiques ainsi que cognitives²⁰⁴. Elle entraîne donc des bouleversements importants pour ces patients non seulement lors de l'annonce du diagnostic de la maladie mais aussi tout au long de l'évolution de celle-ci. Ces bouleversements sont également importants pour celui ou celle qui endossera le rôle de proche aidant. Pour y faire face, l'un et l'autre mobiliseront tout au long de leur vie des moyens et des ressources que l'on peut identifier et dont l'étude s'est beaucoup développée depuis une quarantaine d'années, dans le cadre notamment des maladies chroniques. Cette étude s'est particulièrement intéressée à l'interaction entre l'individu et son environnement dans cette façon de faire face aux conséquences de la maladie, selon le modèle de référence de Lazarus et Folkamn²⁰⁵. Au-delà de cette approche individuelle, c'est aussi l'effet du vécu et de sa gestion par l'un des membres du couple patient/proche aidant sur l'autre membre qui est désormais pris en compte²⁰⁶. Le but de ces travaux est d'apporter des éléments d'information originaux pour des propositions adaptées de soutien à chacun de ces membres mais aussi selon une approche commune.

Dans le cadre de la SEP des travaux ont été publiés concernant l'impact des stratégies mobilisées sur la qualité de vie des patients et de leurs proches aidants, mettant en évidence, comme pour d'autres maladies chroniques, le bénéfice des stratégies dites positives basées sur la pensée positive ou sur la résolution des problèmes^{78,207}. A ce jour, à notre connaissance

aucune étude n'a exploré les liens entre la mobilisation de ces stratégies et leur impact sur le vécu et l'expérience des patients et de leurs proches aidants sur la qualité des parcours de soins. C'est ce travail exploratoire que nous avons réalisé en mobilisant les données disponibles dans le cadre de la validation questionnaire MusiCare et en se basant sur l'hypothèse suivante : Est-ce que la nature des stratégies d'adaptation (*coping strategies*) que mobilisent les individus influence leur perception de leur qualité de prise en charge et celle de leur proche ?

4.2.2 Méthodologie :

Nous avons sélectionné l'ensemble des dyades pour lesquelles nous disposons de données complètes pour les questionnaires Musicare, SF12 et Brief Cope. L'approche statistique utilisée a été celle de l'Actor-Partner Interdependence Model (APIM) dont l'approche est basée sur l'hypothèse que deux scores d'individus au sein d'une même dyade sont plus proches que les scores de deux individus n'appartenant pas à la même dyade



4.2.3 Résultats :

Sur les 660 patients et 428 proches aidants de la cohorte MusiCare, 183 dyades patient/proche aidant ont été incluses dans l'analyse.

Concernant l'expérience liée à la qualité de leur parcours de soins le vécu le plus positif des patients, comme de leurs proches aidants, est celui de leurs relations avec les professionnels de santé alors que ceux les moins positifs sont l'accès aux soins et l'accueil dans les lieux de soins. Les proches aidants ont une expérience significativement plus négative de cet accès aux soins que les patients, ainsi que des informations sur les traitements et les examens complémentaires liés à la maladie.

Concernant les stratégies de Coping, celles de recherche de solutions aux problèmes (*problem solving*) et de réinterprétation positive (*positive thinking*) sont les plus mobilisées par les patients comme par les proches aidants.

Concernant les liens entre les stratégies de coping et la qualité des soins perçues, pour les patients, la mobilisation d'une stratégie de type recherche de solution aux problèmes est associée à une meilleure expérience concernant les informations qu'ils reçoivent à propos de leurs traitements et de leurs examens complémentaires et concernant leurs relations avec les professionnels de santé avec lesquels ils sont en contact au cours de leur parcours de soins. La mobilisation d'une stratégie de type réinterprétation positive est quant à elle associée à une meilleure expérience vis-à-vis de l'accueil dans les lieux de soins. Pour les proches aidants, la

mobilisation d'une stratégie de type réinterprétation positive est associée à une meilleure expérience pour toutes les dimensions du questionnaire MusiCare sauf celle liée à l'accueil dans les lieux de soins. De même, la mobilisation d'une stratégie de type recherche de solutions aux problèmes est associée à une meilleure expérience vis à vis des informations qui leurs sont transmises sur la maladie en général ainsi que de leurs relations avec les professionnels de santé. Par ailleurs, lorsque les patients mobilisent une stratégie de type réinterprétation positive, leurs proches aidants ont une meilleure expérience pour 3 des 5 dimensions du questionnaire MusiCare (informations générales sur la maladie, relations avec les professionnels de santé, délais d'accès aux soins). De même, lorsque les proches aidants mobilisent ce type de stratégie, les patients ont une meilleure expérience de leurs relations avec les professionnels de santé.

En intégrant le modèle APIM, la plupart des résultats ci-dessus se confirment, qu'ils soient ajustés sur l'âge et le sexe ou pas. Concernant les interactions réciproques entre les patients et les aidants, en intégrant ce modèle APIM, nous retrouvons 2 effets : la mobilisation par les patients de stratégies de recherche de résolutions aux problèmes et de réinterprétation positive sont associés à une meilleure expérience par les proches aidants, des relations avec les professionnels de santé.

4.2.4 Discussion

Le premier constat de cette étude originale est que patients et proches aidants mobilisent les mêmes stratégies d'adaptation à savoir, en 1er lieu, la recherche de solutions aux problèmes et la réinterprétation positive, stratégies considérées comme les plus adaptées pour faire face au stress dû à une maladie, notamment une pathologie chronique comme la SEP. Ces résultats rejoignent les constats d'études antérieures décrivant les stratégies de coping mobilisées par les patients atteints d'une SEP et par les proches aidants de ces patients, même si les observations conjointes des couples patients- proches aidants sont rares^{90,208}.

Nous avons également pu observer que la mobilisation de ces stratégies positives étaient associées à un meilleur vécu et une meilleure expérience de la qualité du parcours de soins. Pour les patients, c'est le cas notamment pour l'information concernant leurs traitements et leurs examens complémentaires, leurs relations avec les professionnels de santé et l'accueil dans les lieux de soins alors que pour les proches aidants c'est le cas pour toutes les dimensions de MusiCare sauf pour l'accueil dans les lieux de soins.

L'analyse de type APIM a permis de mettre en évidence des interactions au sein de la dyade patient-proche aidant puisque la mobilisation par les patients de stratégies de recherche de résolutions aux problèmes et de réinterprétation positive était associée à une meilleure expérience, par les proches aidants, des relations avec les professionnels de santé. Notre hypothèse que la mobilisation de ces stratégies aurait également un impact positif sur l'expérience de la qualité des soins des dyades patient atteint d'une SEP – proche aidant semble donc une hypothèse probable.

On peut donc déduire de ces lères données d'observation que les interventions que l'on proposerait aux patients et à leurs proches aidants pour améliorer la gestion de leur stress face à la maladie, pourraient avoir un impact positif non seulement sur leur qualité de vie mais aussi sur leur expérience de la qualité de leur parcours de soins. A ce titre, des propositions de programme de soutien à l'intention des couples existent, notamment dans le contexte d'un cancer touchant l'un des membres du couple²⁰⁹. Elles sont cependant, à notre connaissance, peu mobilisées à ce jour dans le cadre d'une pathologie comme la SEP, les propositions de soutien existantes ciblant surtout le patient. Il y a donc là une piste concrète de réflexion et d'actions d'amélioration de la prise en charge de ces patients.

Les résultats issus de cette étude exploratoire doivent être confirmés par d'autres études avec un design plus adapté pour étudier les liens de causalité entre stratégies de Coping et expérience de la qualité des soins.

4.2.5 Article : cf chapitre annexes

5 La mesure de la qualité des parcours de soins des patients atteints d'une SEP en France : le point de vue des professionnels de santé :

5.1 Développer des indicateurs spécifiques pour la mesure de la qualité des parcours de soins des patients atteints d'une SEP en France :

5.1.1 Contexte et objectifs :

Les parcours de soins des patients atteints d'une pathologie chronique comme la SEP dans le contexte de systèmes de soins comme celui de la France, est complexe. Il mobilise de nombreux professionnels de santé, de métiers et de type d'exercice différents. Depuis plusieurs années, l'avancée des connaissances dans les domaines diagnostiques et thérapeutiques pour cette pathologie a permis d'élaborer des recommandations de bonne pratique accessible à tous ces professionnels. Cependant, comme pour d'autres pathologies chroniques, leur appropriation en pratique n'est pas toujours effective ce qui peut induire des manques, des délais voire de réels dysfonctionnements dans la prise en charge des patients, impactant la qualité des soins. Pour évaluer ce niveau d'appropriation des recommandations de bonne pratique, parmi les outils reconnus, les indicateurs qualité sont des outils pertinents dans le cadre de parcours de soins tels que ceux des patients atteints d'une SEP. Or, à ce jour, en France, aucun outil de ce type développé selon les standards méthodologiques reconnus, n'est disponible. La seule expérience publiée aux USA en 2010 n'est pas directement transposable du fait notamment de différences marquées entre les organisations et le financement des soins dans nos 2 pays.

Le but de ce travail était donc de développer des indicateurs qualité, du point de vue des professionnels de santé, pour contribuer à l'évaluation de la qualité des parcours de soins des patients atteints d'une SEP en France.

5.1.2 Méthodologie :

Le développement de ces indicateurs s'est appuyé sur la méthode décrite dans les années 1980 par la Rand Corporation et l'université de Californie (Los Angeles) : the Rand/UCLA Appropriateness Method (RAM)²¹⁰. Nous avons mobilisé 25 professionnels impliqués dans la prise en charge de patients atteints d'une SEP dans plusieurs régions françaises. Selon cette méthode, dont le principe consiste à faire émerger le consensus entre les experts, ceux-ci ont sélectionné, à partir d'une liste d'indicateurs établis sur la base des données de la littérature, un set d'indicateurs en 3 étapes de cotation individuelle et de discussion interactive.

En Septembre 2010, l'équipe projet a sollicité 1 neurologue et 1 médecin de médecine physique et de réadaptation du CHU de Rennes pour contribuer à l'analyse des données de la littérature dans le domaine de l'évaluation de la qualité des parcours de soins des patients atteints d'une SEP. A partir de cette analyse bibliographique et sur la base des recommandations existantes, une 1^{ère} liste d'indicateurs a été établie. Elle était constituée de 72 indicateurs couvrant l'intégralité du parcours de soins des patients atteints d'une SEP en France depuis le diagnostic de la maladie jusqu'au suivi lors d'une aggravation significative du handicap. Fin 2010 – début 2011 un groupe d'une dizaine de professionnels impliqués dans la prise en charge de patients atteints d'une SEP (neurologues hospitaliers, libéraux et médecins rééducateurs, IDE) a été sollicité en Bretagne afin de discuter de cette 1^{ère} proposition d'indicateurs de pratiques. A l'issue de 2 réunions d'échanges sur la pertinence de ces propositions 54 indicateurs ont été

retenus et donc 14 ont été supprimés parce que considérés comme insuffisamment valides sur le plan scientifique, non adaptés au contexte français ou redondants vis-à-vis d'un autre des indicateurs proposés. Ces 54 indicateurs ont été classés selon 8 domaines différents relatifs à la prise en charge des patients atteints d'une SEP : la prise en charge par l'équipe de neurologie et particulièrement le neurologue, l'accès aux soins et particulièrement leurs délais, les indications et la réalisation des IRM, la prise en charge des poussées, l'initiation et le suivi des traitements par immunomodulateurs, l'initiation et le suivi des traitements par immunosuppresseurs et la prise en charge par l'équipe de médecine physique et de réadaptation (cf table 1 de l'article correspondant). La formulation de chaque indicateur était particulièrement précise afin de comprendre quelles données, issues pour l'essentiel des dossiers des patients, devaient être recueillies afin de calculer l'indicateur pour chaque patient et ainsi de disposer de résultats pour une population cible (à l'échelle d'un service, d'un territoire...).

D'Avril à Septembre 2011, une quinzaine de professionnels supplémentaires experts du domaine et appartenant à trois régions (Lorraine, Pays de la Loire et Bretagne) ont été sollicités pour participer à l'étape de validation du set d'indicateurs selon la méthode Rand/UCLA Appropriateness Method. L'objectif principal de cette méthode est d'aboutir à une décision consensuelle entre les experts, indicateur par indicateur. Cette décision s'appuie dans un premier temps sur une évaluation individuelle par chaque expert, basée avant tout sur la pertinence de l'indicateur selon les recommandations et les données scientifiques disponibles dans le domaine. Elle s'appuie ensuite sur l'analyse de la convergence de ces cotations entre tous les experts, indicateur par indicateur, et, pour les indicateurs pour lesquels leurs avis divergent, sur des temps collectifs de présentation des arguments de chacun et de discussion. A l'issue de ce temps d'échange, une nouvelle cotation individuelle est organisée à l'issue de laquelle les indicateurs sont validés (dès lors que les cotations sont convergentes) ou pas. La cotation de chaque indicateur s'appuie sur une échelle de type Likert à 9 points (1 pour totalement non pertinent et 9 pour totalement pertinent) pour déterminer la pertinence scientifique et la définition de l'indicateur, ainsi qu'une cotation du niveau de preuve associée de A (haut niveau de preuve) à C (niveau de preuve insuffisant). Les experts peuvent par ailleurs partager tout commentaire utile lors de cette cotation individuelle, par écrit. Pour le détail de des calculs, le lecteur pourra se référer au paragraphe « statistiques » de l'article correspondant.

Sur les 54 indicateurs cotés par les experts, 31 ont été retenus d'emblée, 23 devaient être discutés et aucun n'a été supprimé.

Nous avons organisé la réunion pour la discussion interactive entre experts des indicateurs à discuter en Novembre 2011, par visioconférence pour des raisons de faisabilité au regard de leurs contraintes professionnelles. Cette discussion a permis de reformuler, d'ajuster la définition de ces indicateurs de façon consensuelle.

Selon la méthode, nous avons soumis, de Janvier à Avril 2012 aux mêmes experts une liste actualisée de 24 indicateurs (l'un des indicateurs initiaux avait été scindé en 2 nouveaux indicateurs) qu'ils ont cotés selon les mêmes principes et la même méthode que la cotation initiale des 54 indicateurs proposés. A l'issue de ce 2nd tour nous avons appliqué les règles de calcul de la méthode et constaté que les experts considéraient alors que 17 des indicateurs étaient pertinents et 7 ne l'étaient pas, aucun n'étant à discuter.

Au total nous avons donc établi un set de 48 indicateurs validés par des professionnels experts du domaine et tous définis selon le modèle présenté ci-dessous. Nous les avons classés selon 7 domaines correspondant au parcours de soins des patients atteints d'une SEP en France : suivi neurologique et ophtalmologique, accès aux professionnels de santé et aux soins, prise en charge en imagerie, prise en charge des poussés, initiation et suivi des traitements par immunomodulateurs, initiation et suivi des traitements par immunosuppresseurs, prise en charge en médecine physique et de réadaptation (cf table 2 de l'article correspondant).

5.1.3 Résultats :

A partir de l'analyse des recommandations disponibles et des données de la littérature, 54 indicateurs couvrant le parcours de soins de patients atteints d'une SEP, depuis le diagnostic jusqu'à la prise en charge en rééducation, en passant par la prise en charge des poussées et la mise en route d'un traitement de fond, ont été soumis au groupe d'experts. A l'issue des 3 étapes du processus de cotation, ils ont validé 48 indicateurs qualité se déclinant selon les domaines suivants : évolution de la maladie, accès aux soins, imagerie, poussées, traitements de fond, rééducation et réadaptation.

Ces indicateurs font référence à des pratiques et des organisations impliquant l'ensemble des professionnels de santé intervenant au cours du parcours de soins de ces patients : neurologie, radiologie, ophtalmologie, psychologie, urologie, réadaptation-rééducation, kinésithérapie. Ils concernent donc des enjeux liés aux pratiques mêmes de ces professionnels mais aussi à leur coordination et aux délais d'accès aux soins. Chaque indicateur est identifié selon une fiche type comme ci-dessous :

<p>Le délai d'accès à une consultation neurologique après les premiers symptômes évocateurs de SEP</p> <p>Définition : cet indicateur évalue le délai entre la survenue des premiers symptômes évocateurs de SEP et la première consultation avec un neurologue.</p>		<p>Indicateur n° 1</p>
Type d'indicateur	Délai (jours)	
Critères d'inclusion	Tous les patients inclus dans l'étude IRSEP ayant eu une consultation avec un neurologue à l'issue des 1 ^{ers} symptômes	
Eléments nécessaires au recueil et/ou à l'interprétation	<ul style="list-style-type: none"> - Date des premiers symptômes - Date de la première consultation avec un neurologue 	
Période de validité de l'indicateur	De 2000 à 2010	
Recommandations	<ul style="list-style-type: none"> - Conférence de consensus « la sclérose en plaques », Juin 2001 - Livre blanc de la Sclérose en plaques, Avril 2006 	

	<ul style="list-style-type: none"> - Haute Autorité de Santé (HAS), Guide médecin Affection de Longue Durée (ALD) « Sclérose en plaques », Septembre 2006
--	--

5.1.4 Discussion :

Cette démarche permet de disposer du 1^{er} set d'indicateurs qualité développés selon une méthode reconnue et couvrant les principales étapes du parcours de soins de patients atteints d'une SEP et pris en charge actuellement dans le système de soins français. Ces outils, en association avec d'autres outils correspondant d'une part à des résultats cliniques et d'autre part à des retours d'expérience des patients mais aussi de leurs proches aidants, pourront contribuer à évaluer, dans notre pays, la qualité globale de la prise en charge de ces patients. Au-delà de la pertinence scientifique de chaque indicateur, critère principal de la méthode de validation que nous avons mobilisée, la faisabilité de son recueil et sa pertinence « en vie réelle » doivent être testées parmi les critères d'appropriation par les professionnels dans une démarche d'évaluation de leurs pratiques et de leurs organisations. Cette étape a été intégrée au travail de recherche et fait l'objet de l'article suivant.

Par ailleurs, pour une approche globale de l'évaluation des parcours de soins des patients atteints d'une SEP en France, cette approche par les indicateurs qualité doit être complémentaire de celle visant à recueillir l'expérience des patients et de leurs aidants proches. Pour cela il est nécessaire de s'appuyer sur des outils validés, objet d'une autre partie de notre travail de recherche ayant abouti à la publication du questionnaire Musicare.

5.1.5 Article : cf chapitre annexes

5.2 Evaluer la qualité des parcours de soins : mobilisation des indicateurs qualités développées au sein d'une cohorte de 700 patients atteints d'une SEP, en France :

5.2.1 Contexte et objectifs :

L'objectif principal de ce travail était de mobiliser le set de 48 indicateurs validés par un groupe d'experts et selon la méthode RAM de la Rand Corporation et de l'université de Californie, afin de tester la faisabilité du recueil des données nécessaires à leur calcul et d'éprouver leur pertinence en pratique réelle. Cette étape fait partie du processus de validation des indicateurs qualité et elle contribue à l'appropriation de ces indicateurs par les professionnels de santé concernés dans le cadre par exemple de démarches d'évaluation des pratiques professionnelles.

Au-delà, ce recueil de données et le calcul de chaque indicateur, pour une cohorte de 700 patients, permettaient de disposer d'informations inédites à ce jour en France sur le niveau d'appropriation des recommandations de pratiques dans le domaine de la prise en charge des patients atteints d'une SEP, et ainsi de contribuer au débat sur la qualité des parcours de soins de ces patients et les enjeux de leur amélioration.

5.2.2 Méthodologie :

Pour cette partie de notre projet de recherche, nous avons inclus 699 patients dont les 1ers symptômes de la maladie se sont déclarés entre le 1^{er} Janvier 2000 et le 31 Décembre 2001, dans 3 régions françaises (Bretagne, Lorraine, Pays de la Loire). Le choix de ces 3 régions s'est appuyé sur des critères de faisabilité et sur les contacts professionnels que nous avons établis dans le cadre du travail réalisé sur les indicateurs qualité du point de vue des professionnels (cf article précédent).

Nous avons donc dû, dans un 1^{er} temps, reconstituer cette cohorte sur la base de 2 sources principales. Pour la Bretagne et les Pays de la Loire, nous nous sommes appuyés sur les résultats de l'enquête d'incidence menée par le service de santé publique (Dr J Yaouanq), le service de neurologie du CHU de Rennes (Pr G Edan) et l'Observatoire Régional de la Santé de Bretagne (Dr I Tron). Cette enquête avait pour objectif de déterminer l'incidence de la SEP dans la population bretonne et des Pays de la Loire en identifiant tous les nouveaux cas diagnostiqués entre le 1^{er} Janvier 2000 et le 31 Décembre 2001. Elle s'est appuyée sur les réseaux des professionnels (cliniciens, radiologues, biologistes...) et a permis de reconstituer une cohorte en base populationnelle pour la Bretagne et pour les 2 principaux départements des Pays de la Loire (Loire Atlantique et Maine et Loire). Pour la Lorraine, nous avons mobilisé le registre lorrain des Scléroses en Plaques. Le groupe pilote de notre projet a validé les critères d'inclusion des patients et donc la reconstitution de cette cohorte avec les responsables de l'enquête d'incidence et du registre.

Puis, pour chaque patient inclus, nous avons dû rechercher les données nécessaires au calcul de chaque indicateur qualité dans son dossier médical, hospitalier (service de neurologie et de rééducation fonctionnelle) et en ville (cabinet de neurologie), cela sur une durée de 10 années d'évolution de la maladie. En amont de ce travail de recueil, via les réseaux SEP régionaux, nous avons informé et sollicité tous les services hospitaliers de neurologie, de médecine physique et de réadaptation et de soins de suite et de réadaptation, ainsi que les neurologues de ville de ces 3 régions, pour informer leurs patients de cette étude (selon un courrier d'information type) et pour accéder (sauf refus du patient) aux données de leurs dossiers. Cette étape nous a également permis d'identifier des patients décédés, des patients ayant déménagé et des patients perdus de vue par ces professionnels. En ce qui concerne les patients lorrains enregistrés dans le registre lorrain des SEP, une partie des données étaient intégrées à la base de données du registre et une autre partie a fait l'objet d'un recueil selon les mêmes conditions qu'en Bretagne et dans les Pays de la Loire. Nous avons réalisé ce recueil de 2012 à 2013, en association avec des attachés de recherche clinique.

Nous avons ainsi reconstitué l'ensemble du parcours de soins de ces 699 patients sur une durée d'évolution de la maladie de 10 ans depuis les 1ers symptômes.

A l'issue du recueil une base unique a été constituée et les données analysées dans le service de santé publique du CHU de Rennes en collaboration avec une biostatisticienne (Me S Hamonic).

5.2.3 Résultats :

Les principales caractéristiques socio-démographiques des patients composant cette cohorte étaient comparables à celles décrites dans la littérature et notamment à celle publiées par l'OFSEP. De même, les caractéristiques de la maladie en termes de forme lors du diagnostic et d'évolution au cours de la maladie (passage à la forme secondairement progressive) étaient également comparables à celle décrites dans la littérature pour des patients présentant les mêmes caractéristiques socio-démographiques.

Les données recueillies ont permis de calculer 36 des 48 indicateurs qualité validés par le groupe d'experts, sur la période de 10 années de suivi pour plus de 80% des patients inclus

(587/699). C'est surtout le défaut de traçabilité et le caractère imprécis et hétérogène de certaines données qui ont rendu impossible le calcul de certains indicateurs. Concernant les patients, le défaut de suivi d'une partie d'entre eux sur l'intégralité des 10 années était dû à leur déménagement dans une autre région sans identification des nouveaux professionnels de santé les prenant en charge (28 patients) ou à leur décès (13 patients) et 64 étaient perdus de vue.

Concernant l'accès aux soins et le suivi médical des patients, seuls 30% des patients présentant une forme rémittente avaient pu bénéficier d'une consultation avec un neurologue dans les 3 mois après l'apparition des 1ers symptômes. De même l'accès à un ophtalmologue dans les délais recommandés en cas de névrite optique rétrobulbaire, n'était effectif que pour 40% des patients concernés.

Concernant la prise en charge des poussées, les résultats des indicateurs illustraient des organisations particulièrement effectives puisque dans 9 cas sur 10 la poussée avait pu être confirmée par un neurologue et le délai d'accès au traitement par corticoïdes à forte dose par voie IV était de 9 jours et moins après l'apparition des symptômes pour 50% de ces cas.

Concernant l'accès à l'imagerie, une minorité des patients pouvaient disposer d'une IRM cérébrale réalisée conformément aux recommandations et dans des délais également recommandés à l'issue des 1ers symptômes de la maladie.

L'accès aux traitements de fond de la maladie est effectif pour ces patients en France, puisque ces traitements avaient été proposés à plus de 8 patients sur 10 présentant une forme rémittente. Par contre les conditions du suivi de ces traitements semblaient plus aléatoires, même s'il est probable qu'une partie des examens complémentaires (biologiques notamment) correspondant à ce suivi aient été réalisés en ville et leurs résultats conservés par les patients eux-mêmes et non insérés dans leur dossier médical hospitalier en particulier.

Concernant les soins de rééducation et réadaptation fonctionnelle, moins de 4 patients sur 10 parmi ceux justifiant l'accès à ces avis et soins spécialisés en avaient bénéficié. De même la prise en charge des troubles urinaires liés à la maladie n'était effective que pour une minorité des patients concernés.

5.2.4 Discussion :

Cette étape de test des indicateurs a permis de confirmer qu'une majorité d'entre eux pouvaient être mobilisés dans le cadre du suivi de la qualité de la prise en charge de patients sur une période significative de leur parcours de soins à savoir 10 ans après l'apparition des 1ers symptômes de la maladie. Les résultats mettent notamment en évidence des marges d'amélioration lors d'étapes importantes de ces parcours de soins comme celle du diagnostic ou celles d'accès à des soins spécialisés comme ceux d'ophtalmologie ou de réadaptation-rééducation. Cette 1^{ère} expérience doit être poursuivie en lien avec les professionnels experts du domaine afin de définir avec eux l'actualisation de ce set d'indicateurs au regard des résultats de cette étude mais aussi de l'évolution des recommandations et des données de la littérature. Le but de cette démarche serait de mettre à disposition et d'inciter les équipes à recueillir périodiquement plusieurs indicateurs afin de disposer d'informations à l'échelle nationale et régionale, contribuant à identifier des axes d'amélioration et ainsi engager des actions ciblées pour la prise en charge des patients atteints d'une SEP en France. Si les résultats de cette 1^{ère} expérience permettent d'identifier certaines pistes, ils méritent d'être confirmés pour partie auprès d'un échantillon plus large de patients. De plus, cet objectif devra tenir compte de la faisabilité du recueil des données nécessaires au calcul de chaque indicateur. Il semble en effet irréaliste de penser qu'un retour systématique à la source d'information soit nécessaire dans les mêmes conditions que celles de notre étude. C'est pourquoi il faudrait envisager que ce recueil puisse être intégré à celui déjà systématisé dans de nombreux centres, dans la cadre du projet

EDMUS. Ce sera également l'un des enjeux du travail à mener les suites de cette étude en lien avec les experts du domaine et notamment la Société Francophone de la SEP.

5.2.5 Article : cf chapitre annexes

6 Perspectives

L'ensemble des résultats de ces travaux et de ces publications seront partagés et discutés avec les équipes françaises de neurologie et de médecine physique et réadaptation les plus impliquées dans la prise en charge des patients atteints d'une SEP, comme avec les associations représentant et impliquant ces patients et leurs proches aidants. Le but de cette démarche est de se projeter pour engager de nouveaux travaux de recherche sur la qualité des parcours de soins des patients atteints d'une SEP en France, selon une démarche de partenariat professionnels de santé, patients et proches aidants.

Parallèlement, d'autres démarches ont été engagées afin d'intégrer les outils élaborés dans le cadre de ce travail (MusiCare, indicateurs de pratique), parmi les critères d'évaluation ou de jugement de nouvelles enquêtes ou de nouvelles études cliniques mises en place récemment. Ces démarches et leurs résultats devraient permettre de développer leur prise en compte et particulièrement celle de l'expérience des patients et de leurs aidants proches parmi d'autres critères, notamment cliniques, de ces études, et pourront contribuer à ajuster et faire évoluer le contenu des outils eux-mêmes. En effet, concernant les indicateurs de pratique, les recommandations de bonnes pratiques comme les organisations relatives au parcours de soins de ces patients mais aussi la réglementation et le financement des soins évoluent. Ces évolutions entraînent alors l'obsolescence de certains indicateurs et appellent à l'élaboration de nouveaux. C'est d'ailleurs le sens des propositions incluses dans la discussion de l'article « Evaluation of the quality of the care pathway for patients with multiple sclerosis in France : results of an original study of a cohort of 700 patients » publié par la Revue Neurologique. Concernant l'outil MusiCare, son usage dans d'autres contextes, par d'autres patients et proches aidants que ceux mobilisés par l'étude ayant abouti à sa validation et sa publication, pourrait mettre en évidence des manquements quant à des items relatifs à la mesure de la qualité des soins du point de vue de ces patients et de ces proches aidants. Il devrait aussi contribuer à la réflexion visant au développement d'une approche dite adaptative de l'outil.

6.1 Les enjeux métriques et transculturels des outils développés :

Au cours des dernières années, des approches statistiques ont permis d'élaborer des questionnaires à format adaptatif (CAT computerised adaptive testing), en opposition à des questionnaires à contenu fixe et homogène pour tous^{211,212,213}. L'idée sous-jacente est de bénéficier d'une mesure fiable tout en renseignant un nombre minimal d'items et donc en réduisant, pour le répondant, le temps passé et l'éventuelle fatigue à renseigner les questions. En pratique, le principe est le suivant :

- A partir d'un set d'items, le répondant se voit proposer un 1er item à renseigner
- Le second item qui lui est alors proposé est conditionné par une prise en compte à la fois de la réponse qu'il a faite au 1er item mais également de certaines de ses caractéristiques propres (socio-démographiques, liées à la maladie et son évolution)
- Le processus de remplissage du questionnaire s'interrompt lorsque l'information déjà fournie, par les réponses aux questions précédentes, et analysée en direct suffit à apporter une mesure valide du concept mesuré

Dans ce cadre, et en lien avec des partenariats regroupant associations de patients et de leur entourage et sociétés savantes professionnelles (dont notamment la société francophone de la SEP), il est prévu de travailler une version de CAT-Musicare qui s'avérerait très utile pour les

patients présentant des niveaux de fatigue importants, mais également des atteintes cognitives et-ou motrices mais aussi dans des contextes de pratiques réelles telles que les consultations et les hospitalisations de jour notamment.

L'équipe du CERESS dispose de cette expertise et a déjà conduit ce type de travaux pour des questionnaires de qualité de vie de patients présentant une SEP, mais également dans d'autres champs pathologiques^{214,215,216}.

6.2 S'appuyer sur le vécu et l'expérience des patients et de leurs proches aidants vis-à-vis de la qualité de leurs parcours de soins pour engager de nouveaux objectifs de recherche dans ce domaine :

6.2.1 Une enquête nationale pour recueillir l'expérience des patients et de leurs proches aidants vis-à-vis de la qualité de leurs parcours de soins, en France en 2021 :

L'évaluation de la qualité des parcours de soins perçue actuellement par les patients et leurs proches aidants en France, permettra d'en établir un état des lieux original, d'en valoriser les points forts, d'identifier des besoins non couverts et ainsi de proposer des axes d'amélioration des organisations et des pratiques.

En 2015, une équipe anglaise soulignait déjà le besoin de ce type de recherche, dans la conclusion d'un travail de synthèse qu'elle avait réalisé sur les études qualitatives publiées relatives à l'expérience de patients atteints d'une SEP dans ce pays²¹⁷. Cette équipe n'identifiait alors que 5 publications dans ce domaine, ciblant surtout l'étape du diagnostic de la maladie, et les considérait de qualité plutôt médiocre. Dans leurs conclusions, les auteurs indiquaient que les recherches futures devaient contribuer à fournir des connaissances sur l'expérience des soins par les patients tout au long de leur parcours de soins.

Depuis, l'analyse de la littérature permet d'identifier quelques rares enquêtes dont les objectifs et les résultats peuvent contribuer à cet objectif. Elles ont été réalisées pour la plupart aux USA et en Europe, et leur but est de recueillir l'expérience des patients atteints d'une SEP vis-à-vis de symptômes liés à leur maladie, des traitements de fond de la maladie ou encore de leurs relations avec les professionnels de santé^{218,219,220}. Celle incluant le plus grand nombre de patients (plus de 5000) est celle réalisée exclusivement aux Etats Unis, par voie numérique, et portée par une entreprise américaine de droit privée, Health Union. La 8^{ème} édition de cette enquête a été réalisée en 2020²²¹. Sur la base des informations et des résultats accessibles, on constate qu'elle interroge les patients surtout sur la nature de leurs symptômes et la façon dont eux-mêmes y font face ainsi que leur implication dans leur prise en charge thérapeutique. En fait, aucune enquête publiée ne vise formellement à évaluer l'expérience des patients atteints d'une SEP dans une zone géographique donnée (pays, région, territoire de santé...) vis-à-vis de la qualité des principales étapes de leur parcours de soins (diagnostic, prise en charge des poussées, mise en route et suivi d'un traitement de fond...) et en s'appuyant sur un outil standardisé.

Concernant les proches aidants, les enquêtes publiées les ciblant visent quasi exclusivement à évaluer l'impact de leur engagement auprès des patients sur leur qualité de vie et aucune n'évalue leur expérience vis-à-vis de la qualité du parcours de soins de ces patients.

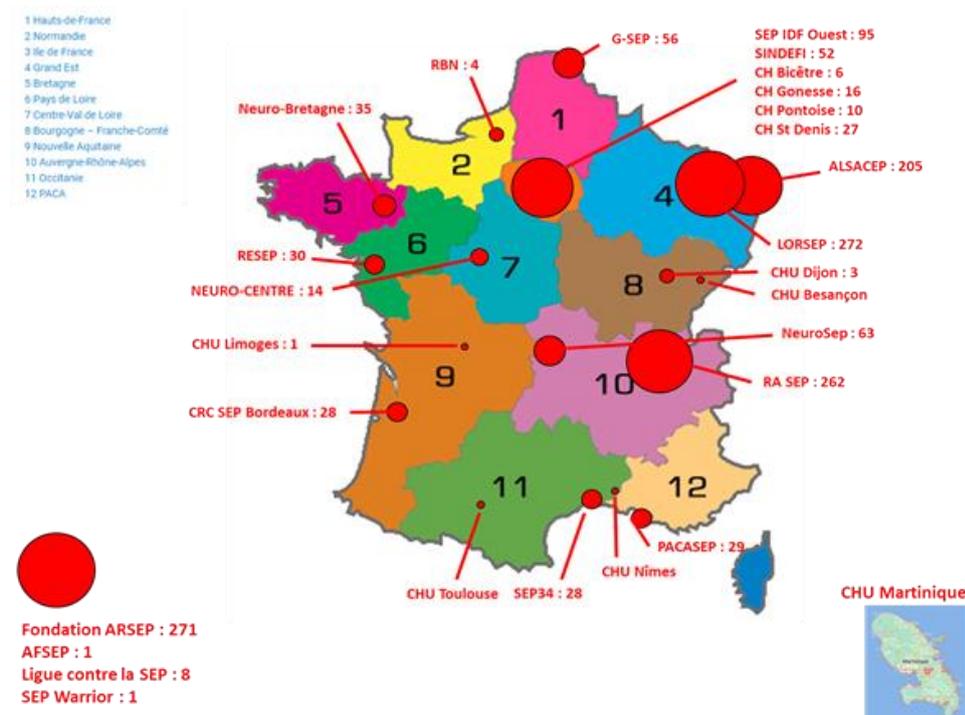
Aucune donnée de ce type n'est donc actuellement disponible pour la France.

L'enquête que nous avons engagée pour les patients français et leurs proches aidants s'intitule EPISEP. Il s'agit d'une enquête nationale transversale, s'appuyant sur l'outil Musicare et dont la période de recueil des données s'est déroulée de Juin à Octobre 2021.

Le protocole de cette étude a été soumis au comité d'éthique du CHU de Rennes qui a donné son accord le 20/08/2020. Ce protocole est détaillé en annexe.

Début Décembre 2021, un peu plus de 1800 patients et 300 proches aidants avaient répondu à ce questionnaire, répartis sur toute la France.

Graphique 2 :



L'analyse des données sera réalisée par le service de santé publique et d'épidémiologie du CHU de Rennes et les résultats feront l'objet d'une valorisation scientifique au cours du 1^{er} semestre 2022.

6.2.2 Engager une pratique collaborative patients – proches aidants – professionnels pour identifier de nouveaux objectifs de recherche pour améliorer la qualité des parcours de soins des patients atteints d'une SEP en France :

Les enjeux dans ce domaine, comme celui des maladies chroniques en général, restent considérables dans le cadre de nos systèmes de soins.

L'engagement du projet de recherche à l'origine du travail présenté dans ce manuscrit était de prendre en compte le point de vue des patients et de leurs proches aidants, à côté de celui des professionnels, pour évaluer la qualité des parcours de soins des patients atteints d'une SEP en France. Si cette approche est aujourd'hui mieux prise en compte, l'inclusion des patients et de leurs proches aidants pour définir les priorités et les objectifs d'un programme et de projets de recherche dans ce domaine reste encore à concrétiser. Cette démarche doit d'abord permettre de mieux identifier les besoins des patients, mais aussi ceux de leurs proches aidants, pour l'amélioration de la qualité de leur parcours de soins. L'identification et la priorisation de ces besoins sera déterminante pour engager de nouveaux projets dans ce domaine. En formalisant cette démarche avant l'engagement de tout nouveau projet nous faisons l'hypothèse que les

priorités de recherche ainsi identifiées seront différentes de celles que les équipes des professionnels impliqués dans la prise en charge de ces patients en France auraient, seules, définies.

Pour concrétiser notre démarche nous nous appuyerons sur l'expérience et les collaborations acquises depuis plusieurs années avec d'une part les équipes françaises de neurologie et de médecine physique et de réadaptation impliquées dans la prise en charge de ces patients et d'autre part plusieurs associations de patients, notamment l'ARSEP et la ligue française contre la SEP, mais aussi plus largement l'association France Asso Santé. Nous avons répondu à un appel à soutien de l'EHESP en Mai 2021 pour l'organisation d'un évènement scientifique, en collaboration avec Alexandre Berkese, conseiller scientifique à la Direction Collaboration et Partenariat Patient (DCPP) de la faculté de médecine de l'Université de Montréal et conseiller stratégique à l'École du partenariat du Centre d'Excellence sur le Partenariat avec les patients et le Public créée en 2015 à l'initiative de l'université de Montréal. A. Berkese travaille en France depuis 2019 au sein de la structure régionale d'appui à la qualité des soins et à la sécurité des patients de Bretagne (CAPPS Bretagne), en tant que chargé de mission partenariat patients – professionnels de santé. Cette SRA est proche du service de santé publique du CHU de Rennes et je suis moi-même un des médecins intervenant régulièrement dans cette structure. Nous étions tous les 2 destinataires de cet appel à candidatures de l'EHESP car A Berkese et moi-même avons un contrat de professeurs affiliés avec l'école, rattachés à l'institut du management.

Nous avons donc soumis un dossier de candidature à cet appel à projet de l'EHESP pour l'organisation d'un séminaire d'une journée et intitulé « Identifier les besoins des patients atteints d'une SEP et de leurs proches aidants pour améliorer la qualité de leur parcours de soins : journée pour l'engagement d'une démarche et de projets de recherche ciblés en partenariat patients/professionnels » (cf Annexes)

Cette journée aura lieu le 8 Avril 2022 à Rennes. Nous mobiliserons une trentaine de personnes pour ce séminaire de travail dont une quinzaine de patients ressources atteints d'une SEP et de proches aidants de patients atteints d'une SEP, ainsi qu'une quinzaine de professionnels de santé exerçant auprès de ces patients.

Pour préparer cette réflexion collective, nous partagerons avec chacun, en amont de la journée, l'analyse de la bibliographie et des connaissances actuellement à notre disponibilité dans le domaine de l'évaluation de la qualité du parcours de soins des patients atteints d'une SEP comme dans celui de l'implication des patients et de leurs proches aidants dans ces démarches. Nous accompagnerons l'appropriation de ces données particulièrement pour les patients et les proches aidants, souvent moins familiers de ce type d'approche et de synthèse scientifique, ainsi que celles relatives à la définition d'objectifs de recherche et des contraintes liés aux appels à projets nationaux que nous souhaitons cibler.

Lors de la journée, l'objectif principal sera d'identifier les besoins des patients et de leurs proches aidants pour l'amélioration de la qualité des parcours de soins dans l'optique d'une co-élaboration de nouveaux objectifs de recherche. Il s'agira d'accompagner l'appropriation de ces besoins également par les professionnels de santé et les équipes de santé publique.

Ainsi, de nouveaux objectifs de recherche pour l'amélioration de la qualité des parcours de soins des patients atteints d'une SEP en France, seront définis selon une méthode originale dans ce domaine et nous faisons l'hypothèse qu'ils pourront être mobilisés pour définir des projets de recherche originaux qui seront soumis à des appels à projets nationaux comme le programme de recherche sur la performance du système de soins (PREPS) piloté par le ministère de la santé (DGOS).

6.3 Prendre en compte les mesures de la qualité des parcours de soins des patients atteints d'une SEP en France, dans les décisions en santé concernant ces patients et leurs proches aidants :

La validation du questionnaire MusiCare pour les patients et pour leurs proches aidants représente une réelle opportunité pour contribuer à mobiliser leurs expériences dans le cadre des recherches engagées, en France, sur cette maladie.

Ce critère de jugement dans le cadre de projet de recherche clinique, à côté de critères de résultats cliniques, pourrait représenter une réelle plus-value pour mieux intégrer les besoins de ces patients et de leurs proches aidants dans des décisions concernant l'organisation globale de leur parcours de soins.

A ce jour, nous avons pu concrétiser cette démarche pour 2 projets de recherche clinique portés par plusieurs équipes de neurologie française : l'un visant à valider la sécurité et la faisabilité d'un traitement au domicile des patients traités par Natalizumab, et l'autre visant à démontrer la non infériorité, en termes d'efficacité clinique, d'un traitement de fond par Retixumad par rapport à l'Ocrelizumab.

6.3.1 Evaluer la sécurité et la faisabilité du traitement par Natalizumab au domicile des patients :

Parmi les traitements de fond proposés actuellement aux patients atteints d'une SEP, l'un des traitements immunosuppresseurs les plus diffusés est le natalizumab. Mis à disposition depuis une quinzaine d'années, il est utilisé dans des dizaines de pays pour des dizaines de milliers de patients. Jusqu'en 2021, les recommandations de son administration et de sa surveillance obligeaient les patients à réaliser leur perfusion mensuelle en milieu hospitalier, plus précisément en hôpital de jour pour la France. Alors que de nouveaux traitements de fond de la SEP ont été depuis mis sur le marché, dont beaucoup, au-delà de critères d'efficacité, présentent des contraintes d'administration moins fortes pour les patients (par voie orale notamment), l'administration du Natalizumab hors de l'hôpital, c'est-à-dire notamment au domicile des patients, est une alternative que les patients pourraient apprécier. C'est d'ailleurs ce que rapportent les auteurs australiens décrivant les seules expérimentations de ce type réalisées dans le monde que nous avons identifiées. Dans la première réalisée entre 2014 et 2017, ils soulignent que les 34 patients inclus et qui ont bénéficié en moyenne de 11 perfusions de Natalizumab à domicile au cours de cette étude, présentaient des niveaux de satisfaction élevés²²². Dans la seconde, réalisée en 2018 et incluant 37 patients, ils indiquaient que la qualité de vie des patients pris en charge à domicile s'était significativement améliorée entre le début et la fin de cette expérimentation, par rapport aux patients du groupe contrôle ayant bénéficié d'une prise en charge de référence en milieu hospitalier^{223,224}.

En dehors de ces 2 études expérimentales, le confinement imposé début 2020 en France dans le cadre du contrôle de l'épidémie liée au Covid 19 a conduit le laboratoire Biogen qui commercialise le Natalizumab, à solliciter l'Agence Nationale de Sécurité du Médicament pour une autorisation spécifique pour la réalisation des perfusions de ce produit au domicile des patients dans le cadre d'une Hospitalisation A Domicile (HAD). En effet, les conditions de ce premier confinement et les déprogrammations réalisées dans les établissements hospitaliers ont incité à rechercher des solutions alternatives pour les patients. Dans ce contexte, l'ANSM a donné un accord de principe et diffusé aux professionnels concernés (neurologues) des recommandations pour la mise en œuvre de cette prise en charge alternative et inédite pour ces patients. Plusieurs équipes se sont alors engagées pour mettre en place une organisation en lien

avec les services d'HAD de leur territoire permettant de répondre aux recommandations de l'ANSM.

6.3.1.1 Un projet expérimental engagé rapidement au CHU de Rennes : Tysad35

Au CHU de Rennes, cette expérimentation a été mise en place en Juin 2020 dans le cadre d'une collaboration entre l'équipe de neurologie prenant en charge ces patients et l'équipe de l'HAD du territoire (HAD 35). Par ailleurs, la caisse locale d'assurance maladie (CPAM 35) a validé les conditions de prise en charge financière de cette nouvelle organisation et accepté de les prolonger au-delà de cette période de confinement. L'équipe de neurologie du CHU de Rennes a donc pu proposer, aux patients qui le souhaitaient, cette nouvelle organisation pour les perfusions mensuelles de Natalizumab au domicile des patients volontaires, dans un 1^{er} temps pour une période maximale de 12 mois. Pour évaluer l'impact de cette nouvelle prise en charge du point de vue des patients, nous avons déposé un protocole d'étude auprès du comité d'éthique local. Cette évaluation repose d'une part sur la mesure de la qualité de vie des patients, comme pour les expérimentations australiennes, en s'appuyant sur le questionnaire MusiQol et d'autre part sur l'expérience patients via le questionnaire MusiCare. Les patients renseignent ce questionnaire avant la première perfusion réalisée à domicile et après la dernière c'est-à-dire à 12 mois d'intervalle. Les inclusions pour ce projet sont terminées (36 patients inclus sur 46 répondants aux critères d'inclusion) et le recueil des dernières données sera finalisé début 2022.

Le protocole de l'étude en joint en annexe.

6.3.1.2 Un projet national mobilisant les principaux centres de ressources et de compétences français : TYSATHOME :

En 2018, le Pr D Laplaud, neurologue spécialiste de la SEP au CHU de Nantes, m'avait sollicité pour participer à un séminaire pour engager une réflexion nationale pour la réalisation de perfusion de Natalizumab à domicile (board financé par le laboratoire Biogen). Plusieurs équipes de neurologie françaises étaient alors intéressées par cette alternative, d'une part parce qu'elles pensaient que c'était une attente d'une partie des patients concernés et d'autre part parce qu'elles étaient régulièrement confrontées à des difficultés de programmation de ces perfusions dans le cadre de leurs hôpitaux de jour. A l'époque ce séminaire n'avait pas eu de suites. Ce projet a été relancé en Mai 2020 suite à l'accord de l'ANSM pour la réalisation de ces perfusions de Natalizumab à domicile. Les équipes de neurologie impliquées ont alors décidée de s'engager dans une étude nationale pour évaluer la faisabilité et la sécurité de cette prise en charge, versus celles observées dans le cadre de la prise en charge courante c'est-à-dire en hôpital de jour. Le Pr Laplaud porteur du projet et le CHU de Nantes, promoteur, m'a de nouveau sollicité pour accompagner ce projet sur le plan méthodologique et proposer un schéma d'évaluation répondant aux objectifs. Nous avons réalisé ce travail en collaboration avec l'une de mes collègues du service de santé publique au CHU de Rennes, le Dr Emma Bajoux.

L'objectif principal du projet est de vérifier que les conditions de sécurité des perfusions de Natalizumab à domicile ne sont pas différentes (étude de non infériorité) de celles d'une prise en charge exclusivement hospitalière, par la mesure des effets indésirables du traitement.

Les objectifs secondaires sont de décrire et comparer l'activité de la maladie selon des critères cliniques (taux de poussées) et d'imagerie (modifications des lésions cérébrales à l'IRM), ainsi que la qualité de vie (questionnaire MusiQol) et l'expérience (questionnaire MusiCare) des patients. Une analyse médico-économique sera également réalisée, intégrant une description et une comparaison des coûts de chaque stratégie ainsi qu'une analyse coût-utilité.

Les patients inclus, soit un peu plus de 300 au total selon les prévisions des investigateurs, auront tous déjà bénéficié d'un traitement par Natalizumab en perfusion mensuelle pendant au

moins 1 an avant leur inclusion et selon les pratiques de référence c'est-à-dire en milieu hospitalier. Tous bénéficieront alors du traitement par Natalizumab à domicile, selon un protocole mis en place et validé par l'équipe locale de neurologie impliquée dans le projet et par l'équipe locale d'HAD qui assurera la pose et la surveillance de la perfusion à domicile. Il est prévu qu'ils poursuivent ce traitement, selon ces modalités d'administration, pendant 12 mois consécutifs, le critère principal de l'étude étant mesuré à cette échéance, ainsi que les critères secondaires de qualité de vie et d'expérience patients.

6.3.2 Evaluer et comparer l'efficacité d'un traitement de fond par Retixumad par rapport l'Ocrelizumab, pour des patients présentant une forme rémittente de SEP, en France :

Ce projet est porté par le Dr Laure Michel, neurologue au CHU de Rennes. Le Dr Emma Bajoux et moi-même en sommes les méthodologistes.

Le Retixumab est un anticorps monoclonal anti CD 20 utilisé initialement pour le traitement des lymphomes mais ayant également fait la preuve de son efficacité pour le traitement des formes rémittentes de SEP. Ce type de traitement de fond est considéré par les équipes de neurologie à travers le monde comme complémentaires des traitements de fond existant. Malgré les résultats d'études cliniques encourageant publiés en 2008, le développement de cette molécule a été interrompu par le laboratoire Roche. Cependant, depuis, la prescription de cette molécule a nettement progressé, hors autorisation de mise sur le marché, en Europe comme aux Etats Unis, en tant que traitement de 2nde intention et avec une sécurité et une efficacité dont les équipes de neurologie restent à ce jour convaincues. Parallèlement, le laboratoire Roche a développé une molécule très proche du retixumab : l'ocrelizumab, anticorps monoclonal humanisé recombinant anti CD 20 dont l'efficacité a été établie par 2 essais cliniques de phase 3 (OPERA 1 et 2) et dont l'indication a été récemment autorisée en France pour des patients présentant une forme rémittente active de la maladie, en 1^{ère} intention. Alors que, selon les données de la littérature, il n'existe pas d'argument biologique d'une supériorité de cette molécule par rapport au Retixumab, le coût de ce traitement est aujourd'hui près de 5 fois supérieur.

C'est pourquoi, les porteurs de ce projet ont proposé de comparer, dans le cadre d'un essai de non infériorité, l'efficacité de ces 2 molécules ainsi que leur impact médico-économique, d'un point de vue de la société. Dans le souhait de prendre en compte également le point de vue des patients parmi d'autres critères de jugement secondaires, une évaluation de leur expérience de la qualité des soins dans le cadre des 2 années de leur suivi pour cette étude, a également été prise en compte en s'appuyant sur le questionnaire MusiCare.

Ce projet a obtenu un financement intégral par l'appel à projets PHRC 2021 et l'étude est en cours de mise en place.

7 Conclusions

Les résultats de ce travail nous permettent aujourd'hui de disposer d'outils validés pour contribuer à mieux évaluer la qualité des parcours de soins des patients atteints d'une SEP en France, outils jusqu'alors inédits non seulement dans ce pays mais aussi ailleurs dans le monde. A travers les projets engagés dans le cadre de ce travail de thèse, on peut déjà constater qu'ils apportent des informations originales dans ce domaine et permettent ainsi concrètement d'identifier des besoins persistant du point de vue des patients comme de leurs proches aidants, en termes par exemple d'informations, de communication, d'implication, de soutien qui représentent des axes d'amélioration importants des pratiques et des organisations pour les professionnels engagés dans le parcours de ces patients. Cette approche mobilisant, en même temps, le point de vue des patients, de leurs proches aidants et des professionnels de santé renforce selon nous l'intérêt des données produites par la mobilisation de ces outils. Elle devrait être autant que de possible celle à privilégier dans toute démarche d'évaluation de la qualité des parcours de soins des patients atteints d'une SEP en France, que ce soit dans un contexte de recherche ou dans un contexte de réflexions pour l'amélioration de ces parcours à l'échelle d'un territoire, d'une région. La concrétisation de cette approche et l'usage, en pratique réelle, des outils développés dans le cadre de ce travail conduira aussi probablement à améliorer la qualité de ces outils et ainsi à améliorer les conditions de leur appropriation par l'ensemble des acteurs impliqués dans l'amélioration de la prise en charge de cette maladie. C'est aussi le sens des perspectives déjà concrétisées dans la suite de ce travail, comme l'enquête nationale auprès des patients et les proches aidants pour recueillir leurs expériences de la qualité du parcours de soins grâce à l'outil MusiCare. Au-delà, nous souhaitons également intégrer cette approche holistique dès l'initiative d'une réflexion visant à définir de nouveaux objectifs de recherche. C'est le but du séminaire que nous avons programmé début 2022 et regroupant patients atteints d'une SEP, proches aidants et professionnels de santé impliqués dans le parcours de soins de ces patients, afin de définir, ensemble, et particulièrement sur la base des besoins rapportés par les patients et leurs proches aidants, de nouveaux objectifs pour élaborer un nouveau protocole de recherche dédié au thème de l'amélioration de la qualité des parcours de soins de ces patients.

8 Bibliographie :

1. Leray E, Morrissey S, Yaouanq J, et al. Long-term survival of patients with multiple sclerosis in West France. *Mult Scler.* 2007 Aug;13(7), p :865-74.
2. Leray E, Moreau T, Fromont A, et al. Epidemiology of multiple sclerosis. *Rev Neurol (Paris).* 2016 Jan;172(1), p :3-13.
3. Leray E, Vukusic S, Debouverie M, et al. Excess Mortality in Patients with Multiple Sclerosis Starts at 20 Years from Clinical Onset: Data from a Large-Scale French Observational Study. *PLoS One.* 2015 Jul 6;10(7), p :1-12.
4. Poser CM, Paty DW, Scheinberg L, et al. New diagnostic criteria for multiple sclerosis: guidelines for research protocols. *Ann. Neurol.*1983; 13, p :227-31.
5. McDonald WI, Compston A, Edan G, et al. Recommended diagnostic criteria for multiple sclerosis: guidelines from the International Panel on the diagnosis of multiple sclerosis. *Ann Neurol.* 2001 Jul;50(1), p :121-7.
6. Polman CH, Reingold SC, Edan G, et al. Diagnostic criteria for multiple sclerosis: 2005 revisions to the "McDonald Criteria". *Ann Neurol.* 2005 Dec;58(6), p :840-6.
7. Polman CH, Reingold SC, Banwell B, et al. Diagnostic criteria for multiple sclerosis: 2010 revisions to the McDonald criteria. *Ann Neurol.* 2011 Feb;69(2), p :292-302.
8. Fantoni-Quinton S, Kwiatkowski A, Vermersch P, et al. Impact of multiple sclerosis on employment and use of job-retention strategies: The situation in France in 2015. *J Rehabil Med.* 2016 Jun 13;48(6), p :535-40.
9. Howard J, Trevick S, Younger DS. Epidemiology of Multiple Sclerosis. *Neurol Clin.* 2016 Nov;34(4), p :919-39.
10. Walton C, King R, Rechtman L, et al. Rising prevalence of multiple sclerosis worldwide: Insights from the Atlas of MS, third edition. *Mult Scler.* 2020 Dec;26(14), p :1816-21.
11. Fromont A, Binquet C, Sauleau EA, et al. Geographic variations of multiple sclerosis in France. *Brain.* 2010 Jul;133(Pt 7), p :1889-99.
12. Foulon S, Maura G, Dalichampt M, et al. Prevalence and mortality of patients with multiple sclerosis in France in 2012: a study based on French health insurance data. *J Neurol.* 2017 Jun;264(6), p :1185-92.
13. Fromont A, Binquet C, Clerc L, et al. Epidemiology of multiple sclerosis: The special situation in France. *Rev Neurol (Paris).* 2009 Aug-Sep;165(8-9), p :671-5.
14. Fromont A, Binquet C, Sauleau E, et al. National estimate of multiple sclerosis incidence in France (2001-2007). *Mult Scler.* 2012 Aug;18(8), p :1108-15.
15. Debouverie M, Pittion-Vouyovitch S, Louis S, et al. Increasing incidence of multiple sclerosis among women in Lorraine, Eastern France. *Mult Scler.* 2007 Sep;13(8), p :962-7.
16. Yaouanq J, Tron I, Kerbrat A, et al. Register-based incidence of multiple sclerosis in Brittany (north-western France), 2000-2001. *Acta Neurol Scand.* 2015 May;131(5), p :321-8.
17. Belbasis L, Bellou V, Evangelou E, et al. Environmental risk factors and multiple sclerosis: an umbrella review of systematic reviews and meta-analyses. *Lancet Neurol.* 2015 Mar;14(3), p :263-73.
18. Olsson T, Barcellos LF, Alfredsson L. Interactions between genetic, lifestyle and environmental risk factors for multiple sclerosis. *Nat Rev Neurol.* 2017 Jan;13(1), p :25-36.
19. Filippini G, Del Giovane C, Vacchi L, et al. Immunomodulators and immunosuppressants for multiple sclerosis: a network meta-analysis. *Cochrane Database Syst Rev.* 2013 Jun 6;(6), 121 p.
20. Rae-Grant A, Day GS, Marrie RA, et al. Comprehensive systematic review summary: Disease-modifying therapies for adults with multiple sclerosis: Report of the Guideline

- Development, Dissemination, and Implementation Subcommittee of the American Academy of Neurology. *Neurology*. 2018 Apr 24;90(17), p :789-800;
21. Oger J. Immunosuppression: promises and failures. *J Neurol Sci*. 2007 Aug 15;259(1-2), p :74-8.
 22. Le Page E, Veillard D, Laplaud DA, et al. Oral versus intravenous high-dose methylprednisolone for treatment of relapses in patients with multiple sclerosis (COPOUSEP): a randomised, controlled, double-blind, non-inferiority trial. *Lancet*. 2015 Sep 5;386(9997), p :974-81.
 23. Le Page E, Edan G. Oral rather than intravenous corticosteroids should be used to treat MS relapses - Yes. *Mult Scler*. 2017 Jul;23(8), p :1056-58.
 24. Bowen JD, Qian P. Oral rather than intravenous corticosteroids should be used to treat MS relapses - No. *Mult Scler*. 2017 Jul;23(8), p :1058-60.
 25. Jacquin-Courtois S, Azouvi P, Pérennou D. Multiple sclerosis: A special issue in the Annals of Physical and Rehabilitation Medicine. *Ann Phys Rehabil Med*. 2020 Mar;63(2), p :91-2.
 26. Wattjes MP, Rovira À, Miller D, et al. Evidence-based guidelines: MAGNIMS consensus guidelines on the use of MRI in multiple sclerosis--establishing disease prognosis and monitoring patients. *Nat Rev Neurol*. 2015 Oct;11(10), p :597-606.
 27. Traboulsee A, Simon JH, Stone L, et al. Revised Recommendations of the Consortium of MS Centers Task Force for a Standardized MRI Protocol and Clinical Guidelines for the Diagnosis and Follow- Up of Multiple Sclerosis. *AJNR Am J Neuroradiol*. 2016 Mar;37(3), p :394-401.
 28. Kobelt G, Thompson A, Berg J, et al. New insights into the burden and costs of multiple sclerosis in Europe. *Mult Scler*. 2017 Jul;23(8), p :1123-36.
 29. Lebrun-Frenay C, Kobelt G, Berg J, et al. New insights into the burden and costs of multiple sclerosis in Europe: Results for France. *Mult Scler*. 2017 Aug;23(2_suppl), p :65-77.
 30. Actualité et dossier en santé publique n° 72, maladies chroniques, 2010, p : 12-51
 31. M Chassang, A Gautier. Les maladies chroniques. Avis du Conseil Economique Et Social. Juin 2019, 96 p.
 32. La prise en charge et la protection sociale des personnes atteintes de maladie chronique. Rapport du Haut Conseil de la Santé Publique. Novembre 2009, 70 p.
 33. Organisation Mondiale de la Santé (OMS), Prévention des maladies chroniques, un investissement vital, 2005, 203 p.
disponible sur https://www.who.int/topics/chronic_diseases/fr/
 34. Vernay M, Bonaldi C, Grémy I. Les maladies chroniques : tendances récentes, enjeux et perspectives d'évolution. *Sante Publique*. 2015 Mar-Apr;1 Suppl, p :189-97.
 35. Dray-Spira R. Maladies chroniques et emploi : impact en termes d'inégalités sociales de santé [Chronic diseases and employment: impact on social health inequalities]. *Rev Epidemiol Sante Publique*. 2013 Aug;61 Suppl 3, p :146-51.
 36. Feys P, Giovannoni G, Dijsselbloem N, et al. The importance of a multi-disciplinary perspective and patient activation programmes in MS management. *Mult Scler*. 2016 Aug;22(2 Suppl), p :34-46.
 37. Chen AY, Chonghasawat AO, Leadholm KL. Multiple sclerosis: Frequency, cost, and economic burden in the United States. *J Clin Neurosci*. 2017 Nov;45, p :180-186.
 38. Haute Autorité de la Santé, Guide Affection de Longue Durée, Sclérose en Plaques, Septembre 2006, 24 p.
disponible sur https://www.has-sante.fr/jcms/c_460315/fr/ald-n25-sclerose-en-plaques
 39. Les réseaux SEP en France, disponible sur <https://sfsep.org/les-reseaux-sep>
 40. Anderson G, Knickman JR. Changing the chronic care system to meet people's needs. *Health Aff (Millwood)*. 2001 Nov-Dec;20(6), p :146-60.

41. Lawrence M, Williams T. Managed care and disease management in the NHS. *British Medical Journal*, 1996,313, p :125–126.
42. Wagner EH. Chronic disease management: what will it take to improve care for chronic illness? *Eff Clin Pract*. 1998 Aug-Sep;1(1), p :2-4.
43. Pilnick A, Dingwall R, Starkey K. Disease management: definitions, difficulties and future directions. *Bull World Health Organ*. 2001;79(8), p :755-63.
44. Brunn M, Chevreur K. Prise en charge des patients atteints de maladies chroniques. concepts, évaluations et enseignements internationaux [Care for patients with chronic illness - concepts, assessment and foreign experiences]. *Sante Publique*. 2013 Jan-Feb;25(1), p :87-94.
45. The Picker Institute, Patient-centred care 2015: Scenarios, vision, goals and next steps. Camden, England: Picker Institute, 2004, 65 p.
46. Entwistle V.A. Carter S.M. Cribb A. et al. Supporting patient autonomy: the importance of clinician–patient relationships. *Journal of General and Internal Medicine*. 2010; 25, p : 741-745.
47. Agence nationale de l'évaluation et de la qualité des établissements et services sociaux et médico-sociaux. Recommandations de Bonnes pratiques professionnelles : le soutien des aidants non professionnels, 2014, 135 p.
Disponible sur https://www.has-sante.fr/upload/docs/application/pdf/2018-03/ane-trans-rbpb-soutien_aidants-interactif.pdf
48. Ennuyer B. Les malentendus de la dépendance de l'incapacité au lien social, Paris: Dunod, 2002, 330 p.
49. Confédération des organisations familiales de l'Union européenne Handicap – charte européenne de l'aidant familial, 2007, disponible sur www.coface-eu.org
50. Proche aide Québec, qu'est ce qu'une personne proche aidante, disponible sur <https://ranq.qc.ca/procheaidante/>
51. Espace éthique région Ile De France, Etude auprès d'aidants - Accompagner un proche en perte d'autonomie suite à une maladie : motivations, vécus, aspirations Août 2015, 53 diapositives Disponible sur <https://www.espaceethique.org/sites/default/files/Etude/Aidants/Ethique/2015.pdf>
52. Basuyau F, Beauverger C, Bruno C, et al. Une nouvelle approche des aidants familiaux : enquête sur la charge de l'aidant familial ou proche aidant. 2013, 56 p.
53. Caisse nationale de solidarité pour l'autonomie. Accompagner les proches aidants, ces acteurs « invisibles ». Paris, 2012, 106 p.
54. Soullier N. L'implication de l'entourage et des professionnels auprès des personnes âgées à domicile. *Études et résultats*, 2011, n° 771, 8 p.
55. Dutheil N. Les aides et les aidants des personnes âgées. *Études et résultats*, 2001, n° 142, 12 p.
56. Maguire R, Maguire P. Caregiver Burden in Multiple Sclerosis: Recent Trends and Future Directions. *Curr Neurol Neurosci Rep*. 2020 May 22;20(7), p : 1-9.
57. Pakenham KI. The nature of caregiving in multiple sclerosis: development of the caregiving tasks in multiple sclerosis scale. *Mult Scler*. 2007 Aug;13(7), p :929-38.
58. Negri L, Minacapelli E, Bassi M, et al. Italian validation of the caregiving tasks in multiple sclerosis scale (CTiMSS). *Neurol Sci*. 2020 Jul;41(7), p :1881-89.
59. Katsavos S, Artemiadis AK, Zacharis M, et al. Predicting caregiving status and caregivers' burden in multiple sclerosis. A short report. *Neurol Res*. 2017 Jan;39(1), p :13-15.
60. Lorefice L, Mura G, Coni G, et al. What do multiple sclerosis patients and their caregivers perceive as unmet needs? *BMC Neurol*. 2013 Nov 15, p ;13:177.
61. Gregory RJ, Disler P, Firth S. Caregivers of people with multiple sclerosis: a survey in New Zealand. *Rehabil Nurs*. 1996 Jan-Feb;21(1), p :31-7.

62. Carton H, Loos R, Pacolet J, et al. A quantitative study of unpaid caregiving in multiple sclerosis. *Mult Scler*. 2000 Aug;6(4), p :274-9.
63. Aronson KJ, Cleghorn G, Goldenberg E. Assistance arrangements and use of services among persons with multiple sclerosis and their caregivers. *Disabil. Rehabil*. 1996 Jul;18(7):354-61.
64. Gregory RJ, Disler P, Firth S. Caregivers of people with multiple sclerosis: a survey in New Zealand *Rehabil Nurs* . Jan-Feb 1996;21(1), p :31-7.
65. Pinquart M, Sörensen S. Gender differences in caregiver stressors, social resources, and health: an updated meta-analysis. *J Gerontol B Psychol Sci Soc Sci*. 2006 Jan;61(1), p : 33-45.
66. Dauphinot V, Delphin-Combe F, Mouchoux C, et al. Risk factors of caregiver burden among patients with Alzheimer's disease or related disorders: a cross-sectional study. *J Alzheimers Dis*. 2015;44(3), p : 907-16.
67. Cockerill R, Warren S. "Care for caregivers: the needs of family members of MS patients." *The Journal of Rehabilitation*, vol. 56, no. 1, Jan.-Mar. 1990, pp. 41
68. DesRosier M B, Catanzaro M, Piller J. Living with chronic illness: social support and the well spouse perspective. *Rehabil. Nurs*. Mar-Apr 1992;17(2), p :87-91.
69. Dewis M E, Niskala H. Nurturing a valuable resource: family caregivers in multiple sclerosis. *Axone*. 1992 Mar;13(3), p : 87-94.
70. Laizner A M, Yost L M, Barg F K, et al. Needs of family caregivers of persons with cancer: a review. *Semin. Oncol. Nurs*. 1993 May;9(2), p :114-20.
71. McKeown LP, Porter-Armstrong AP, Baxter GD. The needs and experiences of caregivers of individuals with multiple sclerosis: a systematic review. *Clin Rehabil*. 2003 May;17(3), p :234-48.
72. Sato A, Ricks K, Watkins S. Needs of caregivers of clients with multiple sclerosis. *J Community Health Nurs*. 1996;13(1), p :31-42.
73. Wollin J, Reiher C, Spencer N M, et al. Caregiver Burden: Meeting the Needs of People who Support the Person with Multiple Sclerosis. *International Journal of MS Care* Dec 1999; 1(2), p :41-50.
74. Katsavos S, Artemiadis AK, Zacharis M, et al. Predicting caregiving status and caregivers' burden in multiple sclerosis. A short report. *Neurol Res*. 2017 Jan;39(1), p :13-15.
75. Chipchase S Y, Lincoln N B. Factors associated with carer strain in carers of people with multiple sclerosis. *Disabil. Rehabil*. 2001 Nov 20;23(17), p :768-76.
76. Hainsworth M A. Helping spouses with chronic sorrow related to multiple sclerosis. *J Psychosoc. Nurs. Ment. Health Serv*. 1996 Jun;34(6), p :36-40.
77. Donaldson M S, Nolan K. Measuring the quality of health care: state of the art. *Jt Comm. J Qual. Improv*. 1997 May;23(5), p :283-92.
78. Pakenham KI. Application of a stress and coping model to caregiving in multiple sclerosis - *Psychology, Health & Medicine*, 2001; 6(1), p : 13-27.
79. O'Brien RA, Wineman NM, Nealon NR. Correlates of the caregiving process in multiple sclerosis. *Sch Inq Nurs Pract*. 1995 Winter;9(4), p : 323-42.
80. Giordano A, Cimino V, Campanella A, et al. Low quality of life and psychological wellbeing contrast with moderate perceived burden in carers of people with severe multiple sclerosis. *J Neurol Sci*. 2016 Jul 15;366, p :139-45.
81. Wollin J, Sato A. An international comparison of caregiver burden in multiple sclerosis. *Australas J Neurosci* 2001; 14, p: 21-25.
82. Murphy N, Confavreux C, Haas J, et al. Quality of life in multiple sclerosis in France, Germany, and the United Kingdom. Cost of Multiple Sclerosis Study Group. *J Neurol Neurosurg Psychiatry*. 1998 Oct;65(4), p :460-6.

83. Figved N, Myhr KM, Larsen JP, et al. Caregiver burden in multiple sclerosis: the impact of neuropsychiatric symptoms. *J Neurol Neurosurg Psychiatry*. 2007 Oct;78(10), p :1097-102.
84. Coudin G. La réticence des aidants familiaux à recourir aux services gérontologiques: une approche psychosociale [Family caregiver's reluctance toward community services: a social psychology perspective]. *Psychol Neuropsychiatr Vieil*. 2004 Dec;2(4), p :285-96.
85. Wawrziczny E, Corrairie A, Antoine P. Relapsing-remitting multiple sclerosis: an interpretative phenomenological analysis of dyadic dynamics. *Disabil Rehabil*. 2021 Jan;43(1), p :76-84.
86. Traa MJ, De Vries J, Bodenmann G, et al. Dyadic coping and relationship functioning in couples coping with cancer: a systematic review. *Br J Health Psychol*. 2015 Feb;20(1), p :85-114.
87. Hamidou Z, Auquier P, Leroy T, et al. Dyadic effects of coping strategies, time perspectives, and personality on the quality of life of cancer patients and their caregivers. *Psychooncology*. 2018 Feb;27(2), p :590-9.
88. O'Brien MT. Multiple sclerosis: stressors and coping strategies in spousal caregivers. *J Community Health Nurs*. 1993;10(3), p :123-35.
89. Pakenham KI, Bursnall S. Relations between social support, appraisal and coping and both positive and negative outcomes for children of a parent with multiple sclerosis and comparisons with children of healthy parents. *Clin Rehabil*. 2006 Aug;20(8), p :709-23.
90. Bassi M, Cilia S, Falautano M, et al. The caring experience in multiple sclerosis: Caregiving tasks, coping strategies and psychological well-being. *Health Soc Care Community*. 2020 Jan;28(1), p :236-46.
91. Pakenham KI, Samios C. Couples coping with multiple sclerosis: a dyadic perspective on the roles of mindfulness and acceptance. *J Behav Med*. 2013 Aug;36(4), p :389-400.
92. Samios C, Pakenham KI, O'Brien J. A dyadic and longitudinal investigation of adjustment in couples coping with multiple sclerosis. *Ann Behav Med*. 2015 Feb;49(1), p :74-83.
93. Veillard D, Baumstarck K, Edan G, et al. Assessing the experience of the quality of care of patients living with multiple sclerosis and their caregivers: The MusiCare questionnaire. *Eur J Neurol*. 2021 Mar;28(3), p :910-20.
94. Field MJ, Lohr MJ, eds. *Clinical Practice Guidelines: Directions for a New Program*. Washington, DC: National Academy Press; 1990; 168 p.
95. Chassin MR. Practice guidelines: best hope for quality improvement in the 1990s. *J Occup Med*. 1990;32, p : 1199-206.
96. Woolf SH. Practice guidelines: a new reality in medicine, III: impact on patient care. *Arch Intern Med*. 1993; 153, p: 2646-55.
97. Cabana MD, Rand CS, Powe NR, et al. Why don't physicians follow clinical practice guidelines? A framework for improvement. *JAMA*. 1999 Oct 20;282(15), p :1458-65.
98. Barthélémy I, Rocheleau L, et al. Étude observationnelle comparative des systèmes d'agrément en Amérique du Nord et en Europe. *Can J Hosp Pharm*. 2012 Jul;65(4), p :308-16.
99. Keribin L, Grenier C, de Saxcé AA. Vers une nouvelle certification des établissements de santé pour 2020. *Soins*. 2018 Oct;63(829), p :20-22.
100. Lyden J, Binswanger IA. The United States opioid epidemic. *Semin Perinatol*. 2019 Apr;43(3), p :123-31.
101. HAS, Scope Santé, Qualité des hôpitaux et des cliniques, je m'informe, je choisis, disponible sur <https://www.scopesante.fr/#>
102. Donabedian A. Methods for deriving criteria for assessing the quality of medical care. *Med Care Rev*. 1980 Fall;37(7), p :653-98.

103. Hibbard JH, Greene J, Daniel D. What is quality anyway? Performance reports that clearly communicate to consumers the meaning of quality of care. *Med Care Res Rev.* 2010 Jun;67(3), p :275-93.
104. Leatherman ST, Hibbard JH, McGlynn EA. A research agenda to advance quality measurement and improvement. *Med Care.* 2003 Jan;41(1 Suppl), p :180-6.
105. Haute Autorité de Santé, Guide méthodologique de diffusion publique des indicateurs de santé publique, Sept 2012, 77 p, disponible sur https://has-sante.fr/upload/docs/application/pdf/2012-11/guide_methodologique_diffusion_indicateurs.pdf
106. Contandriopoulos, A. P., F. Champagne, et al. (1993). "L'évaluation dans le domaine de la santé - Concepts et méthodes." *Bulletin* 33(1) , p : 12-17.
107. Donabedian A. Evaluating the quality of medical care. *Milbank Mem Fund Q.* 1966 Jul;44(3):Suppl, p :166-206.
108. Donabedian A. Evaluating the quality of medical care. 1966. *Milbank Q.* 2005;83(4):691-729.
109. McGlynn EA, Asch SM, Adams J, et al. The quality of health care delivered to adults in the United States. *N Engl J Med.* 2003 Jun 26;348(26); p : 2635-45.
110. Santé Publique France : Les Baromètres : un observatoire des comportements des Français pour orienter les politiques de prévention et d'information de la population. Disponible sur <https://www.santepubliquefrance.fr/etudes-et-enquetes/barometres-de-sante-publique-france#block-65430>
111. Schoen C, Osborn R. The Commonwealth Fund 2008 International Health Policy Survey in Eight Countries - The Commonwealth Fund, 2008, disponible sur <https://www.oecd.org/els/health-systems/49478598.pdf>
112. Fortin M, Contant E, Savard C, et al. Canadian guidelines for clinical practice: an analysis of their quality and relevance to the care of adults with comorbidity. *BMC Fam Pract.* 2011 Jul 13;12:74., p: 1-6.
113. Vitry AI, Zhang Y. Quality of Australian clinical guidelines and relevance to the care of older people with multiple comorbid conditions. *Med J Aust.* 2008 Oct 6;189(7), p :360-5.
114. Legido-Quigley H, Panteli D, Brusamento S, et al. Clinical guidelines in the European Union: mapping the regulatory basis, development, quality control, implementation and evaluation across member states. *Health Policy.* 2012 Oct;107(2-3), p :146-56.
115. Brusamento S, Legido-Quigley H, Panteli D, et al. Assessing the effectiveness of strategies to implement clinical guidelines for the management of chronic diseases at primary care level in EU Member States: a systematic review. *Health Policy.* 2012 Oct;107(2-3), p :168-83.
116. Campbell SM, Roland MO, Middleton E, et al. Improvements in quality of clinical care in English general practice 1998-2003: longitudinal observational study. *BMJ.* 2005 Nov 12;331(7525):1121.
117. Haute Autorité de Santé, Indicateurs de Qualité et de Sécurité des Soins (IQSS), disponible sur https://www.has-sante.fr/jcms/r_1500957/fr/indicateurs-de-qualite-et-de-securite-des-soins-igss
118. Haute Autorité de Santé, Guide Affection de Longue Durée, Accident Vasculaire Cérébral, 2007, 32 p. Disponible sur https://www.has-sante.fr/upload/docs/application/pdf/20112/plaquette_avc_2017.pdf
119. Haute Autorité de Santé, Maladie de Parkinson et syndromes apparentés : techniques et modalités de la prise en charge non médicamenteuse des troubles moteurs, recommandations de bonnes pratiques, 2016, disponible sur https://www.has-sante.fr/jcms/c_2038173/fr/maladie-de-parkinson-et-syndromes-apparentes-

120. Haute Autorité de Santé, Fédération Française de Neurologie, Epilepsies : prise en charge des enfants et des adultes, recommandation, 2020, 44 p. Disponible sur https://www.has-sante.fr/upload/docs/application/pdf/202010/reco308_recommandations_epilepsies_preparation_mel.pdf
121. Pugh MJ, Berlowitz DR, Montouris G, et al. What constitutes high quality of care for adults with epilepsy? *Neurology*. 2007 Nov 20;69(21), p :2020-7.
122. Ringel SP, Vickrey BG. Measuring quality of care in neurology. *Arch Neurol*.1997 Nov;54(11), p :1329-32.
123. Cheng EM, Siderowf A, Swartztrauber K, et al. Development of quality of care indicators for Parkinson's disease. *Mov Disord*. 2004 Feb;19(2), p :136-50.
124. Guillon B, Planchon B, Woimant F, et al. Stroke management in a general internal medicine department : results of a survey regarding practice. *Rev Med Interne*. 2001 Sep;22(9), p :830-44.
125. Le Barbier M, Deltour S, Crozier S, et al. Des indicateurs de qualité et de gestion des risques pour suivre la prise en charge hospitalière des accidents vasculaires cérébraux. *Santé Publique* 2008/3 (Vol. 20), p : 225-37.
126. Curley M, Josey L, Lucas R, et al. Adherence to MRI protocol consensus guidelines in multiple sclerosis: an Australian multi-centre study. *J Med Imaging Radiat Oncol*. 2012 ; 56(6), p : 594-8.
127. Oreja-Guevara C, Río J, Gobartt A. [Compliance of the guidelines of the Spanish Neurology Society in the treatment of patients with multiple sclerosis]. *Rev Neurol*. 2015 Aug 16;61(4):145-52 Dec;56(6), p :594-8.
128. Guo J, Cheng C, Yan W, et al. Systematic review of clinical practice guidelines related to multiple sclerosis. *PLoS One*. 2014 Oct 10;9(10), p : 1-7.
129. Rae-Grant A, Bennett A, Sanders AE, et al. Quality improvement in neurology: multiple sclerosis quality measures: executive summary. *Neurology* 2015; 85, p : 1904-08.
130. Shoemaker SJ, Pozniak A, Hadden L. Assessing Four Quality Indicators for Multiple Sclerosis Management Through Patient-Reported Data. *Int J MS Care* 2016 ; 18, p : 202-9.
131. Lairy G, Zephir H, Ouallet JC, et al. Targeted clinical audits immediately following the establishment of clinical practice guidelines for multiple sclerosis in 17 neurology departments: A pragmatic and collaborative study. *Rev Neurol (Paris)*. 2015 May;171(5), p : 407-14.
132. Wensing M, Elwyn G. Research on patients' views in the evaluation an improvement of quality of care. *Qual Saf Health Care*, 2002, 11, p : 153-7.
133. Patrick, D.L. and Erickson, P. Health status and health policy: Quality of life in health care evaluation and resource allocation. Oxford University Press, New York, 1993, 478 p.
134. Ware JE Jr, Sherbourne CD. The MOS 36-item short-form health survey (SF-36). I. Conceptual framework and item selection. *Med Care*. 1992 Jun;30(6), p :473-83.
135. D Aaronson NK, Acquadro C, Alonso J, et al. International Quality of Life Assessment (IQOLA) Project. *Qual Life Res*. 1992 Oct;1(5), p :349-51.
136. Leplège A, Ecosse E, Coste J, et al. Le questionnaire MOS SF-36 : manuel de l'utilisateur et guide d'interprétation des scores. Éditions ESTEM, 2001, 155 p.
137. Vickrey BG, Hays RD, Harooni R, et al. A health-related quality of life measure for multiple sclerosis. *Qual Life Res*. 1995 Jun;4(3), p :187-206.
138. Vernay D, Gerbaud L, Biolay S, et al. Qualité de vie et sclérose en plaques: validation de la version francophone d'un auto-questionnaire, le SEP-59 [Quality of life

- and multiple sclerosis: validation of the french version of the self-questionnaire (SEP-59)]. *Rev Neurol (Paris)*. 2000 Mar;156(3), p :247-63.
139. Simeoni M, Auquier P, Fernandez O, et al. Validation of the Multiple Sclerosis International Quality of Life questionnaire. *Mult Scler*. 2008 Mar;14(2), p :219-30.
 140. Baumstarck-Barrau K, Pelletier J, Simeoni MC, et al. Validation Française du Multiple Sclerosis International Quality of Life Questionnaire (MusiQoL) [French validation of the Multiple Sclerosis International Quality of Life Questionnaire]. *Rev Neurol (Paris)*. 2011 Jun- Jul;167(6-7), p :511-21.
 141. Wu N, Minden SL, Hoaglin DC, et al. Quality of life in people with multiple sclerosis: data from the Sonya Slifka Longitudinal Multiple Sclerosis Study. *J Health Hum Serv Adm*. 2007 Winter;30(3), p :233-67.
 142. Le livre blanc de la SEP. Etats généraux de la SEP. 2006, 162 p
 143. Janssens AC, van Doorn PA, de Boer JB, et al. Impact of recently diagnosed multiple sclerosis on quality of life, anxiety, depression and distress of patients and partners *Acta Neurol Scand*. 2003; 108, p 389-395.
 144. Agence Nationale de Sécurité du Médicament et des produits de santé, disponible <https://www.ansm.sante.fr/Activites/Surveillance-des-medicaments/Medicaments-faisant-l-objet-d-un-plan-de-gestion-des-risques/Medicaments-faisant-l-objet-d-un-Plan-de-Gestion-des-Risques-PGR2/TYSABRI>
 145. Medjebar S, Louapre C, Debs R, et al. Étude pilote comparant le score MSFC à l'application DAM : une solution d'auto-évaluation pour les patients atteints de SEP *Rev Neurol* Volume 173, Supplement 2, March 2017, Page S122
 146. Rowan H Harwood, Angela Rogers, et al. Measuring handicap: the London handicap scale, a new outcome measure for chronic disease. *Quality in Health Care* 1994;3, p :11-6.
 147. Kurtzke JF. Rating neurologic impairment in multiple sclerosis: an expanded disability status scale (EDSS). *Neurology*. 1983 Nov;33(11), p :1444-52.
 148. Le projet EDMUS (European Database for Multiple Sclerosis), disponible sur <https://www.edmus.org/fr/proj/index.html>
 149. Zarit SH, Zarit JM. The hidden victims of Alzheimer's disease : families under stress. New York: New York University Press; 1985, 228 p.
 150. Kuyper MB, Wester F. In the shadow: the impact of chronic illness on the patient's partner. *Qual Health Res*. 1998 Mar;8(2), p :237-53.
 151. Baanders AN, Heijmans MJ. The impact of chronic diseases: the partner's perspective. *Fam Community Health*. 2007 Oct-Dec;30(4), p :305-17.
 152. Adelman RD, Tmanova LL, Delgado D, et al. Caregiver burden: a clinical review. *JAMA*. 2014 Mar 12;311(10), p :1052-60.
 153. Rigby H, Gubitz G, Phillips S. A systematic review of caregiver burden following stroke. *Int J Stroke*. 2009 Aug;4(4), p :285-92.
 154. Van Durme T, Macq J, Jeanmart C, et al. Tools for measuring the impact of informal caregiving of the elderly: a literature review. *Int J Nur Stud*. 2012 Apr;49(4), p :490-504.
 155. Kudra A, Lees C, Morrell-Scott N. Measuring carer burden in informal carers of patients with long-term conditions. *Br J Community Nurs*. 2017 May 2;22(5):, p 230-236.
 156. Sarabia-Cobo C, Taltavull-Aparicio JM, Miguélez-Chamorro A, et al. Experiences of caregiving and quality of healthcare among caregivers of patients with complex chronic processes: A qualitative study. *Appl Nurs Res*. 2020 Dec;56,151344.
 157. Li L, Young D, Xiao S, et al. Psychometric properties of the WHO Quality of Life questionnaire (WHOQOL-100) in patients with chronic diseases and their caregivers in China. *Bull World Health Organ*. 2004 Jul;82(7), p :493-502.

158. Shiue I, Sand M. Quality of life in caregivers with and without chronic disease: Welsh Health Survey, 2013. *J Public Health (Oxf)*. 2017 Mar 1;39(1), p :34-44.
159. Minaya P, Baumstarck K, Berbis J, et al. The CareGiver Oncology Quality of Life questionnaire (CarGOQoL): development and validation of an instrument to measure the quality of life of the caregivers of patients with cancer. *Eur J Cancer*. 2012 Apr;48(6), p : 904-11.
160. Richieri R, Boyer L, Reine G, et al. Validation française d'un questionnaire de qualité de vie des aidants naturels de patients schizophrènes [A preliminary validation of a new French instrument to assess quality of life for caregivers of patients suffering from schizophrenia]. *Encephale*. 2011 Dec;37(6), p :425-32.
161. Gilbertson EL, Krishnasamy R, Foote C, et al. Burden of Care and Quality of Life Among Caregivers for Adults Receiving Maintenance Dialysis: A Systematic Review. *Am J Kidney Dis*. 2019 Mar;73(3), p :332-43.
162. Rezaei H, Niksima SH, Ghanei Gheshlagh R. Burden of Care in Caregivers of Iranian patients with chronic disorders: a systematic review and meta-analysis. *Health Qual Life Outcomes*. 2020 Aug 3;18(1), 261.
163. Petrikis P, Baldouma A, Katsanos AH, et al. Quality of Life and Emotional Strain in Caregivers of Patients with Multiple Sclerosis. *J Clin Neurol*. 2019 Jan;15(1), p :77-83.
164. Di Cara M, Bonanno L, Rifici C, et al. Quality of life in patients with multiple sclerosis and caregivers. Predictive factors: An observational study. *J Clin Neurosci*. 2020 Aug;78, p : 242-45.
165. Rivera-Navarro J, Benito-León J, Oreja-Guevara C, et al. Caregiver Quality of Life in Multiple Sclerosis (CAREQOL-MS) Study Group. Burden and health-related quality of life of Spanish caregivers of persons with multiple sclerosis. *Mult Scler*. 2009 Nov;15(11), p :1347-55.
166. Benito-León J, Rivera-Navarro J, Guerrero AL, et al. caregiver quality of life in multiple sclerosis (CAREQOL-MS) Study Group. The CAREQOL-MS was a useful instrument to measure caregiver quality of life in multiple sclerosis. *J Clin Epidemiol*. 2011 Jun;64(6), p :675-86.
167. Buhse M. Assessment of caregiver burden in families of persons with multiple sclerosis. *J Neurosci Nurs*. 2008 Feb;40(1), p :25-31.
168. Hawthorne G, Sansoni J, Hayes L, et al. Measuring patient satisfaction with health care treatment using the Short Assessment of Patient Satisfaction measure delivered superior and robust satisfaction estimates. *J Clin Epidemiol*. 2014 May;67(5), p :527-37.
169. Kravitz RL. Patients' expectations for medical care: an expanded formulation based on review of the literature. *Med Care Res Rev*. 1996 Mar;53(1), p :3-27.
170. Ware JE Jr, Snyder MK, Wright WR, et al. Defining and measuring patient satisfaction with medical care. *Eval Program Plann*. 1983;6(3-4), p :247-63.
171. Linder-Pelz SU. Toward a theory of patient satisfaction. *Soc Sci Med* 1982;16(5), p : 577-82.
172. Fitzpatrick R, Hopkins A. Problems in the conceptual framework of patient satisfaction research: an empirical exploration. *Sociol Health Illn*. 1983 Nov;5(3), p : 297-311.
173. Donabedian A. The quality of care. How can it be assessed? *JAMA*. 1988 Sep 23-30;260(12), p : 1743-8.
174. Mazurenko O, Collum T, Ferdinand A, et al. Predictors of Hospital Patient Satisfaction as Measured by HCAHPS: A Systematic Review. *J Healthc Manag*. 2017 Jul/Aug;62(4), p : 272-83.
175. Center for Medicare and Medicaid Services, Hospital Consumer Assessment of Healthcare Providers and Systems survey, disponible sur

176. Davidson KW, Shaffer J, Ye S, Falzon L, et al. Interventions to improve hospital patient satisfaction with healthcare providers and systems: a systematic review. *BMJ Qual Saf.* 2017 Jul;26(7), p : 596-606.
177. Bruster S, Jarman B, Bosanquet N, et al. National survey of hospital patients. *BMJ.* 1994 Dec 10;309(6968), p : 1542-6.
178. Hindi A, Parkhurst C, Rashidi Y, et al. Development and utilization of the Medicines Use Review patient satisfaction questionnaire. *Patient Prefer Adherence.* 2017 Oct 20;11, p : 1797-806.
179. Groenewegen PP, Kerssens JJ, Sixma HJ, et al. What is important in evaluating health care quality? An international comparison of user views. *BMC Health Serv Res.* 2005 Feb 21;5(1), p :16.
180. Grool R, Wensing M. Patients evaluate general-family practice: the EUROPEP instrument. The task force on patient evaluations of general practice care 2000. 70 p
181. Gloanec M, Capuano F, Sainte-Croix D, et al. L'enquête nationale e-Satis, mesurer la satisfaction et l'expérience des patients. *Soins.* 2018 Oct;63(829), p : 23-26.
182. Haute Autorité de Santé, Résultats des indicateurs pour l'amélioration de la qualité et de la sécurité des soins. Mesure de la satisfaction des patients hospitalisés plus de 48 heures dans un établissement de Médecine -Chirurgie – Obstétrique, campagne 2017, 20 p. Disponible sur https://www.has-sante.fr/upload/docs/application/pdf/201712/synthese_essatis_2017.pdf
183. Jacobi CE, Boshuizen HC, Rupp I, et al. Quality of rheumatoid arthritis care: the patient's perspective. *Int J Qual Health Care.* 2004 Feb;16(1), p : 73-81.
184. Gutteling JJ, de Man RA, Busschbach JJ, et al. Quality of health care and patient satisfaction in liver disease: the development and preliminary results of the QUOTE-Liver questionnaire. *BMC Gastroenterol.* 2008 Jun 20;p : 8-25.
185. Scalise D. The patient experience. *Hosp Health Netw.* 2003 Dec;77(12):41-8.
186. Haute Autorité de Santé, Rapport expérience patient, Avril 2011, disponible sur https://www.has-sante.fr/jcms/c_1055814/fr/rapport-experience-patient-avril-2011
187. The Health Foundation, Measuring Experience Patient, 2013, 50 p, disponible sur <https://www.health.org.uk/publications/measuring-patient-experience>
188. Jouet E, Flora L, Las Vergnas O. Construction et reconnaissance des savoirs expérientiels des patients : Note de synthèse. *Pratiques de Formation - Analyses, Université Paris 8,2010, 94 p.*
189. Wolf JA, Niederhauser V, Marshburn D, et al. Defining patient experience. *Patient Exper J* 2014;1(1), p : 7-19.
190. Bleich SN, Ozaltin E, Murray CK. How does satisfaction with the health-care system relate to patient experience? *Bull World Health Organ.* 2009 Apr;87(4), p : 271-8.
191. Haute Autorité de Santé, Mesure de la Satisfaction et de l'Expérience des patients hospitalisés, disponible sur https://www.has-sante.fr/jcms/c_2660702/fr/e-satis-donner-son-avis-sur-son-hospitalisation
192. Shaw J, Pemberton S, Pratt C, et al. Shadowing: a central component of patient and family-centred care. *Nurs Manag (Harrow).* 2014 Jun;21(3), p :20-3.
193. The Joint Commission, facts about the tracer methodology, disponible sur : https://www.jointcommission.org/facts_about_the_tracer_methodology/
194. Ramsay P, Huby G, Merriweather J, et al. Patient and carer experience of hospital-based rehabilitation from intensive care to hospital discharge: mixed methods process evaluation of the RECOVER randomised clinical trial. *BMJ Open.* 2016 Aug 1;6(8):e012041

195. Havyer RD, van Ryn M, Wilson PM, et al. Concordance of Patient and Caregiver Reports on the Quality of Colorectal Cancer Care. *J Oncol Pract.* 2019 Nov;15(11):e979-e988.
196. Enkinson C, Coulter A, Bruster S. The Picker Patient Experience Questionnaire: development and validation using data from in-patient surveys in five countries. *Int J Qual Health Care.* 2002 Oct;14(5), p : 353-8.
197. Giordano LA, Elliott MN, Goldstein E, et al. Development, implementation, and public reporting of the HCAHPS survey. *Med Care Res Rev.* 2010;67, p :27–37.
198. Nunally J, Bernstein I. *Psychometric Theory* 3rd ed. New York. 1994.
199. Crocker L. and Algina J. *Introduction to classical and modern test theory.* New York. Holt, Rinehart & Winston ; 1986.
200. Ware J Jr, Kosinski M, Keller SD. A 12-Item Short-Form Health Survey: construction of scales and preliminary tests of reliability and validity. *Med Care.* 1996 Mar;34(3), p :220-33.
201. Baumstarck K, Alessandrini M, Hamidou Z, et al. Assessment of coping: a new french four-factor structure of the brief COPE inventory. *Health Qual Life Outcomes* 2017;15 (1):8
202. Harwood RH, Rogers A, Dickinson E, et al. Measuring handicap: the London Handicap Scale, a new outcome measure for chronic disease. *Qual Health Care* 1994;3, p :11-16.
203. Anthony-Bergstone CR, Zarit SH, Gatz M. Symptoms of psychological distress among caregivers of dementia patients. *Psychol Aging.* 1988 Sep;3(3), p :245-8.
204. Thompson AJ, Baranzini SE, Geurts J, et al. Multiple sclerosis. *Lancet.* 2018 Apr 21;391(10130), p : 1622-36.
205. Lazarus R.S, Folkman S. *Stress, appraisal and coping.* New York. Springer, 1984. 444 p.
206. Untas A, Koleck M, Rasclé N, et al. From the transactional model to a dyadic approach in health psychology. *Psychologie française.* 2012 Juin; 57(2), p : 97-110
207. Pakenham KI. Adjustment to multiple sclerosis: application of a stress and coping model. *Health Psychol.* 1999 Jul;18(4), p :383-92.
208. Lode K, Bru E, Klevan G, et al. Coping with multiple sclerosis: a 5-year follow-up study. *Acta Neurol Scand.* 2010 Nov;122(5), p : 336-42.
209. Bodenmann G, Randall AK. Common factors in the enhancement of dyadic coping. *Behav Ther.* 2012 Mar;43(1), p : 88-98.
210. Fitch K, Bernstein SJ, Aguilar MD, et al. *The RAND/UCLA appropriateness method user's manual.* Santa Monica, Calif: RAND Corporation; 2001, 126 p.
211. Lord FM. *Applications of Item Response Theory To Practical Testing Problems.* Routledge; 1980, 288 p.
212. Wainer H, Dorans NJ. *Computerized Adaptive Testing: A Primer.* Taylor & Francis Group; 2000, 360 p.
213. Ackerman T. Developments in Multidimensional Item Response Theory. *Appl Psychol Meas.* 1996 Dec 1;20(4), p : 309–10.
214. Michel P, Baumstarck K, Ghattas B, et al. A Multidimensional Computerized Adaptive Short-Form Quality of Life Questionnaire Developed and Validated for Multiple Sclerosis: The MusiQoL-MCAT. *Medicine (Baltimore).* 2016 Apr;95(14):e3068.
215. Michel P, Baumstarck K, Loundou A, et al. Computerized adaptive testing with decision regression trees: an alternative to item response theory for quality of life measurement in multiple sclerosis. *Patient Prefer Adherence.* 2018 Jun 19;12, p :1043-53.

216. Michel P, Baumstarck K, Lancon C, et al. Modernizing quality of life assessment: development of a multidimensional computerized adaptive questionnaire for patients with schizophrenia. *Qual Life Res.* 2018 Apr;27(4), p : 1041-54.
217. Methley AM, Chew-Graham C, Campbell S, et al. Experiences of UK health-care services for people with Multiple Sclerosis: a systematic narrative review. *Health Expect.* 2015 Dec;18(6), p :1844-55.
218. Duddy M, Lee M, Pearson O, et al. The UK patient experience of relapse in Multiple Sclerosis treated with first disease modifying therapies. *Mult Scler Relat Disord.* 2014 Jul;3(4), p : 450-6.
219. Nazareth TA, Rava AR, Polyakov JL, et al. Relapse prevalence, symptoms, and health care engagement: patient insights from the Multiple Sclerosis in America 2017 survey. *Mult Scler Relat Disord.* 2018 Nov;26, p : 219-34.
220. Tintoré M, Alexander M, Costello K, et al. The state of multiple sclerosis: current insight into the patient/health care provider relationship, treatment challenges, and satisfaction. *Patient Prefer Adherence.* 2016 Dec 22;11, p : 33-45.
221. Health Union, Multiple Sclerosis in America, disponible sur <https://health-union.com/blog/multiple-sclerosis-in-america-2020>
222. Vijayan SA J. Cook L. Haskins Z et al. Poster 79. Establishment of the first at-home natalizumab infusion service for the treatment of relapsing remitting multiple sclerosis (rrms). *Journal of Neurology, Neurosurgery, and Psychiatry.* 2017;88 : e1
223. Schultz TT, A. Georgiou, P. Juaton, et al. Piloting home infusions of natalizumab : A randomised crossover trial 2018;89:A10;
224. Schultz TJ, Thomas A, Georgiou P, et al. Home infusions of natalizumab for people with multiple sclerosis: a pilot randomised crossover trial. *Ann Clin Transl Neurol.* 2021, Aug;8(8), p : 1610-1621.

9 Annexes :

9.1 Versions V0 et V1 des questionnaires patients et proches aidants :

9.1.1 Version V0 du questionnaire patients :

Elaboration d'un questionnaire évaluant la qualité des soins perçue par les patients présentant une sclérose en plaques

1. Notice d'information

Madame, Monsieur,

Le Dr David Veillard (praticien au CHU de Rennes), en collaboration avec les équipes de neurologie de votre région, vous propose de participer à une étude intitulée « *Elaboration d'un questionnaire évaluant la qualité des soins perçue par les patients présentant une sclérose en plaques* ».

Cette notice est destinée à vous fournir les explications nécessaires sur l'objectif et le déroulement de cette étude, afin que vous puissiez donner votre accord pour y participer, si vous le souhaitez, en toute connaissance de cause et sans obligation de votre part. Votre participation à l'étude est volontaire. Vous êtes libre d'accepter ou de refuser sans conséquence sur vos relations avec le personnel soignant ou sur votre prise en charge.

Objectif

L'objectif de cette étude est de développer un questionnaire évaluant la qualité des soins que vous recevez, pour votre SEP, à partir de votre point de vue. En effet, des études ont souligné les discordances qui peuvent exister entre le point de vue des professionnels et celui des patients sur leur prise en charge. La mise au point d'un questionnaire pour recueillir votre opinion et votre perception dans l'évaluation de la qualité des soins est nécessaire pour contribuer à l'amélioration de votre prise en charge.

Déroulement

Nous vous sollicitons pour la première étape de validation de ce questionnaire qui a été élaboré à partir de l'analyse d'entretiens réalisés avec des patients. C'est cette liste de questions que nous vous soumettons.

Nous vous demandons de la lire attentivement afin de nous indiquer si chaque question est clairement énoncée et compréhensible, de proposer la modification ou la suppression ou l'ajout de certains mots utilisés, de donner votre avis sur la pertinence ou l'importance de certaines questions. Enfin, à la fin de votre lecture nous vous demandons de nous indiquer si des sujets, des questions qui vous paraissent importants au regard des objectifs de l'étude n'ont pas été intégrés à ce questionnaire. Toutes vos suggestions seront ensuite analysées par les responsables de l'étude et seront utilisées pour reformuler certaines questions dans une nouvelle version du questionnaire.

Pour obtenir d'autres informations

Vous pouvez joindre le Docteur

David Veillard

.....

Pour chaque question, veuillez cocher la case qui vous correspond le plus

Au cours des <u>3 derniers mois</u> , les <u>informations</u> que vous avez reçues concernant...	Mieux que souhaité	Comme souhaité	Un peu moins que souhaité	Beaucoup moins que souhaité	Non concerné(e)	Vos remarques (cf. notice d'information)	
1 les causes de votre maladie, ont été	accessibles	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
	Compréhensibles	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
	suffisantes	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
2 les symptômes de votre maladie, ont été	Accessibles	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
	Compréhensibles	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
	suffisantes	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
3 les évolutions possibles de votre maladie, ont été	Accessibles	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
	Compréhensibles	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
	suffisantes	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
4 les impacts de votre maladie sur votre vie quotidienne , ont été	Accessibles	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
	Compréhensibles	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
	suffisantes	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
5 les raisons de vos traitements et vos soins, ont été	Accessibles	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
	Compréhensibles	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
	suffisantes	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
6 les effets secondaires de vos traitements et vos soins, ont été	Accessibles	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
	Compréhensibles	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
	suffisantes	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	

7	les façons de prendre vos traitements et de réaliser de vos soins (ex : fréquence, durée, dosage, mode d'administration, sondages, injections, etc.), ont été	accessibles	<input type="checkbox"/>				
		compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
		suffisantes	<input type="checkbox"/>				

8	les raisons pour lesquelles vos examens médicaux et analyses biologiques ont été prescrits, ont été	accessibles	<input type="checkbox"/>				
		compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
		suffisantes	<input type="checkbox"/>				

Pour chaque question, veuillez cocher la case qui vous correspond le plus

Au cours des <u>3 derniers mois</u> , les <u>informations</u> que vous avez reçues concernant...	Mieux que souhaité	Comme souhaité	Un peu moins que souhaité	Beaucoup moins que souhaité	Non concerné(e)	Vos remarques (cf. notice d'information)
--	--------------------	----------------	---------------------------	-----------------------------	-----------------	--

9	le déroulement des examens médicaux et analyses biologiques que vous avez réalisés, ont été	accessibles	<input type="checkbox"/>				
		compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
		suffisantes	<input type="checkbox"/>				

10	les résultats des examens médicaux et analyses biologiques que vous avez	accessibles	<input type="checkbox"/>				
----	---	-------------	--------------------------	--------------------------	--------------------------	--------------------------	--------------------------

	réalisés, ont été					
	compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
	suffisantes	<input type="checkbox"/>				
1	les aides					
1	médico-sociales existantes (ex : accès aux aides à domicile, obtention du statut de travailleur handicapé, obtention de l'allocation adulte handicapé, etc.), ont été					
	accessibles	<input type="checkbox"/>				
	Compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
	suffisantes	<input type="checkbox"/>				
1	l'aménagement					
2	de votre temps de travail, ont été					
	accessibles	<input type="checkbox"/>				
	compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
	suffisantes	<input type="checkbox"/>				
1	le matériel					
3	paramédical qui pourrait être utile dans votre vie quotidienne (ex : canne, fauteuil, lit médicalisé et autre matériel ergonomique), ont été					
	accessibles	<input type="checkbox"/>				
	compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
	suffisantes	<input type="checkbox"/>				
1	les					
4	aménagements qui pourraient être utiles dans votre vie quotidienne (ex : de votre					
	accessibles	<input type="checkbox"/>				

domicile, de
votre véhicule,
de votre lieu de
travail), ont été

Compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
suffisantes	<input type="checkbox"/>				

Au cours des 3 derniers mois,

Pour chaque question, veuillez cocher la case qui vous correspond le plus

Le médecin neurologue qui s'est occupé de vous...

	Mieux que souhaité	Comme souhaité	Un peu moins que souhaité	Beaucoup moins que souhaité	Non concerné(e)	Vos remarques (cf. notice d'information)
15 a fait preuve de compréhension	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
16 a été à votre écoute	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
17 vous a mis(e) en confiance	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
18 vous a rassuré(e)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
19 vous a considéré(e) comme une « personne à part entière »	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
20 a répondu à vos questions	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
21 a respecté la confidentialité des informations vous concernant	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
22 a transmis aux autres professionnels les informations vous concernant	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	

23	a transmis à vos proches les informations vous concernant	<input type="checkbox"/>				
24	a répondu aux questions de vos proches	<input type="checkbox"/>				
25	a pris en compte l'avis de vos proches	<input type="checkbox"/>				

Au cours des 3 derniers mois,

Pour chaque question, veuillez cocher la case qui vous correspond le plus

Le médecin neurologue qui s'est occupé de vous...

	Mieux que souhaité	Comme souhaité	Un peu moins que souhaité	Beaucoup moins que souhaité	Non concerné(e)	Vos remarques (cf. notice d'information)
26	vous a orienté(e) vers les autres professionnels	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
27	a pris en compte votre avis dans le choix de vos traitements médicamenteux (ex : type de traitement, changement de traitement, refus d'un traitement, arrêt du traitement)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
28	a pris en compte votre avis concernant les autres soins (ex : mise sous auto-sondage, injection de toxines botuliques, intervention chirurgicale, etc.)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Au cours des 3 derniers mois,

Pour chaque question, veuillez cocher la case qui vous correspond le plus

le médecin rééducateur qui s'est occupé de vous...

	Mieux que souhaité	Comme souhaité	Un peu moins que souhaité	Beaucoup moins que souhaité	Non concerné(e)	Vos remarques (cf. notice d'information)
29 a fait preuve de compréhension	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
30 a été à votre écoute	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
31 vous a mis(e) en confiance	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
32 vous a rassuré(e)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
33 vous a considéré(e) comme une « personne à part entière »	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
34 a répondu à vos questions	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
35 a respecté la confidentialité des informations concernant	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
36 a transmis aux autres professionnels les informations concernant	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
37 a transmis à vos proches les informations vous concernant	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
38 a répondu aux questions de vos proches	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	

Au cours des 3 derniers mois,

Pour chaque question, veuillez cocher la case qui vous correspond le plus

le médecin rééducateur qui s'est occupé de vous...

Mieux que souhaité	Comme souhaité	Un peu moins que souhaité	Beaucoup moins que souhaité	Non concerné(e)
--------------------------	-------------------	------------------------------------	--------------------------------------	--------------------

Vos
remarques
(cf. notice
d'information)

40 vous a orienté(e) vers les
autres professionnels

41 a pris en compte votre avis
dans le choix de vos
traitements
médicamenteux (ex : type
de traitement, changement
de traitement, refus d'un
traitement, arrêt du
traitement)

42 a pris en compte votre avis
concernant les autres soins
(ex : mise sous auto-
sondage,
injection de toxines
botuliques, intervention
chirurgicale, etc.)

Au cours des 3 derniers mois, les autres professionnels

Pour chaque question, veuillez cocher la case qui vous correspond le plus

(ex : kinésithérapeute, infirmiers, psychologue,

assistante sociale, ergothérapeute)

qui se sont occupés de vous...

	Mieux que souhaité	Comme souhaité	Un peu moins que souhaité	Beaucoup moins que souhaité	Non concerné(e)	Vos remarques (cf. notice d'information)
43 A fait preuve de compréhension	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
44 A été à votre écoute	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
45 vous a mis(e) en confiance	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
46 vous ont rassuré(e)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
47 vous ont considéré(e) comme une « personne à part entière »	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
48 ont répondu à vos questions	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
49 ont respecté la confidentialité des informations vous concernant	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
50 ont transmis aux autres professionnels les informations vous concernant	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
51 ont transmis à vos proches les informations vous concernant	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
52 ont répondu aux questions de vos proches	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	

53	ont pris en compte l'avis de vos proches	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
54	vous ont orienté(e) vers les autres professionnels	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
<p>Au cours des 3 derniers mois, considérez-vous que...</p> <p>chaque question, veuillez cocher la case qui vous correspond le plus</p>							
		Mieux que souhaité	Comme souhaité	Un peu moins que souhaité	Beaucoup moins que souhaité	Non concerné(e)	Vos remarques (cf. notice d'information)
55	vos douleurs ont été prises en compte	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
56	votre fatigue a été prise en compte	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
57	vos pertes de mémoire et/ou vos difficultés à vous concentrer ont été prises en compte	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
58	vos autres symptômes ont été pris en compte (ex : fourmillements, spasmes, raideurs, difficultés à parler, difficultés à écrire, etc.)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
59	les effets secondaires de vos traitements ont été pris en compte	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
60	vos troubles du sommeil ont été pris en compte	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
61	votre humeur/moral (ex : stress, angoisse, déprime, etc.) a été pris en compte	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	

62 vos besoins
alimentaires ont
été pris en compte

63 votre vie intime et
sexuelle a été prise
en compte

Au cours des 3 derniers mois, les délais pour...
cocher la case qui vous correspond le plus

Pour chaque question, veuillez

	Mieux que souhaité	Comme souhaité	Un peu moins que souhaité	Beaucoup moins que souhaité	Non concerné(e)	Vos remarques (cf. notice d'information)
64 contacter le(s) professionnel(s) de votre choix, vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
65 être pris(e) en charge par le(s) professionnel(s) de votre choix, vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
66 réaliser vos examens médicaux et analyses biologiques, vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
67 obtenir les résultats de vos examens médicaux et analyses biologiques, vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
68 accéder à un traitement médicamenteux, vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
69 bénéficier des prestations médico-sociales (ex : accès aux aides à domicile, obtention de l'allocation adulte handicapé, etc.), vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
70 disposer de matériel paramédical pour votre vie quotidienne (ex : canne, fauteuil, lit médicalisé et autre matériel ergonomique), vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
71 disposer d'aménagements pour votre vie quotidienne (ex : de votre domicile, de votre véhicule, de votre lieu de travail), vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
72 disposer d'un aménagement de votre	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	

temps de travail, vous
ont paru

Au cours des 3 derniers mois, ...

Pour chaque question, veuillez

cocher la case qui vous correspond le plus

	Mieux que souhaité	Comme souhaité	Un peu moins que souhaité	Beaucoup moins que souhaité	Non concerné(e)	Vos remarques (cf. notice d'information)
--	--------------------------	-------------------	------------------------------------	--------------------------------------	--------------------	---

73 le confort des lieux de soins
(ex : accessibilité, sanitaires,
parking, etc.), vous a paru

74 la propreté des lieux de
soins, vous a paru

75 le temps d'attente dans les
lieux de soins, vous a paru

76 Le respect de l'intimité dans
les lieux de soins, vous a paru

Commentaire libre

Dans l'espace ci-dessous, vous pouvez compléter vos commentaires précédents par des remarques plus générales sur l'ensemble du questionnaire.

Merci de votre collaboration

9.1.2 Version V1 du questionnaire patients :

NOTICE EXPLICATIVE

Vous avez accepté de participer à une étude portant sur la perception de la qualité des soins par des personnes présentant les mêmes symptômes ou la même maladie que vous.

Voici une série de questionnaires, incluant le questionnaire de perception de la qualité des soins que nous souhaitons élaborer.

Nous vous remercions sincèrement de bien vouloir compléter l'ensemble de ces documents indispensables pour la validation du questionnaire « qualité perçue » avant de nous les retourner. Vos réponses resteront strictement confidentielles et vous serez bien sûr tenu(e) informé(e) des résultats de notre travail de recherche.

Ce livret comprend :

- Un recueil d'informations sociodémographiques portant sur votre situation familiale, sociale et professionnelle,
- Le questionnaire de perception de la qualité des soins comprenant 64 questions,
- Des échelles portant sur la perception de la qualité des soins et sur vos symptômes,
- Le questionnaire MusiQoL : il s'agit d'un questionnaire comportant 31 questions, permettant de mesurer les répercussions de votre maladie sur votre qualité de vie,
- Le questionnaire SF12 : il s'agit d'un questionnaire comportant 12 questions, permettant de mesurer votre qualité de vie en général,
- **Le questionnaire BRIEF COPE** : il s'agit d'un questionnaire comportant 28 questions, permettant d'évaluer votre façon de faire face au stress,
- **Le questionnaire London Handicap Scale** : Il s'agit d'un questionnaire comportant 6 questions, permettant d'évaluer le niveau de votre handicap.

Par avance nous vous remercions sincèrement pour votre participation

Et nous restons à votre disposition pour toute question, toute information complémentaire que vous jugeriez nécessaires

DONNEES PERSONNELLES

- **Etes-vous ?** Une femme Un homme

- Quel âge avez-vous ? || ans

- Quelle est votre situation familiale actuelle ?

Seul(e) (Célibataire, Divorcé(e), Veuf(ve))

Marié(e)/En couple/En concubinage

▪ Quel est le niveau scolaire le plus élevé que vous ayez atteint ?

Niveau brevet ou inférieur

Niveau CAP/BEP

Niveau lycée – Terminale

Niveau Baccalauréat et plus

▪ Avez-vous des enfants ?

Non

Oui, nombre _____

▪ Travaillez-vous actuellement ?

Non Si non, vous êtes

étudiant(e)

En recherche d'emploi

retraité(e)

en arrêt maladie en raison de la maladie

en invalidité du fait de la maladie

autre _____

Oui Si oui, vous travaillez

à temps complet

à temps partiel

occasionnellement

Si vous travaillez ou avez déjà travaillé, quelle est (était) votre profession ?

▪ Votre statut de travail a-t-il changé depuis que vous êtes malade ?

Non

Oui Si oui, vous avez changé

De temps complet à temps partiel

De temps partiel à l'arrêt de votre activité

Autres situations : _____

▪ Où vivez-vous actuellement ?

A mon propre domicile

Au domicile de mes parents ou d'amis

Dans une structure de soins Autre ; merci de préciser _____

- Pourriez-vous désigner quelqu'un de votre entourage comme votre « proche aidant principal » ?

(personne de votre entourage qui vous accompagne, vous soutient face aux événements et aux conséquences liées à la maladie)

Non, je n'ai pas d'aidant principal tel que cela est défini

Oui,

Si oui, pourriez-vous préciser s'il s'agit de :

- votre conjoint un de vos enfants
 votre père votre mère
 un frère une sœur
 autre (merci de préciser) _____

- Connaissez-vous la forme de votre maladie ?

Non

Oui Si oui, est-elle Rémittente ? Progressive ?

- Connaissez-vous l'année d'apparition de vos premiers symptômes ?

Non

Oui Si oui, merci de préciser : _____

- Avez-vous un traitement de fond ?

Non

Oui Si oui, quel est le nom de votre traitement : _____

- Êtes-vous actuellement suivi par un médecin spécialisé (neurologue, médecin rééducateur...) dans la prise en charge de la SEP ?

Non Si non, pour quelle raison : _____

Oui Si oui, pourriez-vous nous indiquer son nom ?
.....

- Dans quel service hospitalier ou dans quel cabinet de neurologie êtes-vous suivi dans le cadre de votre SEP ?

▪ Souffrez-vous d'une autre pathologie ou d'évènements intercurrents de santé ?

Non

Oui Si oui, merci de préciser : _____

QUESTIONNAIRE DE PERCEPTION DE LA QUALITE DES SOINS

Ce questionnaire a pour objectif d'évaluer VOTRE PERCEPTION, VOTRE RESSENTI et VOTRE VECU sur la qualité des soins que vous recevez. C'est votre point de vue, en tant que patient, que nous souhaitons prendre en compte, sur la période des 12 derniers mois écoulés. Nous vous remercions de lire attentivement chaque question et de cocher la case qui correspond le plus à votre situation. Si une question ne s'applique pas à votre situation ou si vous ne vous sentez pas concerné(e), merci de cocher la réponse « ne se prononce pas / non concerné(e) ». Enfin pour toutes remarques ou commentaires, vous disposez d'une zone de commentaires libres à la fin de ce questionnaire.

Veillez cocher la case qui vous correspond le plus

Au cours des 12 derniers mois, de façon générale, les informations que vous avez reçues concernant...	Tout à fait d'accord	Plutôt d'accord	Plutôt en désaccord	Pas du tout d'accord	Ne se prononce pas
1 les causes de votre maladie, ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
2 les causes de votre maladie, ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				
3 les symptômes de votre maladie, ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
4 les symptômes de votre maladie, ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				
5 les évolutions possibles de votre maladie, ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
6 les évolutions possibles de votre maladie, ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				
7 les impacts de votre maladie sur votre vie quotidienne, ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
8 les impacts de votre maladie sur votre vie quotidienne, ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				
9 les raisons de vos traitements et vos soins, ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
10 les raisons de vos traitements et vos soins, ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				
11 les effets secondaires de vos traitements et vos soins, ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				

12	les effets secondaires de vos traitements et vos soins, ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
13	les façons de prendre vos traitements et de réaliser de vos soins (ex : fréquence, durée, dosage, mode d'administration, sondages, injections, etc.), ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
14	les façons de prendre vos traitements et de réaliser de vos soins (ex : fréquence, durée, dosage, mode d'administration, sondages, injections, etc.), ont été suffisantes	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
15	les raisons pour lesquelles vos examens médicaux et analyses biologiques, ont été prescrits ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
16	les raisons pour lesquelles vos examens médicaux et analyses biologiques, ont été prescrits ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Veillez cocher la case qui vous correspond le plus

	Tout fait d'accord	à Plutôt d'accord	Plutôt en désaccord	Pas tout d'accord	du Ne se prononce pas
17 le déroulement des examens médicaux et analyses biologiques que vous avez réalisés, ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
18 le déroulement des examens médicaux et analyses biologiques que vous avez réalisés, ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				
19 les résultats des examens médicaux et analyses biologiques que vous avez réalisés, ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
20 les résultats des examens médicaux et analyses biologiques que vous avez réalisés, ont été suffisants	<input type="checkbox"/>				
21 les aides médico-sociales existantes (accès aux aides à domicile, obtention du statut et de l'allocation de personne handicapée, accès aux aides financières, humaines ou techniques, etc.), ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
22 les aides médico-sociales existantes (accès aux aides à domicile, obtention du statut et de l'allocation de personne handicapée, accès aux aides financières, humaines ou techniques, etc.), ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				
23 l'aménagement possible de votre temps de travail, ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
24 l'aménagement possible de votre temps de travail, ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				
25 le matériel paramédical qui pourrait être utile dans votre	<input type="checkbox"/>				

	<p>vie quotidienne (fauteuil roulant, canne, lit médicalisé, lève-malade et autre matériel ergonomique), ont été compréhensibles</p>					
26	<p>le matériel paramédical qui pourrait être utile dans votre vie quotidienne (fauteuil roulant, canne, lit médicalisé, lève-malade et autre matériel ergonomique), ont été suffisantes</p>	<input type="checkbox"/>				
27	<p>les aménagements matériels qui pourraient être utiles dans votre vie quotidienne (ex : de votre domicile, de votre véhicule, de votre lieu de travail) ont été compréhensibles</p>	<input type="checkbox"/>				
28	<p>les aménagements matériels qui pourraient être utiles dans votre vie quotidienne (ex : de votre domicile, de votre véhicule, de votre lieu de travail), ont été suffisantes</p>	<input type="checkbox"/>				

Les questions suivantes concernent votre relation avec les professionnels de santé. Veuillez cocher, parmi les propositions suivantes, **le professionnel de santé** que vous considérez comme étant **le plus important dans votre prise en charge** (au cours des 12 derniers mois) :

- Le médecin neurologue Le médecin rééducateur Le médecin généraliste Le kinésithérapeute Autre (précisez) _____

		Veuillez cocher la case qui vous correspond le plus				
Au cours des 12 derniers mois, le professionnel de santé que vous considérez le plus important dans votre prise en charge...		Tout fait d'accord	à Plutôt d'accord	Plutôt en désaccord	Pas tout d'accord	Ne se prononce pas
29	a fait preuve de compréhension	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
30	a été à votre écoute	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
31	vous a mis(e) en confiance	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
32	vous a rassuré(e)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
33	vous a considéré(e) comme une « personne à part entière »	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
34	a répondu à vos questions	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
35	a respecté la confidentialité des informations vous concernant	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
36	a transmis aux autres professionnels les informations vous concernant	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
37	a transmis à vos proches aidants (conjoint(e), enfant(s), parent(s), ami(e)s)) les informations vous concernant	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
38	a répondu aux questions de vos proches aidants (conjoint(e), enfant(s), parent(s), ami(es))	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
39	a pris en compte l'avis de vos proches aidants (conjoint(e), enfant(s), parent(s), ami(es))	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
40	vous a orienté(e) vers les autres professionnels	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
41	a pris en compte votre avis dans le choix de vos traitements médicamenteux	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

(type de traitement,
changement de traitement,
refus d'un traitement, arrêt du
traitement)

42	a pris en compte votre avis concernant les autres soins (mise sous auto-sondage, injection de toxines botuliques, intervention chirurgicale, etc.)	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
----	--	-------------------------------------	--------------------------	--------------------------	--------------------------	--------------------------

Veillez cocher la case qui vous correspond le plus

Au cours des 12 derniers mois, l'ensemble des professionnels de santé ont pris en compte...		Tout fait d'accord	à Plutôt d'accord	Plutôt en désaccord	Pas tout d'accord	du Ne se prononce pas
43	vos douleurs	<input type="checkbox"/>				
44	votre fatigue	<input type="checkbox"/>				
45	vos pertes de mémoire et/ou vos difficultés à vous concentrer	<input type="checkbox"/>				
46	vos troubles du sommeil	<input type="checkbox"/>				
47	les effets secondaires de vos traitements	<input type="checkbox"/>				
48	vos autres symptômes (fourmillements, spasmes, raideurs, difficultés à parler, difficultés à écrire, etc.)	<input type="checkbox"/>				
49	votre humeur/moral (stress, angoisse, déprime, etc.)	<input type="checkbox"/>				
50	vos besoins alimentaires	<input type="checkbox"/>				
51	votre vie intime et sexuelle	<input type="checkbox"/>				

Veillez cocher la case qui vous correspond le plus

Au cours des 12 derniers mois, les délais pour...	Mieux que souhaité	Comme souhaité	Un peu moins que souhaité	Beaucoup moins que souhaité	Ne se prononce pas
52 contacter le(s) professionnel(s) de votre choix, vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
53 être pris(e) en charge par le(s) professionnel(s) de votre choix, vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
54 réaliser vos examens médicaux et analyses biologiques, vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
55 obtenir les résultats de vos examens médicaux et analyses biologiques, vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
56 accéder à un traitement médicamenteux, vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
57 bénéficier des prestations médico-sociales (accès aux aides à domicile, obtention de l'allocation adulte handicapé, etc.), vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
58 disposer de matériel paramédical pour votre vie quotidienne (fauteuil, canne, lit médicalisé et autre matériel ergonomique), vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
59 disposer d'aménagements matériels pour votre vie quotidienne (votre domicile, votre véhicule, votre lieu de travail), vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
60 disposer d'un aménagement possible de votre poste et temps de travail, vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Veillez cocher la case qui vous correspond le plus

	<u>Au cours des 12 derniers mois,</u> concernant les lieux de soins	Mieux que souhaité	Comme souhaité	Un peu moins que souhaité	Beaucoup moins que souhaité	Ne se prononce pas
61	le confort (en terme de accessibilité, sanitaires, parking, etc.) vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
62	la propreté vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
63	le temps d'attente vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
64	le respect de l'intimité vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>

ECHELLES DE MESURE DE LA PERCEPTION DE LA QUALITE DES SOINS

Comment considérez-vous en général depuis le début de votre maladie la qualité de votre prise en charge (entourez la réponse de votre choix sur l'échelle suivante) :

0 1 2 3 4 5 6 7 8 9 10

Très mauvaise

Excellente

Comment considérez-vous en ce moment la qualité de votre prise en charge (entourez la réponse qui vous convient le mieux) :

0 1 2 3 4 5 6 7 8 9 10

Très mauvaise

Excellente

9.1.3 Version V0 du questionnaire proches aidants :

Centre <input type="text"/>	Aidant <input type="text"/>	Nom <input type="text"/>	Prénom <input type="text"/>
-----------------------------	-----------------------------	--------------------------	-----------------------------

(remplir cet encadré)

Elaboration d'un questionnaire évaluant la qualité des soins perçue par les aidants des patients présentant une sclérose en plaques

Notice d'information

Madame, Monsieur,

Le Dr David Veillard (praticien au CHU de Rennes), en collaboration avec les équipes de neurologie de votre région, vous propose de participer à une étude intitulée « *Elaboration d'un questionnaire évaluant la qualité des soins perçue par les aidants des patients présentant une sclérose en plaques* ».

Cette notice d'information est destinée à vous fournir les explications nécessaires sur l'objectif et le déroulement de cette étude, afin que vous puissiez donner votre accord pour y participer, si vous le souhaitez, en toute connaissance de cause et sans obligation de votre part. Votre participation à l'étude est volontaire. Vous êtes libre d'accepter ou de refuser sans conséquences sur les relations de la personne que vous aidez avec le personnel soignant ou sur sa prise en charge.

Objectif

L'objectif de cette étude est de développer un questionnaire évaluant la qualité des soins reçus par la personne que vous aidez, à partir de votre point de vue. En effet, des études ont souligné les discordances qui peuvent exister entre le point de vue des professionnels et celui des patients sur leur prise en charge. La mise à disposition d'outils traduisant votre opinion et votre perception dans l'évaluation de la qualité des soins reçus par la personne que vous aidez, est nécessaire pour contribuer à l'amélioration de sa prise en charge.

Déroulement

Aujourd'hui nous vous sollicitons pour contribuer à la validation de ce questionnaire. Des entretiens ont été réalisés avec des aidants de patients. Leur analyse a permis de produire les questions que nous vous soumettons afin d'appréhender votre propre perception des soins reçus par la personne que vous aidez. Nous vous demandons de les lire attentivement afin de nous indiquer si chaque question est clairement énoncée et compréhensible, de proposer la modification ou la suppression ou l'ajout de certains mots utilisés, de donner votre avis sur la pertinence ou l'importance de certaines questions. Nous vous demandons de reporter tous vos commentaires à la fin de ce questionnaire. Toutes vos suggestions seront ensuite analysées par les responsables de l'étude et seront utilisées pour reformuler certaines questions dans une nouvelle version du questionnaire.

Nous vous remercions sincèrement par avance de votre collaboration et restons à votre entière disposition

Pour obtenir des précisions ou d'autres informations

Vous pouvez joindre le Docteur **David Veillard**

Questionnaire de perception de la qualité des soins

Merci de reporter tous vos commentaires en fin de questionnaire

		Veuillez cocher la case qui vous correspond le plus				
<u>Au cours des 12 derniers mois,</u> de façon générale, les informations que votre proche a reçu concernant...		Tout fait D'accord	à Plutôt d'accord	Plutôt en d'accord	Pas tout d'accord	Ne se prononce pas
1	les causes de sa maladie ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2	les causes de sa maladie ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
3	les symptômes de sa maladie ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
4	les symptômes de sa maladie ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
5	les évolutions possibles de sa maladie ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
6	les évolutions possibles de sa maladie ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
7	les impacts de sa maladie sur sa vie quotidienne ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
8	les impacts de sa maladie sur sa vie quotidienne ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
9	les raisons de ses traitements et ses soins ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
10	les raisons de ses traitements et ses soins ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
11	les effets secondaires de ses traitements et ses soins ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
12	les effets secondaires de ses traitements et ses soins ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
13	les façons de prendre ses traitements et de réaliser ses soins (ex : fréquence, durée, dosage, mode d'administration,	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

	sondages, injections, etc.) ont été compréhensibles					
14	les façons de prendre ses traitements et de réaliser ses soins (ex : fréquence, durée, dosage, mode d'administration, sondages, injections, etc.) ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				
15	les raisons pour lesquelles ses examens médicaux et analyses biologiques ont été prescrits ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
16	les raisons pour lesquelles ses examens médicaux et analyses biologiques ont été prescrits ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				

Veillez cocher la case qui vous correspond le plus

<u>Au cours des 12 derniers mois,</u> de façon générale, les informations que votre proche a reçu concernant...	Tout fait D'accord	à Plutôt d'accord	Plutôt en d'accord	Pas tout d'accord	du Ne se prononce pas
17 le déroulement des examens médicaux et analyses biologiques que votre proche a réalisés ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
18 le déroulement des examens médicaux et analyses biologiques que votre proche a réalisés ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				
19 Les résultats de ses examens médicaux et analyses biologiques que votre proche a réalisés ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
20 Les résultats de ses examens médicaux et analyses biologiques que votre proche a réalisés ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				
21 les aides médico-sociales existantes (accès aux aides à domicile, obtention du statut et de l'allocation de personne handicapée, accès aux aides financières, humaines ou techniques, etc.) ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
22 les aides médico-sociales existantes (accès aux aides à domicile, obtention du statut et de l'allocation de personne handicapée, accès aux aides financières, humaines ou techniques, etc.) ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				
23 l'aménagement possible de son temps de travail ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
24 l'aménagement possible de son temps de travail ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				

25	le matériel paramédical qui pourrait être utile dans sa vie quotidienne (fauteuil roulant, canne, lit médicalisé, lève-malade et autre matériel ergonomique) ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
26	le matériel paramédical qui pourrait être utile dans sa vie quotidienne (fauteuil roulant, canne, lit médicalisé, lève-malade et autre matériel ergonomique) ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				
27	les aménagements matériels qui pourraient être utiles dans sa vie quotidienne (ex : de votre domicile, de votre véhicule, de votre lieu de travail) ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
28	les aménagements matériels qui pourraient être utiles dans sa vie quotidienne (ex : de votre domicile, de votre véhicule, de votre lieu de travail) ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				

Veillez cocher la case qui vous correspond le plus

	Au cours des 12 derniers mois, le neurologue qui s'est occupé de votre proche ...	Tout fait D'accord	à Plutôt d'accord	Plutôt en d'accord	Pas tout d'accord	Ne se prononce pas
29	a fait preuve de compréhension	<input type="checkbox"/>				
30	a été à son écoute	<input type="checkbox"/>				
31	l'a mis en confiance	<input type="checkbox"/>				
32	l'a rassuré	<input type="checkbox"/>				
33	l'a considéré comme une « personne à part entière »	<input type="checkbox"/>				
34	a répondu à ses questions	<input type="checkbox"/>				
35	a respecté la confidentialité des informations le concernant	<input type="checkbox"/>				

36	a transmis aux autres professionnels les informations le concernant	<input type="checkbox"/>				
37	vous a transmis les informations le concernant	<input type="checkbox"/>				
38	a répondu à vos questions	<input type="checkbox"/>				
39	a pris en compte votre avis	<input type="checkbox"/>				
40	l'a orienté(e) vers les autres professionnels	<input type="checkbox"/>				
41	a pris en compte son avis dans le choix de ses traitements médicamenteux (type de traitement, changement de traitement, refus d'un traitement, arrêt du traitement)	<input type="checkbox"/>				
42	a pris en compte son avis concernant les autres soins (mise sous auto-sondage, injection de toxines botuliques, intervention chirurgicale, etc.)	<input type="checkbox"/>				

Veillez cocher la case qui vous correspond le plus

<u>Au cours des 12 derniers mois, le médecin rééducateur qui s'est occupé de votre proche ...</u>	Tout à fait D'accord	Plutôt d'accord	Plutôt en d'accord	Pas du tout d'accord	Ne se prononce pas
43 a fait preuve de compréhension	<input type="checkbox"/>				
44 a été à son écoute	<input type="checkbox"/>				
45 l'a mis en confiance	<input type="checkbox"/>				
46 l'a rassuré	<input type="checkbox"/>				
47 l'a considéré comme une « personne à part entière »	<input type="checkbox"/>				
48 a répondu à ses questions	<input type="checkbox"/>				
49 a respecté la confidentialité des informations le concernant	<input type="checkbox"/>				

50	a transmis aux autres professionnels les informations le concernant	<input type="checkbox"/>				
51	vous a transmis les informations le concernant	<input type="checkbox"/>				
52	a répondu à vos questions	<input type="checkbox"/>				
53	a pris en compte votre avis	<input type="checkbox"/>				
54	l'a orienté(e) vers les autres professionnels	<input type="checkbox"/>				
55	a pris en compte son avis dans le choix de ses traitements médicamenteux (type de traitement, changement de traitement, refus d'un traitement, arrêt du traitement)	<input type="checkbox"/>				
56	a pris en compte son avis concernant les autres soins (mise sous auto-sondage, injection de toxines botuliques, intervention chirurgicale, etc.)	<input type="checkbox"/>				

Veillez cocher la case qui vous correspond le plus

<u>Au cours des 12 derniers mois, les autres professionnels de santé</u> (kinésithérapeutes, infirmiers, psychologues, assistances sociales, ergothérapeutes...) qui se sont occupés de votre proche ...	Tout à fait D'accord	Plutôt d'accord	Plutôt en d'accord	Pas du tout d'accord	Ne se prononce pas
57	<input type="checkbox"/>				

58	ont été à son écoute	<input type="checkbox"/>				
59	l'ont mis en confiance	<input type="checkbox"/>				
60	l'ont rassuré	<input type="checkbox"/>				
61	l'ont considéré comme une « personne à part entière »	<input type="checkbox"/>				
62	ont répondu à ses questions	<input type="checkbox"/>				
63	ont respecté la confidentialité des informations le concernant	<input type="checkbox"/>				
64	ont transmis aux autres professionnels les informations le concernant	<input type="checkbox"/>				
65	vous ont transmis les informations le concernant	<input type="checkbox"/>				
66	ont répondu à vos questions	<input type="checkbox"/>				
67	ont pris en compte votre avis	<input type="checkbox"/>				
68	l'ont orienté(e) vers les autres professionnels	<input type="checkbox"/>				
69	ont pris en compte son avis dans le choix de ses traitements médicamenteux (type de traitement, changement de traitement, refus d'un traitement, arrêt du traitement)	<input type="checkbox"/>				
70	ont pris en compte son avis concernant les autres soins (mise sous auto-sondage, injection de toxines botuliques, intervention chirurgicale, etc.)	<input type="checkbox"/>				

		Veuillez cocher la case qui vous correspond le plus				
<u>Au cours des 12 derniers mois,</u> les professionnels de santé ont pris en compte...		Tout fait D'accord	à Plutôt d'accord	Plutôt en d'accord	Pas du tout d'accord	Ne se prononce pas
71	ses douleurs	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
72	sa fatigue	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
73	ses pertes de mémoire et/ou ses difficultés à vous concentrer	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
74	ses troubles du sommeil	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
75	les effets secondaires de ses traitements	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
76	ses autres symptômes (fourmillements, spasmes, raideurs, difficultés à parler, difficultés à écrire, etc.)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
77	son humeur et son moral (stress, angoisse, déprime, etc.)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
78	ses besoins alimentaires	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
79	sa vie intime et sexuelle	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

		Veuillez cocher la case qui vous correspond le plus				
<u>Au cours des 12 derniers mois,</u> les délais pour...		Rapides	Corrects	Trop longs	Inacceptables	Ne se prononce pas
80	contacter le(s) professionnel(s) de son choix, vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
81	être pris(e) en charge par le(s) professionnel(s) de son choix vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
82	réaliser ses examens médicaux et analyses biologiques, vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
83	obtenir les résultats de ses examens médicaux et analyses biologiques, vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
84	accéder à un traitement médicamenteux, vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
85	bénéficier des prestations médico-sociales (accès aux	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

	aides à domicile, obtention du statut et de l'allocation de personne handicapée, accès aux aides financières, humaines ou techniques etc.), vous ont paru					
86	disposer de matériel paramédical pour sa vie quotidienne (fauteuil, roulant, canne, lit médicalisé, lève malade et autre matériel ergonomique), vous ont paru	<input type="checkbox"/>				
87	disposer d'aménagements matériels pour sa vie quotidienne (ex : de votre domicile, de votre véhicule, de votre lieu de travail), vous ont paru	<input type="checkbox"/>				
88	disposer d'un aménagement possible de son poste et temps de travail, vous ont paru	<input type="checkbox"/>				

Veillez cocher la case qui vous correspond le plus

Au cours des 12 derniers mois, concernant les lieux de soins...	Mieux que souhaité	Comme souhaité	Un peu moins que souhaité	Beaucoup moins que souhaité	Ne se prononce pas
89 le confort (en termes de accessibilité, sanitaires, parking, etc.) vous a paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
90 la propreté vous a paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
91 le temps d'attente vous a paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
92 le respect de l'intimité vous a paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

9.1.4 Version V1 du questionnaire proches aidants :

Centre <input type="text"/>	Aidant <input type="text"/>	Nom <input type="text"/>	Prénom <input type="text"/>
-----------------------------	-----------------------------	--------------------------	-----------------------------

(remplir cet encadré)

Qualité perçue des soins

Questionnaire dédié aux aidants

Date

NOTICE EXPLICATIVE

Vous avez accepté de participer à une étude portant sur la perception de la qualité des soins par des aidants « naturels » (c'est-à-dire non professionnels) de patients présentant la même maladie que la personne que vous aidez. Voici une série de questionnaires, incluant le questionnaire de perception de la qualité des soins que nous souhaitons élaborer.

Nous vous remercions sincèrement de bien vouloir compléter l'ensemble de ces documents indispensables pour la validation du questionnaire « qualité perçue » avant de nous les retourner. Vos réponses resteront strictement confidentielles et vous serez bien sûr tenu(e) informé(e) des résultats de notre travail de recherche.

Ce livret que nous vous adressons aujourd'hui comprend :

- Un recueil d'informations sociodémographiques
- Le questionnaire de perception de la qualité des soins comportant 64 questions,
- Des échelles portant sur la perception de la qualité des soins et sur les symptômes de la personne que vous aidez,
- Un questionnaire SF12 : il s'agit d'un questionnaire comportant 12 questions, permettant de mesurer votre qualité de vie en général,
- Un questionnaire ZARIT : il s'agit d'un questionnaire comportant 22 questions, permettant d'évaluer la charge que représente votre rôle d'aidant au quotidien,
- Un questionnaire BRIEF COPE : il s'agit d'un questionnaire comportant 28 questions, permettant d'évaluer votre façon de faire face au stress
- Un questionnaire London Handicap Scale : il s'agit d'un questionnaire comportant 6 questions, permettant d'évaluer le niveau de handicap de la personne que vous aidez.

Par avance nous vous remercions sincèrement pour votre participation

Et nous restons à votre disposition pour toute question, toute information complémentaire que vous jugeriez nécessaires

DONNEES PERSONNELLES

- **Êtes-vous ?** Une femme Un homme

- Quel âge avez-vous ? || ans

- Quelle est votre situation familiale actuelle ?
 Seul(e) (Célibataire, Divorcé(e), Veuf(ve))
 En couple (Marié, en concubinage...)

- Quel est le niveau scolaire le plus élevé que vous ayez atteint ?
 Niveau brevet ou inférieur Niveau CAP/BEP
 Niveau lycée – Terminale Niveau Baccalauréat et plus

- **Avez-vous des enfants ?** Non Oui ; nombre _____

- Travaillez-vous actuellement ?
 Non Si non, vous êtes Etudiant(e)
 En recherche d'emploi
 Retraité(e)
 En arrêt maladie
 Autre _____
- Oui Si oui, vous travaillez A temps complet
 A temps partiel
 Occasionnellement

- Si vous travaillez ou avez déjà travaillé, quelle est (était) votre profession ?

- Votre statut de travail a-t-il changé depuis votre implication en tant qu'aidant ?

Non

Oui Si oui, vous avez changé De temps complet à temps partiel
 De temps partiel à l'arrêt de votre activité

Autres situations : _____

- Où vivez-vous actuellement ?

A mon propre domicile Au domicile de mes parents ou d'amis

Dans une structure de soins Autre ; merci de préciser _____

- Quelle est votre relation avec la personne que vous aidez ?

Conjoint(e) Ami(e)

Parents (père, mère, frère, sœur) Voisin(e)

Autre (ex : aide à domicile, etc.) : _____

- Connaissez-vous la forme de la maladie de la personne que vous aidez ?

Non

Oui Si oui, est-elle Rémittente ? Progressive ?

- Connaissez-vous l'année d'apparition des premiers symptômes de la personne que vous aidez ?

Non

Oui Si oui, merci de préciser : _____

- Dans quel service hospitalier ou dans quel cabinet de neurologie la personne que vous aidez est-elle suivie pour sa SEP ?

- Etes-vous seul(e) à prendre en charge la personne que vous aidez ?

Oui Non

- Actuellement, en moyenne, à combien d'heures estimez-vous le temps que vous consacrez chaque semaine à la personne aidée en tant qu'aidant principal?

_____ heures

▪ Quelle est la nature de l'aide que vous apportez au quotidien à la personne aidée ?

- Déplacement Courses Repas
 Toilette Habillage Soutien psychologique
 Aide aux tâches ménagères Aide administrative
 Accompagnement dans le parcours de soins (consultations, etc)
 Autre, merci de préciser _____

QUESTIONNAIRE DE PERCEPTION DE LA QUALITE DES SOINS

Ce questionnaire a pour objectif d'évaluer VOTRE PERCEPTION, VOTRE RESSENTI et VOTRE VECU sur la qualité des soins reçus par la personne, votre proche que vous aidez. C'est votre point de vue, en tant qu'aidant principal, que nous souhaitons prendre en compte, sur la période des 12 derniers mois écoulés. Nous vous remercions de lire attentivement chaque question et de cocher la case qui correspond le plus à votre situation. Si une question ne s'applique pas à votre situation ou si vous ne vous sentez pas concerné(e), merci de cocher la réponse « ne se prononce pas / non concerné(e) ». Enfin pour toutes remarques ou commentaires, vous disposez d'une zone de commentaires libres à la fin de ce questionnaire

Veillez cocher la case qui vous correspond le plus

	<u>Au cours des 12 derniers mois, de façon générale, les informations que votre proche a reçues concernant...</u>	Tout fait d'accord	à Plutôt d'accord	Plutôt désaccord	Pas tout d'accord	du Ne se prononce pas
1	les causes de sa maladie, ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
2	les causes de sa maladie, ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				
3	les symptômes de sa maladie, ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
4	les symptômes de sa maladie, ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				
5	les évolutions possibles de sa maladie, ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
6	les évolutions possibles de sa maladie, ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				
7	les impacts de sa maladie sur sa vie quotidienne, ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
8	les impacts de sa maladie sur sa vie quotidienne, ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				

9	les raisons de ses traitements et de ses soins, ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
10	les raisons de ses traitements et de ses soins, ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				
11	les effets secondaires de ses traitements et de ses soins, ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
12	les effets secondaires de ses traitements et de ses soins, ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				
13	les façons de prendre ses traitements et de réaliser ses soins (ex : fréquence, durée, dosage, mode d'administration, sondages, injections, etc.), ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
14	les façons de prendre ses traitements et de réaliser ses soins (ex : fréquence, durée, dosage, mode d'administration, sondages, injections, etc.), ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				
15	les raisons pour lesquelles ses examens médicaux et analyses biologiques ont été prescrits, ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
16	les raisons pour lesquelles ses examens médicaux et analyses biologiques ont été prescrits, ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				

 Veuillez cocher la case qui vous correspond le plus

	Au cours des 12 derniers mois, de façon générale, les informations que votre proche a reçues concernant...	Tout fait D'accord	à Plutôt d'accord	Plutôt en d'accord	Pas du tout d'accord	Ne se prononce pas
17	le déroulement des examens médicaux et analyses biologiques qu'il/elle a réalisés, ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
18	le déroulement des examens médicaux et analyses biologiques qu'il/elle a réalisés, ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				
19	Les résultats des examens médicaux et analyses biologiques qu'il/elle a réalisés, ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
20	Les résultats des examens médicaux et analyses biologiques qu'il/elle a réalisés, ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				
21	les aides médico-sociales existantes (accès aux aides à domicile, obtention du statut et de l'allocation de personne handicapée, accès aux aides financières, humaines ou techniques, etc.), ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
22	les aides médico-sociales existantes (accès aux aides à domicile, obtention du statut et de l'allocation de personne handicapée, accès aux aides financières, humaines ou techniques, etc.), ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				
23	l'aménagement possible de son temps de travail ont été, compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
24	l'aménagement possible de son temps de travail ont été, suffisantes	<input type="checkbox"/>				
25	le matériel paramédical qui pourrait être utile dans sa vie quotidienne (fauteuil roulant, canne, lit médicalisé, lève-	<input type="checkbox"/>				

	malade et autre matériel ergonomique), ont été compréhensibles					
26	le matériel paramédical qui pourrait être utile dans sa vie quotidienne (fauteuil roulant, canne, lit médicalisé, lève-malade et autre matériel ergonomique), ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				
27	les aménagements matériels qui pourraient être utiles dans sa vie quotidienne (ex : de votre domicile, de votre véhicule, de votre lieu de travail), ont été compréhensibles	<input type="checkbox"/>				
28	les aménagements matériels qui pourraient être utiles dans sa vie quotidienne (ex : de votre domicile, de votre véhicule, de votre lieu de travail), ont été suffisantes	<input type="checkbox"/>				

Les questions suivantes concernent la relation de la personne que vous aidez avec les professionnels de santé. Veuillez cocher, parmi les propositions suivantes, **le professionnel de santé** que votre proche considère comme étant **le plus important dans sa prise en charge** (au cours des 12 derniers mois)

- Le médecin neurologue
 Le médecin rééducateur
 Le médecin généraliste
 Le kinésithérapeute
 Autre(précisez) _____

Veuillez cocher la case qui vous correspond le plus

	Au cours des 12 derniers mois, le professionnel de santé que votre proche considère comme le plus important dans sa prise en charge...	Tout fait d'accord	à Plutôt d'accord	Plutôt en désaccord	Pas du tout d'accord	Ne se prononce pas
29	a fait preuve de compréhension	<input type="checkbox"/>				
30	a été à son écoute	<input type="checkbox"/>				
31	l'a mis(e) en confiance	<input type="checkbox"/>				
32	l'a rassuré(e)	<input type="checkbox"/>				
33	l'a considéré(e) comme une « personne à part entière »	<input type="checkbox"/>				
34	a répondu à ses questions	<input type="checkbox"/>				

35	a respecté la confidentialité des informations le(la) concernant	<input type="checkbox"/>				
36	a transmis aux autres professionnels de santé les informations le(la) concernant	<input type="checkbox"/>				
37	vous a transmis les informations le(la) concernant	<input type="checkbox"/>				
38	a répondu à vos questions	<input type="checkbox"/>				
39	a pris en compte votre avis	<input type="checkbox"/>				
40	l'a orienté(e) vers les autres professionnels de santé (kinésithérapeutes, médecin rééducateur, autres...)	<input type="checkbox"/>				
41	a pris en compte son avis dans le choix des traitements médicamenteux (type de traitement, changement de traitement, refus d'un traitement, arrêt d'un traitement..)	<input type="checkbox"/>				
42	a pris en compte son avis concernant les autres soins (soins de rééducation, auto-sondage, injection de toxines botuliques, intervention chirurgicale, etc.)	<input type="checkbox"/>				

Veuillez cocher la case qui vous correspond le plus

	<u>Au cours des 12 derniers mois, l'ensemble des professionnels de santé ont pris en compte...</u>	Tout fait d'accord	à Plutôt d'accord	Plutôt en désaccord	Pas tout d'accord	du Ne se prononce pas
43	ses douleurs	<input type="checkbox"/>				
44	sa fatigue	<input type="checkbox"/>				
45	ses pertes de mémoire et/ou ses difficultés à se concentrer	<input type="checkbox"/>				
46	ses troubles du sommeil	<input type="checkbox"/>				
47	les effets secondaires de ses traitements	<input type="checkbox"/>				
48	ses autres symptômes (fourmillements, spasmes, raideurs, difficultés à parler, difficultés à écrire, etc.)	<input type="checkbox"/>				

49	son humeur/moral (stress, angoisse, déprime, etc.)	<input type="checkbox"/>				
50	ses besoins alimentaires	<input type="checkbox"/>				
51	sa vie intime et sexuelle	<input type="checkbox"/>				

Veillez cocher la case qui vous correspond le plus

Au cours des 12 derniers mois, les délais pour...	Mieux que souhaité	Comme souhaité	Un peu moins que souhaité	Beaucoup moins que souhaité	Ne se prononce pas	
52	contacter le(s) professionnel(s) de son choix, vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
53	être pris(e) en charge par le(s) professionnel(s) de son choix, vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
54	réaliser ses examens médicaux et analyses biologiques, vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
55	obtenir les résultats des examens médicaux et analyses biologiques, vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
56	accéder à un traitement médicamenteux, vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
57	bénéficier des prestations médico-sociales (accès aux aides à domicile, obtention de l'allocation adulte handicapé, etc.), vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
58	disposer de matériel paramédical pour sa vie quotidienne (fauteuil, canne, lit médicalisé et autre matériel ergonomique), vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
59	disposer d'aménagements matériels pour sa vie quotidienne (votre domicile, votre véhicule, votre lieu de travail), vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
60	disposer d'un aménagement possible de son poste et de son temps de travail, vous ont paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Veillez cocher la case qui vous correspond le plus

<u>Au cours des 12 derniers mois,</u> concernant les lieux de soins...	Mieux que souhaité	Comme souhaité	Un peu moins que souhaité	Beaucoup moins que souhaité	Ne se prononce pas
61 le confort (en terme de accessibilité, sanitaires, parking, etc.) vous a paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
62 la propreté vous a paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
63 le temps d'attente vous a paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
64 le respect de l'intimité vous a paru	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

9.2 Article Musicare :

Title : Assessing the experience of care management quality of patients living with multiple sclerosis and their caregivers: the MusiCare questionnaire

Authors : David Veillard¹, Karine Baumstarck², Gilles Edan³, Marc Debouverie⁴, Sandrine Wiertlewski⁵, Jérôme De Sèze⁶, Pierre Clavelou⁷, Jean Pelletier⁸, Christophe Verny⁹, Karine Chauvin¹, Marie Elisabeth Cosson¹, Anderson Loundou², Pascal Auquier²

Affiliations

1Public Health and Epidemiology Department, Rennes University Hospital, Rennes, France; 2Public Health: Quality of Life and Chronic Diseases EA3279, Aix-Marseille University, Marseille, France; 3Clinical Neuroscience Centre, CIC-P 1414 INSERM, Rennes University Hospital, Rennes, France ; 4CIC-EC Inserm CIC 1433, Nancy University Hospital, Nancy, France; 5Neurology Department, Nantes University Hospital, Nantes, France; 6Neurology Department, Strasbourg University Hospital, Strasbourg, France; 7Neurology Department, Clermont-Ferrand University Hospital, Clermont-Ferrand, France; 8Neurology Department, Marseille University Hospital AP- HM, Marseille, France; 9Neurology Department, Angers University Hospital, Angers, France.

Corresponding author Email: David.Veillard@chu-rennes.fr

Manuscript word count: 4503

Short title: Musicare assess experience of MS patients and caregivers

Keywords: Multiple sclerosis; Quality of care; Patient experience; Validation; Caregiver experience

Disclosure of Conflict of Interest: Dr. VEILLARD reports grants from French Health Ministry, grants from Fondation de France, grants from ARSEP; The other authors have nothing to disclose.

Abstract

Background

Patients with a chronic illness as multiple sclerosis (MS) and their natural caregivers have a specific experience of healthcare and health services. These experiences must be assessed to evaluate quality of care management.

Objective

Develop a French-language questionnaire to evaluate patients' and natural caregivers' experience of care management quality in MS.

Methods

Eligible patients had been diagnosed with MS according to the McDonald criteria. Eligible caregivers were individuals designated by the patients. The MusiCare questionnaire was developed in two standard phases: 1) item generation, based on interviews with patients and caregivers; 2) validation, involving validity, reliability, external validity, reproducibility, and responsiveness measures.

Results

1088 patients (n=660) and caregivers (n=488) were recruited. The initial 64-item version of MusiCare was administered to a random subsample (n = 748). The process of validation generated a 35-item questionnaire. Internal consistency and scalability were satisfactory. Testing of external validity revealed expected associations between MusiCare scores and

sociodemographic and clinical data. The questionnaire showed good reproducibility and responsiveness.

Conclusion

The availability of a reliable and validated French-language self-report questionnaire probing the experience of care management quality in MS will allow patients' and caregivers' feedback to be incorporated into a continuous healthcare quality improvement strategy.

Introduction

Evaluating the quality of care management for patients with multiple sclerosis (MS) is a major challenge. Patient-reported experience measures have gained increasing attention over the past 30 years, as they make an important contribution to the assessment and improvement of healthcare quality for ill populations^{1,2}. Patients with chronic illness and their relatives have exhaustive and specific experience of healthcare and the health service. These unique experiences must be taken into account alongside other forms of quality of care management assessment³. This patient-centred approach initially involved the use of satisfaction surveys, mainly during hospital stays⁴. However, quite apart from questions surrounding the reliability and validity of existing tools, the impact of survey findings on healthcare quality in hospitals remains modest, whichever country is concerned^{5,6}. This is why research has focused on assessing patients' experience of healthcare^{7,8,9}. Several studies have shown links between assessment of the patient experience and improvements in the quality of healthcare provision¹⁰. Tools have been developed to assess the experience of healthcare management among patients with chronic diseases¹¹. However, authors recommend developing tools that are adapted to particular diseases and healthcare systems¹². The free choice of healthcare system, universal healthcare insurance, and the existence of both private and public hospitals are specific to European countries and lead to variations in patient experiences¹³. Regarding MS, no tool is currently available to evaluate patient experience across all the stages of the pathology¹⁴. Furthermore, given the consequences of MS, natural caregivers should also be involved in this process¹⁵. The aim of the present study was thus to develop a French-language self-report questionnaire for assessing both patients' and caregivers' experience of care management quality in MS, in accordance with psychometric standards.

Method

The whole project has received approval from the ethical committee CPP de Rennes Ouest V the 9th of November (N° 10/36-778) and has been registered on clinical trial (NCT02388334).

Procedure

The questionnaire was developed over two phases between 2015 and 2018: item generation (Phase 1) and validation (Phase 2)¹⁶. Each phase was supervised by a steering committee comprising neurologists, rehabilitation specialists, psychologists, epidemiologists, and public health experts.

Patients

The eligibility criteria for patients enrolled were 1) aged 18 years or older, 2) diagnosed with any form of definite MS according to the McDonald criteria, excluding clinically isolated syndrome 3) fluent in the French language. For caregivers, the criteria were 1) aged 18 years or older, 2) designated by the patient as a natural caregiver (i.e. noninstitutional relative/person most closely involved in the decisions linked to the disease), 3) fluent in the French language, and 4) free from MS. All patients and caregivers gave their written informed consent.

Questionnaire development

Item generation

To define the different domains related to the concept of experience of MS care management, face-to-face semi structured interviews (25 patients and 72 caregivers) and focus groups (34 patients) were conducted between March 2015 and May 2016 by two trained interviewers/moderators (KC and MEC). Participants' words were recorded. Eligible patients and their caregivers, identified according to sex and MS subtype were recruited via integrated MS healthcare networks in five regions (Alsace, Auvergne, Bretagne, Provence-Alpes-Côte d'Azur, Pays de Loire) of France. After participants had given their consent, they attended an interview in a nonmedical venue (generally the offices of patient organizations). These interviews, served to determine the wording of the items and the range of response options. They continued until no more new ideas emerged¹⁶. The content of the questionnaire was derived from a textual analysis of all the interviews, combining manual and computerized approaches (Alceste software). All the details of the qualitative study are provided in the supplemental file (Supplemental file). Two versions of a first set of 76 items were built from themes and subthemes found to be common to patients and caregivers. These items questioned patients about their personal experience of care management, and caregivers about their personal experience of the patients' care management. Items were rated on a 4-point Likert scale worded in two different ways: Totally agree / Better than expected; Rather agree / As expected; Rather disagree / A little less than expected; Totally disagree / Really less than expected. A fifth response was possible: Not applicable. We chose a 12-month timeframe, given the progression profile of the disease and the mean number of patients' contacts with healthcare professionals in the context of care management in MS. A total of 14 patients and 15 caregivers underwent a cognitive debriefing. They were asked to comment on any aspects of the questionnaire (i.e., content, wording or response choices) they felt were irrelevant or could be improved. Items that were ambiguous, misunderstood, or rarely answered were suppressed or reworded, leading to a 64-item version.

Validation of MusiCare

The recruitment of patients and caregivers for the validation phase took place i) during MS dedicated events organized by the regional integrated MS healthcare networks or by MS patient organizations, ii) through advertising, using the patient mailing lists of MS regional networks, or iii) through advertisements placed in consulting neurologists' offices. After consenting to participate, they received the questionnaire either through a link for online completion or by mail. Participants were included from 5 July 2017 to 9 November 2018. In addition to responses to the MusiCare questionnaire, the following data were collected: sociodemographic data, clinical data, quality of life, coping strategies, and disability level^{17,18,19}. Experiences of MS, fatigue, depression, and anxiety (i) since the beginning of the disease and (ii) at the current time were rated on visual analogue scales.

Final structure

We randomly selected two thirds ($n = 748$) of the whole sample ($N = 1088$), respecting the patient caregiver ratio. The item reduction process took into account the results of statistical analyses and the expertise of the steering committee. Descriptive statistics were calculated to examine the response distribution for each item. Items with the following characteristics were removed: high rate of missing data and/or not applicable ($< 25\%$), low index discrimination (< 0.70), and high interitem correlation (> 0.80). Items were also deleted after examination of the questionnaire's item structure using principal component analysis and Cronbach's alpha coefficient. Construct validity (factorial structure) was assessed with the random subsample, using principal component factor analysis with varimax rotation to determine the final structure and number of independent dimensions. A final 5-factor structure with 35 items was chosen.

Stability of the final structure

The stability of the 5-factor structure was assessed on the patient subsample (n = 660), the caregiver subsample (n = 428), and the whole sample (N = 1088).

Psychometric testing

Internal consistency and external validity were calculated for the random subsample of 748 individuals and the whole sample of 1088 individuals.

Reproducibility and responsiveness

Reproducibility (ability to produce the same results in the absence of a meaningful change) and responsiveness (ability to detect a meaningful change) were assessed. To test reproducibility, 35 randomly patients and 35 randomly caregivers received a second assessment 4 weeks +/- 7 days after the first assessment (to minimize the likelihood of changes in the patients' clinical status, while allowing sufficient time to elapse between the test and retest to prevent patients from recalling their answers). They were excluded if they or the patient they were looking after experienced a change in health status related to MS between the two assessments. Reproducibility was performed for 31 patients and 15 caregivers. To test responsiveness, we performed a second assessment of 100 randomly patients 6 months +/- 1 month after the first assessment (to maximize the likelihood of changes in the patients' clinical status). From the 88 patients who returned their questionnaire, two groups were identified: without change in health status and with change in health status. Change in health status since the first assessment was defined as a new relapse, initiation or end of disease modifying drugs, or disability progression (evolution to a secondary progressive form).

Statistical analysis

The validation of the MusiCare questionnaire included construct validity, reliability, external validity, reproducibility, and responsiveness. Construct validity was assessed using principal component factor analysis with varimax rotation¹⁶. Eigenvalues greater than or equal to 1 were retained. Items were included in the dimensions if they had loadings greater than 0.4. If an item loaded on several factors, it was included in the factor that had the closest conceptual relationship. A confirmatory factor analysis was performed using the LISREL model. The following indicators were required: the root mean square error of approximation (RMSEA) was considered acceptable if < 0.08, and the comparative fit index (CFI) if higher than 0.9. Item internal consistency was assessed by correlating each item with its dimension (corrected for overlap) using Pearson's correlation coefficient (r = 0.4 recommended for supporting item internal consistency²⁰). Item discriminant validity was assessed by determining the extent to which items correlated more highly with the dimensions they were hypothesized to represent than with the other ones²¹. For each dimension, internal consistency reliability was assessed using McDonald's omega coefficient (coefficient of at least 0.7 expected for each scale. The unidimensionality of each dimension was assessed using Rasch analysis. The goodness-of-fit statistics (INFIT, ranging between 0.7 and 1.3) ensured that all items of the scale measured the same concept. We found floor and ceiling effects when we assessed the homogeneous distribution of responses. Interdimension correlations were examined using Pearson's r and polychoric correlations.

To explore external validity, relations between the following dimensions were assessed using Pearson's r: dimensions of MusiCare and experience of MS, fatigue, depression, and anxiety ratings, disability and quality of life scores. Discriminant validity was determined by assessing the associations between the MusiCare scores and sociodemographic and clinical features (sex, marital status, education level, MS subtype, MS treatment, age and disease duration).

Reproducibility was tested by assessing test-retest reliability using intraclass correlation coefficients (ICC) between the two successive assessments in stable individuals (i.e. no health changes in patients); a minimum of 25 observations was necessary to detect ICC higher than

0.85 (90% confidence interval with a width of 0,20). Responsiveness was measured in terms of effect size (ES, i.e. mean change in MusiCare scores between first and second assessments divided by standard deviation of baseline score); a minimum of 90 observations allows to detect minimal effect size of 0.30 (significance level at 0,05 using a two-sided paired t-test). ES of 0.2, 0.5 and 0.8 were respectively considered to be small, moderate, and large²².

Data analyses were performed using SPSS 20.0, MAP-R, and WINSTEP software.

Results

Only the results of the final psychometric validation phase of the MusiCare questionnaire are reported here.

Sample characteristics

Of the 1379 individuals (830 patients and 549 caregivers), 660 patients with MS (79.5%) and 428 caregivers (77.9%) were included. Nonparticipants did not differ significantly from participants on either sex or disease duration.

Scoring

For each individual, we calculated dimension scores if they had responded to at least half of the contributing items. All dimension scores were linearly transformed and standardized on a scale ranging from 0 (lowest experience) to 100 (highest experience).

Validity

The total sample for the validation phase comprised 1036 participants (95.2%), excluding participants whose questionnaires had more than 30% of missing data, in accordance with the steering committee's decision. The characteristics of the patients and caregivers in the study sample are set out in Table 1.

Construct validity and internal structural validity

We discarded 29 of the 64 initial items on account of at least one of the following situations: low response rate, low discrimination index and high interitem correlation. Based on the random subsample of 748 observations, the 35-item structure of the MusiCare was confirmed by principal component factor analysis, which identified a 5-factor structure accounting for 63% of the total variance. This model showed a good fit, and all the indices yielded by the confirmatory LISREL model were satisfactory (RMSEA = 0.091; 90% CI [0.089, 0.094], CFI = 0.944). The stability of the 5-factor structure was tested on the patient subsample, the caregiver subsample, and the whole sample. The dimensions were named according to their contributing items: information about the disease (11 items), information about treatments/medical investigations (8), relationships with healthcare teams (8), healthcare access (5), and reception conditions in care centers (4). The structures are described in supplementary Table 1. The 35 items are detailed in supplementary Table 2. In both the random subsample and the whole sample, internal consistency was satisfactory for all dimensions. Each item achieved the 0.40 standard for item-internal consistency, except for one healthcare access domain. The correlation of each contributing item with its dimension was higher than its correlations with the other dimensions (item discriminant validity), except for healthcare access. McDonald's omega coefficients ranged from 0.71 to 0.93, indicating satisfactory internal consistency. Overall scalability was satisfactory: few items showed an infit statistic outside the acceptable range. The characteristics of MusiCare's item and dimension scales (random subsample and whole sample) are summarized in Table 2. Interdimension correlation coefficients ranged from 0.28 to 0.70 (all $p < 0.001$). The scores of patients and caregivers are presented in Figure 1.

External validity

As expected, the MusiCare scores for both patients and caregivers were correlated with ratings of experience of fatigue, mood disorders, anxiety status, disability, quality of life, and caregiver burden. All the details are provided in Table 3.

For the patients, there were no statistical associations between experience of MS care management and sex or MS subtype. Older patients reported a more positive experience than younger patients for some dimensions. For the caregivers, men reported a more positive experience than women so too caregivers who stated that they were not the sole caregiver Being in couple and having a higher education level were associated with a better experience in several dimensions, both for patients and for caregivers. Details are provided in Table 4.

Reproducibility and responsiveness

Reproducibility was satisfactory for both patients ($n = 31$) and caregivers ($n = 15$), with ICC ranging from 0.60 to 0.98. Regarding responsiveness, among the patients whose health status deteriorated ($n = 12$), ES ranged from -0.36 to -0.55, except for the relationships with healthcare teams (-0.06). All the ES were low for stable patients ($n = 62$), and higher for patients with a worsening health status ($n = 12$). All the details are reported in Table 5.

Discussion

To our knowledge, MusiCare is the first validated tool to have been designed specifically to assess the quality of MS care management, as perceived by patients and their caregivers. Patient and caregiver experience assessments are used to improve care management, compare services, facilitate choices to provide appropriate strategies, and evaluate the impact of implementing these strategies²³. The results of the development and validation phases reported here show that the MusiCare questionnaire is just such an instrument.

Identifying the components of the questionnaire, based on face-to-face interviews conducted with patients and caregivers, reinforced the validity of its content. This procedure ensured that the components of the experience of MS care management quality were identified, based on relevant information provided by the individuals themselves²⁴.

MusiCare met all the psychometric standards. Its internal structure, supported by high internal consistency, confirmed that the experience of MS care quality is a multidimensional concept. A number of general instruments evaluating patient experience have been published in the past 15 years^{25,26}. Most of these measure patients' experience of healthcare provided in hospitals, even though most of the care for patients with MS is carried out on an outpatient basis²⁷. The Patient Assessment of Chronic Illness Care was developed to measure patient experience in the context of the chronic care model in the United States, but does not involve caregivers²². The only tool for caregivers is Guilabert et al.'s measure of the experience of family caregivers looking after elderly patients with a high degree of dependency²⁸.

According to these instruments, quality of information and communication between patients and healthcare professionals are the two most developed dimensions, in terms of care and its organization, as well as in terms of treatments and medical investigations. MusiCare also emphasizes the need for information and communication between patients, their caregivers and healthcare providers, as previously seen in French questionnaires probing satisfaction with hospital care²⁹. Two other dimensions addressed by most of these instruments are confidence and support, and access to care, also included in Musicare.

Our choice of a Likert scale with an even number of options was based on previous reports demonstrating that it is more informative and discriminative than either a yes/no form or an odd scale.

Reproducibility and responsiveness, core psychometric properties of any measuring instrument, are rarely reported, as longitudinal data collection is required³⁰. For patients, we were able to

measure both these aspects, showing satisfactory stability of MusiCare in the absence of a meaningful health status change, and satisfactory ability to detect a meaningful health status change. For caregivers, we can only provide information about reproducibility based on a small number of individuals, and have no information about responsiveness. More studies are therefore needed to complete this initial investigation, although the present findings demonstrate the relevance of the tool.

External validity, explored as a function of sociodemographic, clinical, and psychobehavioral characteristics, generally confirmed our assumptions. The relationship with EDSS is lacking and should be explored in the future. As expected, fatigue, emotional status, and disability negatively influenced the experience of care management quality. This information will allow specific actions to be targeted and implemented in order to improve patient management. Caregivers' perceived burden was also linked to a poorer experience of care management quality. This finding should confirm the need to pay more attention to caregivers, as key actors in the provision of healthcare and key contributors to patients' adherence to and acceptance of treatment^{31,32}. Experience of care management quality was positively correlated with quality of life, confirming the importance of considering this factor when evaluating disease progression, treatment, and the management of care provided to patients with MS³³.

Several considerations need to be addressed. First, fixed-length instruments have several drawbacks. The reduction in questions carries a risk of losing relevant information, potentially resulting in reduced measurement precision. Among the items in the initial set, some of them were clearly relevant to the experience of care management quality. To avoid losing this information, new approaches should be developed, based on computerized adaptive testing³⁴. This method administers items drawn from an item bank that can collect the most information about a given individual, improving both precision and completion time³⁵. The participation in the item generation and validation phases was purely voluntary. This means that individuals living in isolation or those who are reluctant to seek help from the healthcare system probably did not take part. As a result, some of the aspects they experience may not have been taken into account.

Conclusion

MusiCare, a measure of perceived experience of care management quality in MS, was generated from exclusive interviews with patients and their caregivers. The availability of a reliable and validated questionnaire will allow to be factored into a continuous healthcare quality improvement strategy.

Acknowledgements

The authors thank Estelle Delepau for her contribution to the analysis data, Aurore Muret, Yoann Desilles and Emilie Chretien for coordinating the recruitment of patients and caregivers, implemented by MS Healthcare networks and the Observatoire Français de la Sclérose en Plaques (OFSEP).

References

1. Institute of medicine: Crossing the chasm: a new health system for the 21st century. Washington DC : National Academy Press (US); 2001.
2. Carman KL, Dardess P, Maurer M, Sofaer S, Adams K, Bechtel C, Sweeney J. Patient and family engagement: a framework for understanding the elements and developing interventions and policies. *Health Aff (Millwood)* 2013;32:223-231.
3. Anhang Price R, Elliott MN, Zaslavsky AM, Hays RD, Lehrman WG, Rybowski L, Edgman-Levitan S, Cleary PD. Examining the role of patient experience surveys in measuring health care quality. *Med Care Res Rev* 2014;71:522-554.

4. Williams B, Coyle J, Healy D. The meaning of patient satisfaction: an explanation of high reported levels. *Soc Sci Med* 1998;47:1351-1359.
5. Crow R, Gage H, Hampson S, Hart J, Kimber A, Storey L, Thomas H. The measurement of satisfaction with healthcare: implications for practice from a systematic review of the literature. *Health Technol Assess* 2002;6:1-244.
6. Bombard Y, Baker GR, Orlando E, Fancott C, Bhatia P, Casalino S, Onate K, Denis JL, Pomey MP. Engaging patients to improve quality of care: a systematic review. *Implement Sci* 2018;13:98.
7. Darby C, Crofton C, Clancy CM. Consumer assessment of health providers and systems (CAHPS): evolving to meet stakeholder needs. *Am J Med Qual* 2006;21:144-147.
8. Anhang Price R, Elliott MN, Zaslavsky AM, Hays RD, Lehrman WG, Rybowski L, Edgman-Levitan S, Cleary PD. Examining the role of patient experience surveys in measuring health care quality. *Med Care Res Rev* 2014;71:522-554.
9. Elwyn G, Buetow S, Hibbard J, Wensing M. Measuring quality through performance. Respecting the subjective: quality measurement from the patient's perspective. *BMJ* 2007;335:1021-1022.
10. Doyle C, Lennox L, Bell D. A systematic review of evidence on the links between patient experience and clinical safety and effectiveness. *BMJ Open* 2013;3.
11. Mira JJ, Nuño-Solinís R, Guilabert-Mora M, Solas-Gaspar O, Fernández-Cano P, González-Mestre MA, Contel JC, Del Rio-Camara M. Development and Validation of an Instrument for Assessing Patient Experience of Chronic Illness Care. *Int J Integr Care* 2016;16:13.
12. Forestier B, Anthoine E, Reguiat Z, Fohrer C, Blanchin M. A systematic review of dimensions evaluating patient experience in chronic illness. *Health Qual Life Outcomes* 2019;17:19.
13. Fielding JE, Lancy PJ. Lessons from France 'vive la difference'. The French health care system and US health system reform. *JAMA* 1993;270:748-756.
14. Solheim AM, Mygland Å, Ljøstad U. Quality of multiple sclerosis out-patient health care services with focus on patient reported experiences. *BMC Res Notes* 2017;10:250.
15. Rieckmann P, Boyko A, Centonze D, Elovaara I, Giovannoni G, Havrdová E, Hommes O, Kesselring J, Kobelt G, Langdon D, Leloir J, Morrow SA, Oreja-Guevara C, Schippling S, Thalheim C, Thompson H, Vermersch P. Achieving patient engagement in multiple sclerosis: A perspective from the multiple sclerosis in the 21st Century Steering Group. *Mult Scler Relat Disord* 2015;4:202-218.
16. Juniper EF, Guyatt GH, Mesbah M, Ravaud P. Quality of life and pharmacoeconomics in clinical trials. Philadelphia: Lippincott-Raven; 1996.
17. Simeoni MC, Auquier P, Fernandez O, Flachenecker P, Stecchi S, Constantinescu C, Idiman E, Boyko A, Beiske AG, Vollmer T, Triantafyllou N, O'Connor P, Barak Y, Biermann L, Cristiano E, Atweh S, Patrick DI, Robitail S, Ammoury N, Beresniak A, Pelletier J, MusiQoL study group. Validation of the Multiple Sclerosis International Quality of Life questionnaire. *Mult Scler* 2008;14:219-230.
18. Baumstarck K, Alessandrini M, Hamidou Z, Auquier P, Leroy T, Boyer L. Assessment of coping: a new french four-factor structure of the brief COPE inventory. *Health Qual Life Outcomes* 2017;15:8.

19. Harwood RH, Rogers A, Dickinson E, Ebrahim S. Measuring handicap: the London Handicap Scale, a new outcome measure for chronic disease. *Qual Health Care* 1994;3:11-16.
20. Carey RG, Seibert JH. A patient survey system to measure quality improvement: questionnaire reliability and validity. *Med Care* 1993;31:834-845.
21. Campbell DT, Fiske DW. Convergent and discriminant validation by the multitrait-multimethod matrix. *Psychol Bull* 1959;56:81-105.
22. Cohen J. *Statistical power analysis for the behavioral sciences*. New York: Lawrence Erlbaum Associates; 1977.
23. Mattarozzi K, Baldin E, Zenesini C, Solari A, Amato MP, Leone M, Mancardi G, Martinelli V, Savettieri G, Solaro C, Tola MR, D'Alessandro R; Agorà Study Group. Effect of organizational features on patient satisfaction with care in Italian multiple sclerosis centres. *Eur J Neurol*. 2017 Apr;24(4):631-637.
24. Britten N. Qualitative interviews in medical research. *BMJ* 1995;311:251-253.
25. Glasgow RE, Wagner EH, Schaefer J, Mahoney LD, Reid RJ, Greene SM. Development and validation of the Patient Assessment of Chronic Illness Care (PACIC). *Med Care* 2005;43:436-44.
26. Mira JJ, Nuño-Solinís R, Guilabert-Mora M, Solas-Gaspar O, Fernández-Cano P, González-Mestre MA, Contel JC, Del-Rio Camara M. Development and Validation of an Instrument for Assessing Patient Experience of Chronic Illness Care. *Int J Integr Care* 2016;16:13.
27. Beattie M, Murphy DJ, Atherton I, Lauder W. Instruments to measure patient experience of healthcare quality in hospitals: a systematic review. *Syst Rev* 2015;4:97.
28. Guilabert M, Amil P, González-Mestre A, Gil-Sánchez E, Vila A, Contel JC, Ansotegui JC, Solas O, Bacigalupe MT, Fernandez-Cano P, Arteagoitia M, Mira JJ. The Measure of the Family Caregivers' Experience. *Int J Environ Res Public Health* 2018;15:2040.
29. Antoniotti S, Baumstarck-Barrau K, Simeoni MC, Sapin C, Labarere J, Gerbaud L, Boyer L, Colin C, François P, Auquier P. Validation of a French hospitalized patients' satisfaction questionnaire: the QSH-45. *Int J Qual Health Care* 2009;21:243-252.
30. Guyatt G, Walter S, Norman G. Measuring change over time: assessing the usefulness of evaluative instruments. *J Chronic Dis* 1987;40:171-178.
31. Kim Y, Baker F, Spillers RL, Wellisch DK: Psychological adjustment of cancer caregivers with multiple roles. *Psychooncology* 2006;15:795-804.
32. Hodges LJ, Humphris GM, Macfarlane G. A meta-analytic investigation of the relationship between the psychological distress of cancer patients and their carers. *Soc Sci Med* 2005; 60:1-12.
33. Mitchell AJ, Benito-Leon J, Gonzalez JM, Rivera-Navarro J. Quality of life and its assessment in multiple sclerosis: integrating physical and psychological components of wellbeing. *Lancet Neurol* 2005;4:556-566.
34. Walker J, Bohnke JR, Cerny T, Strasser F. Development of symptom assessments utilising item response theory and computer-adaptive testing--a practical method based on a systematic review. *Crit Rev Oncol Hematol* 2010;73:47-67.
35. Reeve BB, Hays RD, Bjorner JB, Cook KF, Crane PK, Teresi JA, Thissen D, Revicki DA, Weiss DJ, Hambleton RK, Liu H, Gershon R, Reise SP, Lai JS, Cella D, PROMIS Cooperative Group. Psychometric evaluation and calibration of health-related quality of life

item banks: plans for the Patient-Reported Outcomes Measurement Information System (PROMIS). *Med Care* 2007;45:S22-31.

Table 1. Patients and caregivers characteristics

		Patients N=660	
		N (%)	MD°
Sex	Women	475 (73.4)	13 (2.0)
	Men	172 (26.6)	
Age (years)	M±SD	49.3±12.1	
	m [IQR]	50 [40-58]	
Marital status	Couple	476 (73.7)	14 (2.1)
	Single	170 (26.3)	
Educational level	<12 years	183 (28.0)	7 (1.1)
	≥12 years	470 (72.0)	
Children	No	176 (26.8)	4 (0.6)
	Yes	480 (73.2)	
Professional status	No-workers	323 (51.4)	31 (4.7)
	Part time worker	136 (21.6)	
	Full time worker	170 (27.0)	
Living place	Personal house	611 (95.0)	17 (2.6)
	Other place	32 (5.0)	
MS subtype	Relapsing remitting	381 (65.5)	78 (11.8)
	Progressive	201 (34.5)	
Disease duration (years)	M±SD	15.5±10.3	
	m [IQR]	14 [7-22]	
MS treatment	No	137 (21.2)	15 (2.3)
	Yes	508 (78.8)	
Other chronic disease		220 (34.5)	22 (3.3)
Specialized medical follow-up		630 (98.3)	19 (2.9)
		Caregivers N=428	
		N (%)	MD
Sex	Women	195 (46.3)	7 (1.6)
	Men	226 (53.7)	
Age (years)	M±SD	53.5±13.2	
	m [IQR]	55 [46-63]	
Marital status	Couple	376 (89.5)	8 (1.9)
	Single	44 (10.5)	

Educational level	<12 years	135 (32.1)	7 (1.6)
	>=12 years	286 (67.9)	
Children	No	84 (20.0)	8 (1.9)
	Yes	336 (80.0)	
Professional status	No-workers	161 (39.6)	
	Part time job	37 (9.1)	
	Full time job	209 (51.4)	
Relationship with the MS patient	Love partner	321 (77.3)	13 (3.0)
	Parent	73 (17.6)	
	Others	21 (5.1)	
Presence of other caregiver	Non	122 (30.3)	26 (6.1)
	Yes	280 (69.7)	
Level of burden (from Zarit scale)	No	192 (51.3)	54 (12.6)
	Mild	125 (33.4)	
	Moderate	55 (14.7)	
	Severe	2 (0.5)	
MS subtype	Relapsing remitting	190 (49.9)	47 (11.0)
	Progressive	191 (50.1)	
Disease duration (years)	M±SD	15.4±10.9	
	m [IQR]	14 [6-21]	

M±SD, mean ± standard deviation; m [IQR], median [interquartile range] ; MS multiple sclerosis ; MD missing data

Figure 1.

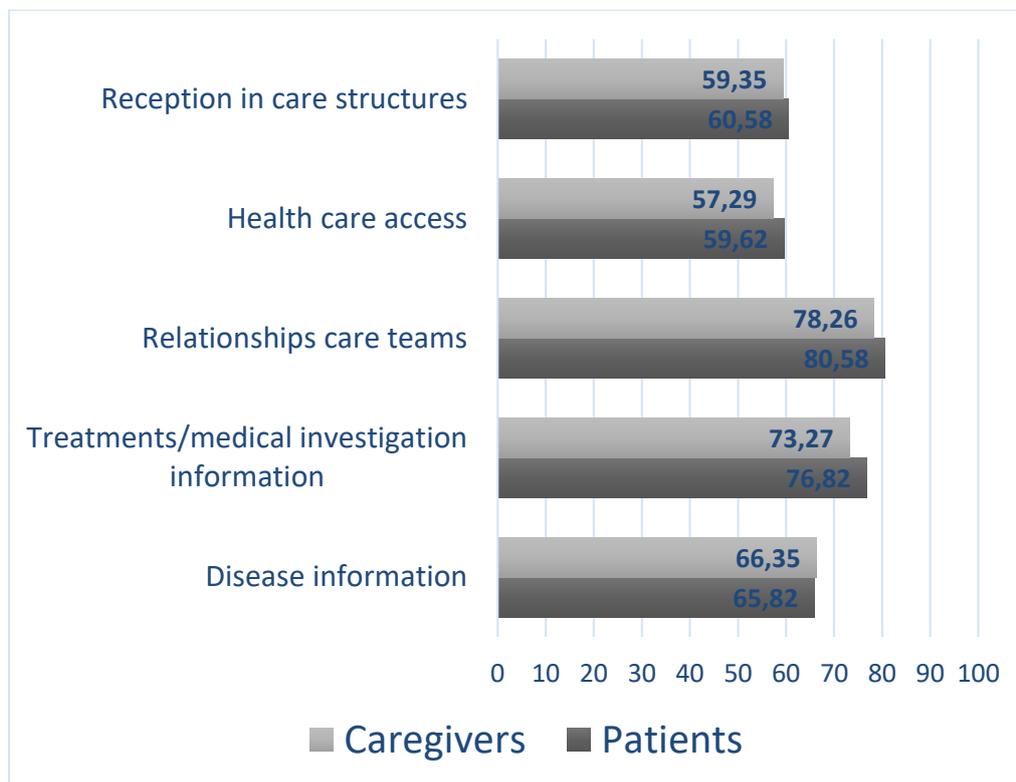


Table 2. Dimension characteristics of the self-perceived experience of multiple sclerosis care management quality questionnaire (MusiCare)

Sub-sample N=748						
Dimension / index (Number of items)	Score	MV	IIC	IDV	Mac	INFIT*
Self-perceived experience about...	M±SD	%	min-max	min-max	Donald	min-max
Information about the disease (11)	66,40±20,03	15,9	0.60-0.77	0.16-0.54	0.93	0.8-1.6
Information about the treatments/medical investigation (8)	75,28±19,31	15,1	0.67-0.81	0.22-0.63	0.92	0.7-1.4
Relationships with health care teams (8)	79,60±17,52	12,3	0.54-0.80	0.07-0.47	0.91	0.7-1.7
Health care access (5)	59,12±17,25	15,8	0.32-0.68	0.18-0.47	0.76	0.7-1.3
Reception conditions in care centres (3)	59,67±17,48	22,3	0.54-0.55	0.20-0.41	0.71	0.9-1.1
Whole sample N=1088						
Dimension / index (Number of items)	Score	MV	IIC	IDV	Mac	INFIT*
Self-perceived experience about...	M±SD	%	min-max	min-max	Donald	min-max
Information about the disease (11)	66,03±20,09	14,8	0.61-0.74	0.20-0.57	0.92	0.8-1.7
Information about the treatments/medical investigation (8)	75,43±19,12	13,6	0.67-0.80	0.20-0.59	0.92	0.8-1.4
Relationships with health care teams (8)	79,68±18,01	11,0	0.56-0.80	0.12-0.48	0.91	0.7-1.6
Health care access (5)	58,70±17,87	13,9	0.43-0.70	0.20-0.51	0.79	0.7-1.3
Reception conditions in care centres (3)	60,10±17,36	21,3	0.54-0.55	0.19-0.39	0.73	0.9-1.1

M±SD, mean ± standard deviation ; MV, missing values ; IIC item internal consistency; IDV item discriminant validity; INFIT, Rasch statistics

All scores range from 0 (worst) to 100 (better) self-perceived care management quality

Table 3. MusiCare scores according to psychobehavioral aspects: patients and caregivers

	Patients					Caregivers				
	Inform. about the disease ^o	Inform. Treatm./med. Investigation ^o	Relationships health care teams ^o	Health care access ^o	Reception conditions in care centres ^o	Inform. about the disease ^o	Inform. Treatm./med. Investigation ^o	Relationships health care teams ^o	Health care access ^o	Reception conditions in care centres ^o
Self perceived exper. (0-10) [~]										
Globally	0,486**	0,405**	0,393**	0,348**	0,287**	0,518**	0,447**	0,381**	0,426**	0,347**
Actually	0,617**	0,521**	0,518**	0,472**	0,293**	0,618**	0,531**	0,469**	0,549**	0,369**
Fatigue (0-10) ⁺										
Globally	-0,128**	-0,081	-0,115**	-0,084*	-0,098*	-0,224**	-0,141**	-0,148**	-0,072	-0,051
Actually	-0,163**	-0,094*	-0,047	-0,084*	-0,068	-0,224**	-0,132*	-0,141**	0,013	0,012
Depression (0-10) ⁺										
Globally	-0,170**	-0,112**	-0,152**	-0,137**	-0,085*	-0,250**	-0,182**	-0,184**	-0,137**	-0,114*
Actually	-0,199**	-0,120**	-0,134**	-0,140**	-0,091*	-0,219**	-0,170**	-0,143**	-0,067	-0,044

Anxiety (0-10) ⁺															
Globally		-0,094*	-0,103*	-0,123**	-	0,132**	-0,045	-	0,175**	-0,110*	-0,109*	-0,084	-0,068		
Actually		-	0,153**	-0,146**	-0,157**	-	0,175**	-0,128**	-	0,176**	-0,124*	-0,097	-0,071	-0,048	
Impact on daily living [@]															
Mobility		-0,077	-0,058	-0,03	-0,029	-0,021	-0,043	-0,017	0,07	-	0,146**	-0,039			
Autonomy		-	0,117**	-0,063	-0,008	-0,041	-0,136**	-0,108*	-0,115*	0,049	-0,117*	-0,087			
Leasures		-0,058	-0,001	0,039	-0,023	-0,033	-	0,193**	-0,129*	-0,021	-	0,163**	-0,091		
Social relationship		-	0,122**	-0,106**	-0,080*	-	0,146**	-0,114**	-	0,256**	-0,239**	-0,076	-	0,243**	-0,240**
Environment		0,085*	0,007	0,019	0,027	0,002	-	0,207**	-0,235**	-0,062	-	0,196**	-0,132*		
Finances		-0,047	0,023	-0,023	-0,085*	-0,048	-	0,176**	-0,157**	-0,045	-	0,154**	-0,114*		
Quality of life MusiQoL [^]							Burden	-	0,307**	-0,271**	-0,151**	-	0,276**	-0,155**	

Activity of daily living	0,232**	0,146**	0,104*	0,087*	0,098*
Psychol. well-being	0,269**	0,189**	0,180**	0,169**	0,165**
Relations with friends	0,137**	0,129**	0,157**	0,059	0,009
Symptoms	0,273**	0,165**	0,136**	0,148**	0,103*
Relations with family	0,192**	0,181**	0,164**	0,159**	0,117**
Relations health care system	0,553**	0,489**	0,480**	0,355**	0,314**
Sentim. and sexual life	0,180**	0,184**	0,141**	0,182**	0,068
Coping	0,165**	0,079	0,171**	0,082*	0,05
Rejection	0,211**	0,149**	0,127**	0,106*	0,142**

° All scores range from 0 (worst) to 100 (better) self-perceived experience of care management quality

~ from 0 (worst) to 10 (better) self perceived experience for MS care

+ from 0 (lower) to 10 (higher) level of fatigue, mood disorder, anxiety

@ London Handicap Scale from 0 (lower) normal function to 1 (higher) total disability

^ from 0 (lower) to 100 (higher) quality of life level

*p <0.05 ; **p< 0.01

Table 4. MusiCare scores according to sociodemographics and clinical characteristics: patients and caregivers

		Patients					Caregivers				
		Inform. about the disease ^o	Inform. Treatm./med. Investigatio n ^o	Relationshi ps health care teams ^o	Health care access ^o	Reception conditions in care centres ^o	Inform. about the disease ^o	Inform. Treatm./med. Investigatio n ^o	Relationshi ps health care teams ^o	Health care access ^o	Reception conditions in care centres ^o
Gender	Women	65,38±20,68	77,46±19,20	81,18±17,86	59,27±18,06	59,91±17,94	63,12±20,99	70,56±21,30	77,17±18,41	54,98±20,16	56,83±18,34
	Men	67,19±19,61	75,57±18,86	78,99±17,43	60,91±16,29	62,31±16,40	68,98±17,78	75,28±16,31	78,99±18,41	58,99±15,94	61,20±15,80
	p-value	0,352	0,295	0,183	0,304	0,162	0,004	0,019	0,340	0,037	0,020
Age (years)	R	0,074	0,07	0,122	0,083	0,031	0,094	0,057	0,168	0,09	-0,071
	p-value	0,082	0,095	0,003	0,050	0,484	0,077	0,285	0,001	0,093	0,207
Marital status	Couple	67,40±19,85	78,04±18,47	81,33±17,65	60,51±17,12	60,38±16,57	66,65±19,44	73,82±18,43	79,01±18,04	57,40±17,81	59,93±16,85
	Single	61,32±21,22	73,14±20,80	78,24±18,05	56,37±18,80	61,07±19,82	62,47±22,18	67,74±22,88	71,13±20,59	54,44±20,29	52,38±18,60
	p-value	0,001	0,007	0,062	0,013	0,690	0,232	0,068	0,016	0,362	0,025
Educ. level	<12 years	65,54±21,84	75,06±20,84	81,02±16,98	62,77±17,25	63,09±19,19	67,49±18,91	73,81±18,32	79,31±17,29	58,64±18,76	59,06±19,50

	>=12 years	66,03±19,87	77,56±18,40	80,56±18,02	58,72±17,37	59,64±16,88	65,70±19,59	73,14±18,80	77,53±18,94	56,35±17,65	59,46±15,69
	p-value	0,799	0,165	0,779	0,014	0,047	0,402	0,746	0,376	0,253	0,841
MS subtype	Relaps, remitting	66,74±20,44	77,93±19,14	81,24±17,39	59,25±17,96	59,58±18,43	66,78±18,44	74,53±17,87	77,82±18,04	57,95±16,47	60,23±17,14
	Progressive	64,70±20,74	75,57±19,58	80,21±17,92	61,89±15,01	61,14±16,09	65,68±19,93	71,91±19,69	78,81±18,05	56,08±18,19	58,12±16,40
	p-value	0,291	0,185	0,519	0,075	0,354	0,595	0,199	0,606	0,319	0,267
Disease duration (years)	R	0,049	0,030	0,058	-0,008	-0,060	0,175**	0,063	0,175**	0,009	-0,008
	p-value	0,267	0,485	0,175	0,860	0,188	0,001	0,254	0,001	0,872	0,896
MS treatment	No	63,44±22,84	73,14±19,99	80,17±16,11	58,42±19,03	58,83±18,42					
	Yes	66,49±19,75	77,72±18,89	80,83±18,15	59,84±17,43	60,99±17,31					
	p-value	0,159	0,022	0,711	0,439	0,251					
Relationship with MS patient	Love partner						67,38±19,13	74,43±17,93	79,37±17,75	57,91±17,51	60,92±15,96
	Other*						61,89±21,29	68,36±21,60	73,80±20,31	54,55±19,62	52,77±19,88

		p-value	0,026	0,010	0,017	0,140	<0,001
Presence of other caregiver	No		64,70±19,82	70,21±21,03	75,59±19,10	52,92±21,09	55,72±19,93
	Yes		66,90±19,87	74,46±18,09	79,27±18,24	59,18±16,28	61,23±15,10
		p-value	0,332	0,049	0,081	0,006	0,016

° All scores range from 0 (worst) to 100 (better) self-perceived care management quality

R, correlation coefficient; MS, multiple sclerosis

Bold values: p-value <0,05

Table 5, Reproducibility and responsiveness of MusiCare

Dimension (Items)	Reproducibility		Sensibility to change			
	Patients	Caregivers	Patients			
	N=31	N=15	Worsened		Stable	
	ICC	ICC	Delta	ES	Delta	ES
Information about the disease	0,84	0,92	6,31±16,51	- 0,45	2,161±18,42	- 0,07
Information about the treatments/medical investigation	0,74	0,88	4,44±15,85	- 0,36	-0,50±18,49	- 0,03
Relationships with health care teams	0,73	0,98	0,72±16,30	- 0,06	-0,39±12,82	0,02
Health care access	0,78	0,89	5,61±17,79	- 0,36	0,645±13,32	- 0,04
Reception conditions in care centres	0,68	0,60	7,64±17,04	- 0,55	0±18,27	0,02

ICC, intraclass correlation coefficients ; Delta, delta change between baseline assessment and \$\$-month assessment ; ES, effect size (final score – initial score)/initial score (|0,2| small, |0,5| moderate, and |0,8| large change [Algina J, Keselman HJ, Penfield RD: Effect Sizes and their Intervals: The Two-Level Repeated Measures Case, Educational and Psychological Measurement 2005, 65(2):241-258]),

Appendix 1. Construct validity of MusiCare (principal component factor analysis)

	Random sub-sample					Whole sample					Patients' sample					Caregiver' sample					
	N=748					N=1088					N=660					N=428					
Initial Item n°	F1	F2	F3	F4	F5	F1	F2	F3	F4	F5	F1	F2	F3	F4	F5	F1	F2	F3	F4	F5	Final Item n°
q1	0,63					0,63					0,60					0,63					1
q3	0,69					0,67					0,62					0,68					2
q4	0,72					0,68					0,64					0,61					3
q5	0,79					0,79					0,78					0,79					4
q6	0,80					0,80					0,81					0,77					5
q7	0,73					0,75					0,78					0,57					6
q8	0,73					0,73					0,75					0,56					7
q9	0,59					0,57					0,55					0,59					8
q10	0,57					0,53					0,50					0,63					9

q11	0,6 6		0,6 3		0,5 8		0,7 2		10
q12	0,6 6		0,6 1		0,5 7		0,6 9		11
q13		0,8 2		0,7 5		0,7 3		0,7 5	12
q14		0,8 1		0,7 4		0,7 1		0,8 1	13
q15		0,8 1		0,8 0		0,8 2		0,7 5	14
q16		0,7 6		0,7 9		0,7 8		0,7 8	15
q17		0,7 1		0,7 3		0,7 5		0,7 0	16
q18		0,7 0		0,7 4		0,7 7		0,6 9	17
q19		0,5 3		0,6 6		0,7 3		0,5 8	18
q20		0,5 0		0,6 6		0,7 0		0,6 3	19
q29			0,8 8					0,9 1	20
q30			0,8 7					0,8 8	21
q31			0,8 6					0,8 7	22

q32	0,8 3		0,8 2		0,8 1		0,8 3	23	
q33	0,7 7		0,7 7		0,8 0		0,7 2	24	
q34	0,7 7		0,7 9		0,7 6		0,8 1	25	
q43	0,3 8		0,3 8		0,3 4		0,4 2	26	
q44	0,3 7		0,3 7		0,3 3		0,4 3	27	
q52		0,3 6		0,6 7		0,7 6		0,6 0	28
q53		0,4 1		0,7 2		0,8 1		0,6 6	29
q54		0,5 1		0,6 7		0,6 5		0,6 9	30
q55		0,6 9		0,6 5		0,5 5		0,7 1	31
q56		0,4 8		0,6 0		0,5 8		0,6 6	32
q62		0,6 4		0,7 1		0,7 4		0,6 2	33
q63		0,7 2		0,6 1		0,6 1		0,3 6	34
q64		0,6 2		0,6 4		0,7 3			35

Appendix 2. MusiCare: english item general meaning

English item general meaning	Domain
During the last 12 months, about the information...	
1. Comprehensive about MS cause/source	Information about the disease
2. Comprehensive about MS symptoms	Information about the disease
3. Complete about MS symptoms	Information about the disease
4. Comprehensive about the MS disease course	Information about the disease
5. Complete about the MS disease course	Information about the disease
6. Comprehensive about the MS consequences	Information about the disease
7. Complete about the MS consequences	Information about the disease
8. Comprehensive about treatment indications	Information about the disease
9. Complete about treatment indications	Information about the disease
10. Comprehensive about adverse events of the treatments	Information about the disease
11. Complete about adverse events of the treatments	Information about the disease
During the last 12 months, about the information...	
12. Comprehensive about adverse events of the treatments	Information about the treatments/medical investigation
13. Complete about treatments' administration	Information about the treatments/medical investigation
14. Comprehensive about indications of medical investigation (imaging, blood samples...)	Information about the treatments/medical investigation

15. Complete about indications of medical investigation (imaging, blood samples...)	Information about the treatments/medical investigation
16. Comprehensive about logistic organization of medical investigation	Information about the treatments/medical investigation
17. Complete about logistic organization of medical investigation	Information about the treatments/medical investigation
18. Comprehensive about feedback of medical investigations	Information about the treatments/medical investigation
19. Complete information about feedback of medical investigations	Information about the treatments/medical investigation

During the last 12 months, about the health care workers...

20. Be understanding	Relationships with health care teams
21. Be listening	Relationships with health care teams
22. Build confidence and trust	Relationships with health care teams
23. Be reassuring	Relationships with health care teams
24. Pay full attention	Relationships with health care teams
25. Answer questions	Relationships with health care teams
26. Consider pain	Relationships with health care teams

27. Consider tiredness	Relationships with health care teams
During the last 12 months, about access time...	
28. Contact with health care workers	Health care access
29. Access to/care by health care workers	Health care access
30. Proceed medical investigation (imaging, blood samples...)	Health care access
31. Feedback of medical investigations results	Health care access
32. Access to a MS treatment	Health care access
During the last 12 months, about the care structures...	
33. Cleanness	Reception conditions in care centres
34. Waiting time	Reception conditions in care centres
35. Privacy respect	Reception conditions in care centres

9.3 Article approche coping dyadique : article en cours de rédaction

Title : Dyadic coping strategies and experience of the quality of care : an original study about patients living with MS and their caregivers :

Authors :

Affiliations :

Short title : Dyadic coping and quality of care in MS

Keywords : Dyads, patients and caregivers experience, multiple sclerosis, coping

Introduction/problématique :

La SEP est une maladie chronique représentant la plus fréquente des pathologies neuro dégénératives acquises de l'adulte. Elle survient chez des patients jeunes, de sexe féminin dans 2 cas sur 3. (Howard J, Trevick S, Younger DS. *Epidemiology of Multiple Sclerosis. Neurol Clin. 2016 Nov;34(4):919-939. doi: 10.1016/j.ncl.2016.06.016. Epub 2016 Aug 18. PMID: 27720001*). Dans 8 cas sur 10, elle évolue dans un 1^{er} temps sous la forme de poussées (forme rémittente), puis, au fil des années, on constate une évolution plus progressive des symptômes (forme secondairement progressive). Dans 2 cas sur 10, l'apparition et l'évolution des symptômes est d'emblée progressive. L'évolution de la maladie varie beaucoup d'un patient à l'autre et est imprévisible, obligeant le patient à s'adapter en permanence aux conséquences de sa maladie. Quelle que soit la forme de la maladie, ces conséquences sont multiples, à la fois physiques, sensibles, cognitives et psychologiques. La fatigue et les douleurs sont des symptômes fréquents qui ont également un impact important sur la vie quotidienne des patients (Solaro C, Trabucco E, Messmer Uccelli M. Pain and multiple sclerosis: pathophysiology and treatment. *Curr Neurol Neurosci Rep. 2013 Jan;13(1):320* ; Bermejo PE, Oreja-Guevara C, Díez-Tejedor E. El dolor en la esclerosis multiple: prevalencia, mecanismos, tipos y tratamiento [Pain in multiple sclerosis: prevalence, mechanisms, types and treatment]. *Rev Neurol. 2010 Jan 16-31;50(2):101-8* ; Béthoux F. Fatigue and multiple sclerosis. *Ann Readapt Med Phys. 2006 Jul;49(6):265-71, 355-60. English, French* ; Greeke EE, Chua AS, Healy BC, Rintell DJ, Chitnis T, Glanz BI. Depression and fatigue in patients with multiple sclerosis. *J Neurol Sci. 2017 Sep 15;380:236-241*). Ce retentissement de la maladie sur la vie personnelle des patients, mais aussi sur leur vie familiale et sociale ainsi que leur vie professionnelle, est aujourd'hui bien documenté (Thompson AJ, Baranzini SE, Geurts J, Hemmer B, Ciccarelli O. Multiple sclerosis. *Lancet. 2018 Apr 21;391(10130):1622-1636*). De même, les conséquences des traitements de fond (immunomodulateurs et immunosuppresseurs) proposés depuis quelques dizaines d'années à une majorité de patients, qui peuvent parfois être très graves, sont connues et source de stress supplémentaire pour les patients (Vargas DL, Tyor WR. Update on disease-modifying therapies for multiple sclerosis. *J Investig Med. 2017 Jun;65(5):883-891*). Cette maladie, qui, malgré ces traitements, reste à ce jour incurable, va donc bouleverser la vie des patients dès l'annonce du diagnostic et pendant toute leur vie. Elle va également bouleverser celle de leurs proches, notamment leur famille et plus particulièrement leur conjoint qui, le plus souvent, endosse le rôle de proche aidant. Cet impact pour ces proches aidants est également brutal, dès l'annonce de la maladie. Il évoluera tout au long de celle-ci les obligeant à adapter

continuellement leur rôle auprès du patient. Le rôle et la place de ces proches aidants sont bien documentés aujourd'hui (Maguire R, Maguire P. *Caregiver Burden in Multiple Sclerosis: Recent Trends and Future Directions. Curr Neurol Neurosci Rep.* 2020 May 22;20(7):18 ; Carton H, Loos R, Pacolet J, Versieck K, Vlietinck R. *A quantitative study of unpaid caregiving in multiple sclerosis. Mult Scler.* 2000 Aug;6(4):274-9 ; Pakenham KI. *The nature of caregiving in multiple sclerosis: development of the caregiving tasks in multiple sclerosis scale. Mult Scler.* 2007 Aug;13(7):929-38. Comme le précise la définition retenue par le regroupement des aidants naturels du Québec, « ...ils assurent volontairement des soins, des services ou de l'accompagnement, sans rémunération, à une personne de leur entourage ayant une ou des incapacités temporaires ou permanentes (accident, handicap, maladie, vieillissement, etc.) et pour laquelle elles ont un lien affectif (père, mère, conjoint(e), enfant, frère, sœur, voisin(e), ami(e), etc.). C'est un rôle additionnel » (<https://ranq.qc.ca/procheaidante/>).

De même, de nombreux travaux ont été réalisés pour évaluer les ressources et les moyens que les patients et leurs proches aidants mobilisent pour faire face au stress qu'engendre la survenue dans leurs vies d'une pathologie chronique telle que la SEP. Dans ce domaine, le modèle proposé par Lazarus et Folkman au début des années 1980, appelé modèle transactionnel « stress-coping », fait toujours référence (Lazarus & Folkman, 1984). Il est centré sur l'interaction permanente et dynamique entre l'individu et son environnement qui inclue naturellement tout ce qui touche à la gestion et aux conséquences d'une maladie. Il désigne sous le terme de coping l'ensemble des efforts cognitifs et comportementaux de l'individu pour maîtriser, réduire ou tolérer les exigences internes ou externes, et particulièrement le stress, qui menacent ou dépassent ses ressources propres et menacent donc son bien être (I Paulhan, L'année psychologique 1992, le concept de Coping). Ainsi, selon ce modèle, face à ce stress, les patients atteints d'une SEP comme leurs proches aidants mobiliseront des stratégies centrées sur le problème et des stratégies centrées sur l'émotion (Lorefice L, Fenu G, Frau J, Coghe G, Marrosu MG, Cocco E. *The burden of multiple sclerosis and patients' coping strategies. BMJ Support Palliat Care.* 2018 Mar;8(1):38-40.; Bassi M, Cilia S, Falautano M, Grobberio M, Negri L, Niccolai C, Pattini M, Pietrolongo E, Quartuccio ME, Viterbo RG, Allegri B, Amato MP, Benin M, De Luca G, Gasperini C, Minacapelli E, Patti F, Trojano M, Delle Fave A. *The caring experience in multiple sclerosis: Caregiving tasks, coping strategies and psychological well-being. Health Soc Care Community.* 2020 Jan;28(1):236-246). Dans cette approche, les relations et interactions entre patient et proche aidant doivent aussi être prises en compte. En effet, l'impact de la maladie, comme la façon d'y faire face, pour l'un, agit aussi sur l'autre, et ils concernent des situations et des enjeux conjoints. C'est pourquoi, au-delà de l'étude de l'adaptation de chacun face au stress de la maladie, s'est développée une approche plus systémique prenant en compte l'influence du vécu de l'un sur l'autre et la façon d'y faire face du point de vue du couple patient-proche aidant, en tant qu'entité à part entière (Untas A et al *Psychologie française* 2012, *from the transactionnal model to a dyadic approach in health psychology*). Depuis plusieurs années les publications dans ce domaine se multiplient, notamment dans le contexte de pathologies chroniques comme le cancer (Bodenmann G et al ; *Editorial : Dyadic Coping, Frontiers in Psychology* 2019 ; Traa MJ et al, *Dyadic coping and relationship functioning in couples with cancer : a systmatic review. Britisch journal of health psychology*, 2015). Le but de ces travaux est de contribuer à des propositions d'interventions adaptées pour chacun et pour le couple, pour les aider à faire face au stress lié à la maladie, ce

qui, au final, pourrait contribuer à améliorer leurs expériences vis-à-vis de la qualité de leur parcours des soins.

Dans la cadre d'une pathologie telle que la SEP, marquée par des épisodes aigus et une évolution du handicap au long cours, ce mécanisme d'adaptation est à la fois permanent et évolutif (*Finlayson & Van Denend, 2003*). Les études publiées ont surtout étudié l'impact des stratégies de coping mobilisées par les patients et leurs proches aidants (individuellement et selon une approche dyadique) sur leur qualité de vie (*Pakenham KI. Adjustment to multiple sclerosis: application of a stress and coping model. Health Psychol. 1999 Jul;18(4):383-92; Pakenham KI. Application of a stress and coping model to caregiving in multiple sclerosis - Psychology, Health & Medicine, 2001; 6(1) : 13-27*). Comme pour les autres pathologies chroniques étudiées, elles ont mis en évidence des liens entre des stratégies de coping basées sur la pensée positive ou sur la résolution des problèmes et une amélioration de la qualité de vie des patients comme de leurs proches aidants. A l'inverse, des stratégies basées sur l'évitement sont associées à une altération de la qualité de vie. Ces études ont également mis en évidence l'interaction patient/proche aidant, confirmant l'enjeu de cette approche dyadique dans le cadre de cette maladie chronique (*Goretti B, Portaccio E, Zipoli V, Hakiki B, Siracusa G, Sorbi S, Amato MP. Coping strategies, psychological variables and their relationship with quality of life in multiple sclerosis. Neurol Sci. 2009 Feb;30(1):15-20; Lorefice L, Fenu G, Frau J, Coghe G, Marrosu MG, Cocco E. The burden of multiple sclerosis and patients' coping strategies. BMJ Support Palliat Care. 2018 Mar;8(1):38-40; Grech LB, Kiropoulos LA, Kirby KM, Butler E, Paine M, Hester R. Importance of Coping in the Relationship Between Executive Function and Quality of Life in People with Multiple Sclerosis. Int J MS Care. 2019 Sep-Oct;21(5):201-206; Montel SR, Bungener C. Coping and quality of life in one hundred and thirty five subjects with multiple sclerosis. Mult Scler. 2007 Apr;13(3):393-401; Bassi M, Cilia S, Falautano M, Grobberio M, Negri L, Niccolai C, Pattini M, Pietrolongo E, Quartuccio ME, Viterbo RG, Allegri B, Amato MP, Benin M, De Luca G, Gasperini C, Minacapelli E, Patti F, Trojano M, Delle Fave A. The caring experience in multiple sclerosis: Caregiving tasks, coping strategies and psychological well-being. Health Soc Care Community. 2020 Jan;28(1):236-246*).

Améliorer la qualité des soins des patients atteints d'une pathologie chronique comme la SEP reste un enjeu d'actualité majeur à l'échelle mondiale y compris dans un pays bénéficiant d'un système de soins comme la France. En effet, comme dans beaucoup de pays occidentaux, les parcours de soins des patients français sont complexes. Ils mobilisent de nombreux professionnels de santé, dispersés dans des organisations différentes, et dont la coordination pose de réelles difficultés. Au-delà de l'évolution des pratiques et des organisations des professionnels de santé, la prise en compte du point de vue et l'implication des patients, comme de leurs proches aidants, pour améliorer la qualité de ces parcours de soins, sont devenues incontournables. L'analyse de leurs besoins dans ce domaine repose notamment sur le recueil de leur vécu, de leurs expériences lors de leurs contacts avec le système de soins et avec les professionnels de santé. Ce concept prend peu à peu le pas sur l'évaluation de leur satisfaction à l'occasion d'un acte ou d'un épisode de soins. Mais, actuellement, les outils disponibles restent rares et ciblent, quasi exclusivement, les séjours hospitaliers (*Davidson MJ, Lacroix J, McMartin S, Kudhail R, Hart K, Diestelkamp N. Patient Experiences in Canadian Hospitals. Healthc Q. 2019 Oct;22(3):12-14; Enkinson C, Coulter A, Bruster S. The Picker Patient Experience Questionnaire: development and validation using data from in-patient surveys in*

five countries. Int J Qual Health Care. 2002 Oct;14(5):353-8). Or, le parcours de soins de patients atteints d'une SEP est constitué de beaucoup d'autres contacts avec les professionnels de santé et le système de santé que des séjours hospitaliers. C'est pourquoi nous avons élaboré un outil spécifique pour évaluer l'expérience et le vécu des patients atteints d'une SEP et de leurs proches aidants, tout au long de leur parcours de soins. Le questionnaire MusiCare a été élaboré et validé par un échantillon de plus de 1000 patients et proches aidants et recueille leurs expériences afin d'évaluer, de leur point de vue, la qualité de leur parcours de soins (Veillard D et al, *European Journal of Neurology*, 2021).

A ce jour, à notre connaissance, aucune étude concernant la SEP ou une autre pathologie, n'a étudié les liens entre les stratégies de Coping mises en place par la dyade patient-proche aidant et leur expérience vis-à-vis de la qualité des soins. La publication de Musicare nous a permis de réaliser cette 1^{ère} étude exploratoire (Veillard et al, *European Journal of neurology*, 2021). D'une façon générale nous faisons l'hypothèse que, comme pour les données disponibles concernant l'impact des stratégies de coping sur la qualité de vie de ces patients et de leurs proches aidants, leur expérience vis-à-vis de la qualité du parcours de soins serait meilleure lorsqu'ils mobiliseraient des stratégies d'adaptation dites positives et notamment celles de recherche de solution de problème et celle de réinterprétation positive.

Cette étude a mobilisé un échantillon de dyades patient/proche aidant pour évaluer comment leurs expériences vis-à-vis de la qualité du parcours de soins est liée aux stratégies de coping qu'ils mobilisent pour faire face au stress que génère une telle maladie dans leur vie. L'approche utilisée est celle de l'APIM qui intègre spécifiquement l'interdépendance des relations dans ce couple patient/proche aidant face à la maladie.

Méthodes

Design and settings

Cette étude est une étude transversale descriptive. La sélection des dyades patients-proches aidants a été réalisée à partir de la cohorte constituée dans le cadre de l'étude pour développer le questionnaire Musicare (cf article correspondant). Le recrutement des patients et de leurs proches aidants a été réalisé entre Juillet 2017 et Novembre 2018 selon 2 modalités i) lors de journées d'informations qui leurs étaient dédiées et organisées par les réseaux régionaux de la SEP (chaque région française est dotée d'un réseau régional dédié à la SEP) ii) par des appels à participer au projet via les sites internet ou les mailing list de ces réseaux et via les cabinets de consultations des neurologues, des médecins de médecine physique et de réadaptation, membres de ces réseaux. Sur les 1379 répondants (830 patients et 549 proches aidants), 660 patients (79.5%) et 428 proches aidants (77.9%) ont été inclus dans la cohorte. Chaque patient et chaque proche aidant inclus devait compléter les questionnaires suivants : i) MusiCare, questionnaire mesurant leurs expériences vis-à-vis de la qualité du parcours de soins du patient, ii) MusiQol et SF12 pour les patients et SF12 pour les proches aidants, questionnaires de qualité de vie, iii) Brief Cope, questionnaire pour identifier les stratégies d'ajustement, iiiii) London scale auto-questionnaire pour évaluer le niveau de handicap lié à la SEP iiiiii) échelle de Zarit pour mesurer le niveau d'épuisement du proche aidant (questionnaire complété exclusivement par les proches aidants). Des données socio-démographiques (âge, sexe, statut marital...) et des

données liées à la maladie (forme, durée, traitement en cours) étaient également recueillies auprès des patients et de leurs proches aidants.

Pour cette analyse des liens entre l'expérience de la qualité des parcours de soins et les stratégies de coping de la dyade patient et proche aidant, nous avons sélectionné l'ensemble des dyades pour lesquelles nous disposions de données complètes pour les questionnaires Musicare, SF12 et Brief Cope.

Sample selection

Les critères de sélection des patients étaient les suivants: 1) patient âgé de 18 ans et plus, 2) diagnostic de sclérose en plaques confirmée selon les critères de McDonald criteria, en excluant les syndromes cliniques isolés 3) patient parlant et comprenant couramment le français. Pour les proches aidants ces critères étaient les suivants 1) proche aidant âgé de 18 ans et plus, 2) désigné par le patient comme proche aidant naturel (i.e. aidant non institutionnel et personne la plus impliquée dans les décisions relatives à la maladie du patient), 3) parlant et comprenant couramment le français, et 4) personne non atteinte d'une SEP. Tous les patients et les proches aidants inclus ont donné leur consentement.

Ethique

Le projet a été approuvé par le CPP de Rennes Ouest V the 9th of November (N° 10/36-778) et enregistré sur clinical trial (NCT02388334).

Data collection and measures

Toutes les données ont été renseignées lors du remplissage des questionnaires par chaque patient et par son proche aidant, indépendamment. Dans 9 cas sur 10 ils les ont complétés sous format numérique grâce à un lien qui leur permettait d'accéder à leurs questionnaires, avec un numéro anonymisé, et, dans 1 cas sur 10, sous format papier. Les questionnaires papier leurs étaient transmis à leur adresse postale, avec une enveloppe timbrée pour le retour. Un numéro anonymisé était également attribué pour ces questionnaires reçus et saisis par l'équipe projet.

Les données socio-démographiques et les données liées à la SEP, renseignées par les patients, étaient les suivantes : âge, sexe, statut marital, niveau d'études, profession, nombre d'enfants, lieu de vie, forme de la maladie, durée d'évolution de la maladie, traitement de fond en cours, suivi médical spécialisé, maladie intercurrente.

Les données socio-démographiques et les données liées à la maladie du patient, renseignées par les proches aidants, étaient les suivantes : âge, sexe, statut marital, niveau d'études, profession, nombre d'enfants, lieu de vie, liens avec le patient, intervention d'un autre proche aidant.

Le questionnaire MusiCare est un questionnaire spécifique à la SEP qui permet de recueillir l'expérience des patients et de leurs proches aidants vis-à-vis de la qualité du parcours de soins des patients. Il comprend 35 questions répartis selon 5 dimensions : l'information à propos de la maladie en général (informations à propos des causes, symptômes, conséquences et de l'évolution de la maladie), l'information à propos des traitements et des examens complémentaires liés à la maladie, les relations et la communication avec les professionnels de santé, les délais d'accès aux soins, l'accueil dans les lieux de soins.

Le questionnaire SF 12 est un questionnaire générique de qualité de vie, version abrégée du questionnaire SF36. C'est un questionnaire validé en langue française et largement utilisé en population générale. Il est composé de 12 questions qui se répartissent selon 8 dimensions qui permettent de calculer 2 scores : le score composite physique (SCP) et le score composite mental (SCM). Un score élevé indique que le répondant considère que sa condition physique ou sa condition mentale/psychologique est bonne ou très bonne et, à l'inverse, un score faible indique que ces conditions sont dégradées.

Le Brief Coping est un questionnaire qui mesure l'adaptation du répondant pour faire face à une situation de stress comme les conséquences d'une maladie chronique telle que la SEP. Il est validé pour la population française (Muller L, Spitz E. *Evaluation multidimensionnelle du coping: validation du Brief COPE sur une population française [Multidimensional assessment of coping: validation of the Brief COPE among french population]*. *Encephale*. 2003 Nov-Dec;29(6):507-18). Il est composé de 28 questions qui renseignent 4 stratégies d'adaptation : la recherche de soutien social, la recherche de solution aux problèmes, l'évitement et la réinterprétation positive (centré sur la gestion de la détresse émotionnelle). Les données sont interprétées par dimension sur la base d'un score calculé allant de 0 à 100. Pour ces 4 dimensions un score élevé correspond à une tendance forte de mobilisation de la stratégie d'adaptation correspondante par le répondant.

Statistical aspects.

Une analyse descriptive des caractéristiques socio-démographiques et des caractéristiques liées à la maladie a été réalisée pour les patients d'une part et pour les proches aidants d'autre part. De même une analyse descriptive des réponses des uns et des autres aux questionnaires MusiCare et Brief Coping a également été réalisée. Enfin une analyse descriptive du niveau du handicap par le renseignement de la London Scale par chaque patient inclus a été réalisée.

Une comparaison entre les scores des patients et ceux des proches aidants a été réalisée par dimension pour les questionnaires MusiCare et Brief Coping.

Results

Caractéristiques des dyades patient-proche aidant :

Toutes les caractéristiques liées aux patients, aux proches aidants et à la maladie sont présentées dans le tableau 1.

Sur les 660 patients et 428 proches aidants de la cohorte MusiCare, 184 dyades patient/proche aidant ont été identifiées et 183 ont été incluses dans l'analyse. Une dyade a été exclue à cause de données manquantes liées aux caractéristiques personnelles et aux caractéristiques de la maladie trop importantes pour le patient.

Les dyades incluses ne présentent pas de caractéristiques significativement différentes par rapport à la cohorte MusiCare en dehors du fait que les patients et les aidants inclus pour cette analyse déclarent plus souvent être en couple et que le niveau d'études des patients inclus est moins élevé.

Expérience de la qualité du parcours de soins et stratégies de Coping des patients et de leurs proches aidants :

L'ensemble des scores par dimension correspondant à l'expérience de la qualité des parcours de soins (MusciCare), aux stratégies de coping (Brief Cope) et à la qualité de vie des patients et de leurs proches aidants sont présentés dans les tableaux 2 et 3.

Concernant l'expérience liée à la qualité de leur parcours de soins, les scores globaux, pour les patients comme pour les proches aidants sont, en médiane et en moyenne, tous supérieurs à 60/100 sauf pour l'expérience de l'accès aux soins selon les proches aidants. Le vécu le plus positif des patients, comme de leurs proches aidants, est celui de leurs relations avec les professionnels de santé alors que ceux les moins positifs sont l'accès aux soins et l'accueil dans les lieux de soins. Les proches aidants ont une expérience significativement plus négative de cet accès aux soins que les patients, ainsi que des informations sur les traitements et les examens complémentaires liés à la maladie.

Concernant les stratégies de Coping, celles de recherche de solutions aux problèmes (problem solving) et de réinterprétation positive (positive thinking) sont les plus mobilisées par les patients comme par les proches aidants. Par ailleurs, les patients ont significativement plus tendance à mobiliser également les 2 autres stratégies (recherche de soutien social et évitement) que les proches aidants.

Concernant les scores de qualité de vie, on constate que celles des patients est significativement plus dégradée que celle de leurs proches aidants pour la dimension physique comme pour la dimension psychologique. Pour les patients c'est la dimension physique qui est la plus altérée alors que pour les aidants c'est la dimension psychologique.

Liens entre les stratégies de coping et la qualité des soins perçues :

Les corrélations entre les scores de chaque stratégie de Coping et les scores de chaque dimension de l'expérience de la qualité des soins (MusciCare) sont détaillées pour les patients et pour leurs proches aidants dans le tableau 4.

Pour les patients, aucune stratégie de Coping n'est corrélée à leur vécu et leur perception des informations reçues sur leur maladie en générale ainsi que vis-à-vis de leur accès aux soins ou de l'accueil dans les lieux de soins. Par contre, la mobilisation d'une stratégie de type recherche de solution aux problèmes est associée à une meilleure expérience concernant les informations qu'ils reçoivent à propos de leurs traitements et de leurs examens complémentaires et concernant leurs relations avec les professionnels de santé avec lesquels ils sont en contact au cours de leur parcours de soins. La mobilisation d'une stratégie de type réinterprétation positive est quant à elle associée à une meilleure expérience vis-à-vis de l'accueil dans les lieux de soins.

Pour les proches aidants, la mobilisation d'une stratégie de type réinterprétation positive est associée à une meilleure expérience pour toutes les dimensions du questionnaire MusciCare sauf celle liée à l'accueil dans les lieux de soins. De même, la mobilisation d'une stratégie de type recherche de solutions aux problèmes est associée à une meilleure expérience vis à vis des informations qui leurs sont transmises sur la maladie en générale ainsi que de leurs relations avec les professionnels de santé.

Nous avons également mis en évidence des relations entre les stratégies de coping mobilisées par les patients et l'expérience des proches aidants, et réciproquement. Ainsi, lorsque les patients mobilisent une stratégie de type réinterprétation positive, leurs proches aidants ont une

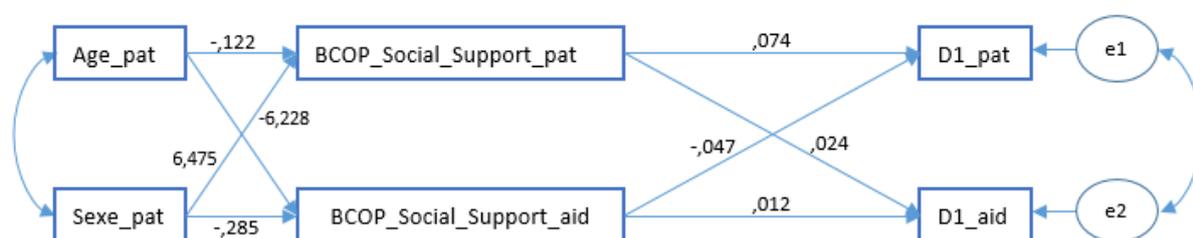
meilleure expérience pour 3 des 5 dimensions du questionnaire MusiCare (informations générales sur la maladie, relations avec les professionnels de santé, délais d'accès aux soins). De même, lorsque les proches aidants mobilisent ce type de stratégie, les patients ont une meilleure expérience de leurs relations avec les professionnels de santé.

En intégrant le modèle APIM, la plupart des résultats ci-dessus se confirment, qu'ils soient ajustés sur l'âge et le sexe ou pas (cf figures). Ainsi, pour ce qui concerne les patients, la mobilisation d'une stratégie de type recherche de résolutions aux problèmes reste associée à une meilleure expérience vis-à-vis des informations qu'ils reçoivent sur leurs traitements et leurs examens complémentaires comme vis-à-vis de leurs relations avec les professionnels de santé. Celle de type réinterprétation positive reste liée à une meilleure expérience vis-à-vis de l'accueil dans les lieux de soins. Pour ce qui concerne les aidants, la mobilisation d'une stratégie de type recherche de résolutions aux problèmes est associée à une meilleure expérience des informations qui leurs sont transmises sur la maladie en générale, de leurs relations avec les professionnels de santé, mais aussi des informations reçues concernant les traitements et les examens complémentaires des patients (limite de significativité par l'étude de la corrélation des scores). De même, la mobilisation d'une stratégie de type réinterprétation positive reste associée à une meilleure expérience des informations générales sur la maladie, relations avec les professionnels de santé, mais pas de celle correspondant à l'accès aux soins.

Concernant les interactions réciproques entre les patients et les aidants, en intégrant ce modèle APIM, nous retrouvons 2 effets : la mobilisation par les patients de stratégies de recherche de résolutions aux problèmes et de réinterprétation positive sont associés à une meilleure expérience par les proches aidants, des relations avec les professionnels de santé.

Figure 1 : Résultats du modèle saturé avec covariables d'ajustement (âge et sexe du patient)

Brief cope → Musicare



Discussion :

A notre connaissance cette étude est la 1^{ère} étude publiée décrivant les liens entre stratégies de coping et expérience des patients vis-à-vis de la qualité des soins. De plus, cette étude prend en compte le point de vue des proches aidants de ces patients ce qui a permis d'intégrer à notre analyse une approche dyadique basée sur l'APIM, c'est-à-dire de prendre en compte les interdépendances entre leurs stratégies d'adaptation respectives et leur vécu et perception vis-à-vis de la qualité des soins mesurés par le questionnaire MusiCare.

Le 1^{er} constat de cette étude réalisée sur un large échantillon, est que patients et proches aidants mobilisent les mêmes stratégies d'adaptation à savoir, en 1^{er} lieu, la recherche de solutions aux

problèmes et la réinterprétation positive, stratégies considérées comme les plus adaptées pour faire face au stress dû à une maladie, notamment une pathologie chronique comme la SEP. Ces résultats rejoignent les constats d'études antérieures décrivant les stratégies de coping mobilisées par les patients atteints d'une SEP et par les proches aidants de ces patients, même si les observations conjointes des couples patients- proches aidants sont rares. Concernant les patients, c'est le cas de plusieurs études européennes mais aussi d'études réalisées dans des pays émergents, même si certaines constatent que ces patients ont moins recours à ces stratégies que des personnes non malades issues de la population générale (Holland DP, Schlüter DK, Young CA, Mills RJ, Rog DJ, Ford HL, Orchard K; TONiC study group. *Use of coping strategies in multiple sclerosis: Association with demographic and disease related characteristics. Mult Scler Relat Disord.* 2019 Jan;27:214-222; Goretti B, Portaccio E, Zipoli V, Hakiki B, Siracusa G, Sorbi S, Amato MP. *Coping strategies, psychological variables and their relationship with quality of life in multiple sclerosis. Neurol Sci.* 2009 Feb;30(1):15-20; Lode K, Larsen JP, Bru E, Klevan G, Myhr KM, Nyland H. *Patient information and coping styles in multiple sclerosis. Mult Scler.* 2007 Jul;13(6):792-9; Lode K, Bru E, Klevan G, Myhr KM, Nyland H, Larsen JP. *Coping with multiple sclerosis: a 5-year follow-up study. Acta Neurol Scand.* 2010 Nov;122(5):336-42. Hernández-Ledesma AL, Rodríguez-Méndez AJ, Gallardo-Vidal LS, Trejo-Cruz G, García-Solís P, Dávila-Esquivel FJ. *Coping strategies and quality of life in Mexican multiple sclerosis patients: Physical, psychological and social factors relationship. Mult Scler Relat Disord.* 2018 Oct;25:122-127 ; Farran N, Ammar D, Darwish H. *Quality of life and coping strategies in Lebanese Multiple Sclerosis patients: A pilot study. Mult Scler Relat Disord.* 2016 Mar;6:21-27.). Concernant les proches aidants, les résultats d'une étude australienne de référence publiée en 2007 comme d'une étude italienne plus récente, vont dans le même sens que ceux que nous avons observés (Pakenham KI. *Relations Between Coping and Positive and Negative Outcomes in Carers of Persons with Multiple Sclerosis (MS) Journal of Clinical Psychology in Medical Settings.* Vol 12, N°1, March 2005 : 25-38 ; Bassi M, Cilia S, Falautano M, Grobberio M, Negri L, Niccolai C, Pattini M, Pietrolongo E, Quartuccio ME, Viterbo RG, Allegri B, Amato MP, Benin M, De Luca G, Gasperini C, Minacapelli E, Patti F, Trojano M, Delle Fave A. *The caring experience in multiple sclerosis: Caregiving tasks, coping strategies and psychological well being. Health Soc Care Community.* 2020 Jan;28(1):236-246). D'autre part, Hawken T et al dans une revue de la littérature ciblant les stratégies de coping des proches aidants de patients atteints d'une pathologie chronique retrouvent que, même si chaque stratégie peut être associée à des conséquences positives et négatives, celles basées sur la recherche de solutions aux problèmes et sur la réinterprétation positive étaient associées à plus de conséquences positives pour ces proches aidants (Hawken T, Turner-Cobb J, Barnett J. *Coping and adjustment in caregivers: A systematic review. Health Psychol Open.* 2018 Nov 9;5(2) : 1-10). Parmi les conséquences positives liées à la mobilisation de ces stratégies, nous avons constaté qu'elles étaient associées à de meilleurs scores de la dimension « santé mentale » des questionnaires de qualité de vie renseignés par les patients comme par leurs proches aidants. Ces constats rejoignent ceux d'études déjà publiées dans ce domaine (Goretti B, Portaccio E, Zipoli V, Hakiki B, Siracusa G, Sorbi S, Amato MP. *Coping strategies, psychological variables and their relationship with quality of life in multiple sclerosis. Neurol Sci.* 2009 Feb;30(1):15-20; Lorefice L, Fenu G, Frau J, Coghe G, Marrosu MG, Cocco E. *The burden of multiple sclerosis and patients' coping*

strategies. *BMJ Support Palliat Care*. 2018 Mar;8(1):38-40; Grech LB, Kiropoulos LA, Kirby KM, Butler E, Paine M, Hester R. Importance of Coping in the Relationship Between Executive Function and Quality of Life in People with Multiple Sclerosis. *Int J MS Care*. 2019 Sep-Oct;21(5):201-206; Montel SR, Bungener C. Coping and quality of life in one hundred and thirty five subjects with multiple sclerosis. *Mult Scler*. 2007 Apr;13(3):393-401; Bassi M, Cilia S, Falautano M, Grobberio M, Negri L, Niccolai C, Pattini M, Pietrolongo E, Quartuccio ME, Viterbo RG, Allegri B, Amato MP, Benin M, De Luca G, Gasperini C, Minacapelli E, Patti F, Trojano M, Delle Fave A. The caring experience in multiple sclerosis: Caregiving tasks, coping strategies and psychological well-being. *Health Soc Care Community*. 2020 Jan;28(1):236-246). Mais nous avons également observé qu'elles étaient associées à un meilleur vécu et une meilleure expérience de la qualité du parcours de soins. Pour les patients, c'est le cas notamment pour l'information concernant leurs traitements et leurs examens complémentaires, leurs relations avec les professionnels de santé et l'accueil dans les lieux de soins alors que pour les proches aidants c'est le cas pour toutes les dimensions de MusiCare sauf pour l'accueil dans les lieux de soins. A ce sujet, l'analyse de type APIM permet également de mettre en évidence des interactions au sein de la dyade patient-proche aidant puisque la mobilisation par les patients de stratégies de recherche de résolutions aux problèmes et de réinterprétation positive étant associée à une meilleure expérience, par les proches aidants, des relations avec les professionnels de santé. Notre hypothèse que la mobilisation de ces stratégies aurait également un impact positif sur l'expérience de la qualité des soins des dyades patient atteint d'une SEP – proche aidant semble donc une hypothèse probable.

On peut donc en déduire que les interventions que l'on proposerait aux patients et à leurs proches aidants pour améliorer la gestion de leur stress face à la maladie, auraient alors un impact positif non seulement sur leur qualité de vie mais aussi sur leur expérience de la qualité de leur parcours de soins. A ce titre, plusieurs propositions de programme de soutien à l'intention des couples existent, notamment dans le contexte d'un cancer touchant l'un des membres du couple (Bodenmann G, Randall AK. Common factors in the enhancement of dyadic coping. *Behav Ther*. 2012 Mar;43(1):88-98 ; Scott JL, Halford WK, Ward BG. United we stand? The effects of a couple-coping intervention on adjustment to early stage breast or gynecological cancer. *J Consult Clin Psychol*. 2004 Dec;72(6):1122-35 ; Regan TW, Lambert SD, Girgis A, Kelly B, Kayser K, Turner J. Do couple-based interventions make a difference for couples affected by cancer? A systematic review. *BMC Cancer*. 2012 Jul 6;12:279). Elles sont cependant, à notre connaissance, peu mobilisées à ce jour dans le cadre d'une pathologie comme la SEP et les propositions de soutien psychologiques existantes ciblent surtout le patient, parfois le proche aidant, mais encore très rarement le couple. Il y a donc là une piste concrète de réflexion et d'actions d'amélioration de la prise en charge de ces patients.

Même si les stratégies recherche de solutions aux problèmes et réinterprétation positive sont les plus mobilisées par les dyades incluses dans notre étude, une partie des patients comme de leurs proches aidants mobilisent également les 2 autres stratégies qu'explore l'échelle Brief Cope à savoir l'évitement et la recherche de soutien social. Ces observations qui rejoignent aussi les constats des études citées ci-dessus sont importantes à prendre en compte pour cibler les patients et proches aidants à qui proposer des interventions de soutien adaptées. De façon générale, il serait donc pertinent de proposer aux patients atteints d'une SEP et à leurs proches aidants d'évaluer, de façon systématique, leurs façons de s'adapter face au stress généré par la maladie

et ses conséquences sur leurs vies, à différents temps de l'évolution de cette maladie (à la phase diagnostique, suite à l'aggravation du handicap, suite à des changements importants dans la prise en charge ou plus largement dans la vie du patient).

Les résultats issus de cette étude exploratoire doivent être confirmés par d'autres études avec un design plus adapté pour étudier les liens de causalité entre stratégies de Coping et expérience de la qualité des soins. Par ailleurs, il faudrait compléter notre approche en explorant l'influence des caractéristiques des patients et de leurs proches aidants comme celles de la maladie sur leur expérience de la qualité des soins. En effet, au-delà de l'âge et du sexe que nous avons pris en compte notamment pour l'analyse APIM, d'autres variables comme par exemple la forme et la durée de la maladie pourraient être liées à cette expérience. De même, nous n'avons pas pu explorer d'éventuelles différences selon la nature des relations entre patient et proche aidant, car plus de 80% des patients inclus leur proche aidant était leur conjoint. Or, on peut faire l'hypothèse que le fait que le proche aidant soit, par exemple, un ami ou un voisin, ait un impact différent sur l'interdépendance patient-proche aidant que s'il est le conjoint. Or, comme le montre les résultats de notre étude, cette interdépendance intervient sur l'expérience et le vécu de la qualité des soins. Par ailleurs, il serait intéressant de comparer les résultats des liens observés entre les stratégies d'adaptation et l'expérience de la qualité des soins des patients de notre étude avec des patients n'ayant pas de proche aidant.

9.4 Article du développement des indicateurs qualité :

Title : Developing tools to evaluate quality of care management for patients living with Multiple Sclerosis: an original French initiative

David Veillard, MD, Service d'Epidémiologie et de Santé Publique du Centre Hospitalier Universitaire, Rennes, F-35000 France and Equipe d'Accueil 3279 Centre d'Etudes et de Recherche sur les Services de Santé et la Qualité de Vie, Aix Marseille Université, Marseille, F-13000 France. david.veillard@chu-rennes.fr

Veronique Deburghgraeve, MD, Service de neurologie du Centre Hospitalier Universitaire and Clinical Neuroscience Center CIC-P 1414 INSERM, Rennes, F-35000 France. veronique.deburghgraeve@chu-rennes.fr

Emmanuelle Le Page, MD, Service de neurologie du Centre Hospitalier Universitaire and Clinical Neuroscience Center CIC-P 1414 INSERM, Rennes, F-35000 France. emmanuelle.Le.Page@chu-rennes.fr

Marc Debouverie MD, PhD, Equipe d'Accueil 4360 Adaptation, mesure et évaluation en santé. Approches interdisciplinaires, Université de Lorraine and Service de Neurologie du Centre Hospitalier Universitaire de Nancy, Nancy, F-54000 France. m.debouverie@chru-nancy.fr

Sandrine Wiertlewski MD, Clinique Neurologique du Centre Hospitalier Universitaire de Nantes, Nantes F-44000, France. sandrine.wiertlewski@chu-nantes.fr

Philippe Gallien MD, Pôle de médecine physique et de réhabilitation Saint Hélier, Rennes F-35000, France. philippe.gallien@pole-sthelier.com

Gilles Edan, MD, PhD, Clinical Neuroscience Centre, CIC-P 1414 INSERM Université de Rennes 1, Rennes F-35000, France. gilles.edan@chu-rennes.fr

Corresponding author : David Veillard, Tel.: +33 (0)2 99 28 97 76, Fax: +33(0)2 99 28 97 66 david.veillard@chu-rennes.fr

Keywords: multiple sclerosis; quality of health care; health services; patient care management; clinical pathways

Title: Developing tools to evaluate quality of care management for patients living with Multiple Sclerosis: an original French initiative

Abstract

Introduction: Assessing the quality of care management for patients with a chronic disease such as multiple sclerosis (MS) is a major challenge for healthcare systems around the world. It needs to be carried out using tools that are recognized by professionals and patients alike, and should concern practices, systems, and scientific data. No such tools are currently available in Europe. The purpose of the present study was to develop indicators to contribute to assess the quality of care management for patients with MS in France.

Methods: An expert panel comprising 25 professionals from well known teams across France selected the indicators on the basis of consensus. In accordance with the Rand/UCLA

Appropriateness Method, each expert had to agree with the recommendations, and there had to be agreement among the experts.

Results: The expert panel selected 48 indicators representing seven domains of care management for patients with MS: physical and rehabilitation medicine, disease progression, access to care, magnetic resonance imaging (MRI) management, relapse management, management of disease-modifying treatments, and management of the symptoms of disability progression. Some of these quality indicators (notably pertaining to MRI management) had not previously been identified in the literature.

Conclusion: These indicators may allow professionals to comprehensively assess and compare their practices and cooperation, thereby contributing to improve the quality of care management for patients with MS in France.

Keywords: multiple sclerosis; care management; care indicators; clinical pathways

1. Introduction

Recent diagnostic (imaging) and therapeutic (disease-modifying drugs) innovations have profoundly modified Multiple Sclerosis (MS) progression, management practices, and thus the expectations of both patients and their entourage.

These patients have numerous and complex care needs, and require input from different medical specialties and healthcare professionals [1,2]. One of the challenges is to ensure communication between hospital- and office-based professionals, as well as between neurology and others medical specialties. To meet this challenge, professionals have set up structures to improve the coordination of care, and ensure multiprofessional and multidisciplinary consensus, the implementation of best practice recommendations, and patient involvement through therapeutic education and complication-prevention programs. These structures take the form of chronic disease-management programs in the United States, care networks in France and Canada, and specialist centers (e.g., MS clinics) in many other countries [3-5]. Although several studies have highlighted discrepancies between best clinical practice recommendations and actual patient-management practices, the lack of suitable assessment tools means that there have yet to be any large-scale studies on this subject [6-9].

To assess the quality of care management for patients with MS, taking the different phases of MS progression into account, tools must be developed using a recognized standard methodology and validated in accordance with evidence-based medicine. Quality indicators are one of the cornerstones of this type of undertaking [10-11]. According to the United States National Library of Medicine, they can be defined as “norms, criteria, standards and other direct qualitative and quantitative measures used in determining the quality of health care” [12]. Some of these indicators assess different healthcare processes. In France, for example, process indicators form the basis of the annual national survey of healthcare quality and safety, which concerns all short-stay units in both public and private healthcare facilities [13].

Analysis of published international data suggests that Cheng et al. are the only authors so far to have proposed a list of quality indicators for MS, and these were specifically aimed at the

healthcare system in the United States [14]. In 2015, the American Academy of Neurology (AAN) published a list of quality indicators intended to improve the management outcomes of patients with MS in the United States. This list contained several of the indicators that Cheng et al. had suggested in 2010 [14]. However, these indicators cannot all be automatically applied to all healthcare systems, not least those in Europe. Free choice of healthcare system, universal healthcare insurance, and the parallel private and public systems that prevail in European countries rely on different management practices, thereby justifying the development of specific assessment tools [15-18]. Regarding the care paths of patients with MS, coordination among professionals and the time taken to access specialist or complementary examinations are two particularly important markers of quality [7,19], but neither one features in Cheng et al.'s list of indicators [14]. Finally, according to the literature on the methodology for developing these tools, testing on a patient sample that represents the target population is an integral part of the process [10,18,20,21]. However, none of the studies conducted to identify relevant indicators of care management quality for patients with MS has yet reached this stage.

The present study was therefore undertaken to establish a list of indicators for assessing the quality of care management for patients with MS. In this paper, we describe the methodology that we applied to identify and select these indicators.

2. Methods

2.1 General information

To identify and select the quality indicators, we relied on a well known systematic method that has already been tried and tested for other neurological pathologies: the Rand/UCLA Appropriateness Method (RAM), described in the 1980s by the RAND Corporation and the University of California, Los Angeles [18,20-22]. The main aim of this method is to allow experts to make decisions by consensus, based on the degree of agreement of each expert with the recommendations and the degree of agreement among the experts. We developed quality indicators in two steps: identification of the relevant domains, and selection of items pertaining to each of these domains [12]. A steering committee (comprising VD, GE, DV, PG and A. Muret, a quality engineer at Rennes University Hospital) supervised and coordinated the entire procedure. A panel of 25 French MS care management experts from neurology and physical and rehabilitation medicine (PRM) teams working in public university (5 teams) or non-university hospitals (5 teams) or private facilities (3 teams) or MS regional networks (teams from 3 regions) were recruited to select the domains and their indicators. Most of them were daily involved in MS care in their professional work and university teams were well recognized at national but also international level. We also included professionals less involved in MS care in their professional work to ensure that the indicators that would be selected are suitable for all practices and not just those of the professionals most involved in the care of these patients. No teams we asked to participate decline our request. In order to inform their thinking and decision-making when defining the domains and rating the quality indicators, the experts (i.e., neurologists, PRM hospital physicians, and MS nurses) could call on other professionals in their teams including physiotherapists, psychologists, ophthalmologists, and occupational medicine physicians.

2.2 Step 1: Selection of domains

Based on an analysis of the available bibliographical data (PubMed and Cochrane Database; MeSH terms: Persons / Occupational Groups / Health Personnel / Physicians / Neurologists; Health Care Facilities, Manpower, and Services; Health Occupations / Medicine / Physical and Rehabilitation Medicine; and Health Occupations / Medicine / Public Health), the White Paper on MS in France (2006), and French Health Authority (HAS) publications, the steering committee drew up a list of 12 domains that have an impact on the quality of care management for patients with MS: neurological management, magnetic resonance imaging (MRI) management, ophthalmological management, multidisciplinary management, relapse management, management of psychological and cognitive dysfunction, immunomodulatory therapy management, mitoxantrone therapy management, natalizumab therapy management, educational-therapeutic monitoring, work-impact monitoring, and access to therapeutic innovations (see Table A).

This initial list was discussed and reviewed by the panel of experts, who retained seven domains (see Table B).

2.3 Step 2: Selection of items for each domain

The steering committee drew up a list of indicators for each of these seven domains (see Table B). For each indicator, a technical worksheet was created with the following details: indicator name, definition, source(s) (based on bibliographical data), means of collecting relevant information about the patients from their medical files or administrative databases, how to express the collected data (e.g., ratios, durations, etc.), patient population concerned (all patients or specific subgroups), and relevant time span (range in years).

The steering committee e-mailed or posted the technical worksheets to the members of the expert panel. In Round 1 (April to September 2011), each expert had to rate the appropriateness of each indicator on a Likert scale ranging from 1 (Totally inappropriate) to 9 (Totally appropriate). The RAM states that appropriateness should be judged in terms of the indicator's impact on patients' health status, the percentage of patients potentially affected by the indicator, and the level of evidence-based medicine. The experts were free to make comments, reword the indicators, or even add new ones. The steering committee collated the feedback and sent summaries to each expert (respecting each expert's anonymity). Then, during a face-to-face plenary session of the steering committee and the panel of experts (November 2011), participants discussed and reviewed their different opinions until they reached a consensus on a revised set of indicators. DV moderated this meeting.

For Round 2 (January to March 2012), the steering committee sent out new technical worksheets to the experts, so that they could rate the appropriateness of the revised indicators, as they had done in Round 1. Quality indicators corresponding to PRM domains were rated by the panel's rehabilitation specialists, while indicators for the other domains were examined by panel's neurologists and MS nurses. None of the experts dropped out between Rounds 1 and 2. A definitive set of indicators was then created for each domain, containing all the indicators rated as appropriate in both rounds, according to the calculation methods described below.

2.4 Data analyses

The selection of the quality indicators was based on consensus among the experts. The RAM was used to assess disagreement and importance/appropriateness (and thus define consensus), as it had been by Cheng et al. [14,23]. According to this method, two aspects must be considered to establish a consensus for each indicator : each expert's degree of agreement with the proposed indicator, and the degree of agreement among the experts. The ratings on the Likert scales were used to ascertain each expert's degree of agreement with each proposal made by the steering committee. Establishing consensus among experts involved calculating the median score, the interpercentile range (IPR; 30th to 70th), and the interpercentile range adjusted for symmetry (IPRAS) for each item.

Owing to the non-normal distribution of ratings on the Likert scale, each indicator was classified according to its median appropriateness rating (1–9). Accordingly, for each indicator, the median and its dispersion were calculated according to the IPRAS, as follows: $IPRAS = IPRr + (AI \times CFA)$, where IPRr is the interpercentile range required for disagreement when perfect symmetry exists, AI is the asymmetry index, and CFA is the correction factor for asymmetry [23]

An indicator with a median between 7 and 9, and an IPRAS score higher than its IPR/IPRr, was considered appropriate; an indicator with a median between 7 and 9, and an IPRAS score lower than its IPR/IPRr or an IPRAS score higher than its IPR/IPRr but with half the ratings outside the 7–9 range, was classified as to be discussed; an indicator with a median between 4 and 6, regardless of the IPRAS score, was classified as to be discussed; and an indicator with a median between 1 and 3, regardless of its IPRAS score, was considered as not appropriate.

2.5 Ethics and consent

This study was approved by the Ethics Committee Ouest V in November 2010 (ref. 10/36-778), and the French Data Protection Authority (CNIL; authorization no. 911029).

3. Results

The expert panel retained seven of the 12 domains initially identified by the steering committee, including one specific to PRM (Step 1). In particular, they decided to combine the individualized mitoxantrone and natalizumab domains into one addressing immunosuppressive drug management. They also decided to group six other domains into two new ones: disease progression (neurological, ophthalmological, and multidisciplinary management), and access to care (management of psychological and cognitive disorders, work-impact considerations, and access to therapeutic innovations).

An initial set of 54 indicators, including 12 indicators pertaining to the PRM domain, was proposed by the steering committee (Table A).

3.1 Indicators concerning disease progression, access to care, MRI management, management of relapses, management of patients prescribed an immunomodulatory or immunosuppressive drug:

In Round 1, 26 of the 42 proposed indicators were rated as appropriate, 16 as to be discussed and none as not appropriate. Among the 26 appropriate indicators, the expert panel requested complementary information about three of them on their technical sheets.

The discussion among panel members mostly addressed the 16 indicators rated as to be discussed. Exchanges concerned the level of evidence-based medicine, sometimes considered insufficient for part of the indicator's definition (e.g., immunomodulator treatment duration), as well as the fact that some proposed indicators concerned only a small proportion of the target population (e.g., access to multidisciplinary consultation with at least two medical specialties present during the same consultation for a given patient). Discussions also addressed the relevance of some indicator definitions (e.g., skills acquired by immunomodulator-treated patients during self-injection training sessions). Suggested modifications and reformulations of indicators were also included in the technical worksheets subjected to Round-2 ratings (e.g., "Time to consultation with an ophthalmologist after a neurologist's first detection of visual disorders", which was reformulated as "Time to consultation with an ophthalmologist for patients with visual disorders").

In Round 2, nine indicators were reclassified as appropriate, and eight as not appropriate. Thus, a total of 35 indicators were validated for these six domains (Table B).

3.2 PRM indicators

In Round 1, five of the 12 proposed indicators were rated as appropriate, seven as to be discussed, and none as not appropriate.

The panel of experts decided to modify the definition of one of the five indicators judged appropriate (time to PRM consultation should target patients with an Expanded Disability Status Scale (EDSS) score ≥ 3 , and not all patients with MS regardless of EDSS score). Other than this modification, the experts' discussions concerned the seven indicators rated as to be discussed in Round 1. Their changes addressed the level of evidence-based medicine (e.g., botulin toxin indication for patients with focal spasticity) and the indicator definitions (e.g., access to a PRM center was initially considered for patients with a residual EDSS score ≥ 4 , but the final wording included those with an EDSS score ≥ 3). Moreover, a newly proposed indicator addressing the assessment of fatigue during a PRM consultation was validated by the expert panel.

In Round 2, the seven modified indicators and the newly added indicator were rated as appropriate. Thus, 13 indicators were validated for the seventh domain focusing on PRM management.

At the end of the entire process, seven MS care domains containing 48 indicators were validated.

4. Discussion

The care path of patients with MS, a chronic disease that progresses over several decades, requires the input of multiple healthcare professionals from different specialties [5,19]. Given the financial cost of MS management to the French healthcare system, it is important to assess how far existing systems and practices measure up to available recommendations for improving the quality of patient care. For this reason, professionals, patients and system regulators must use validated assessment tools. The method we adopted, based on medical evidence and expert

consensus, allowed for the selection of 48 quality indicators in seven domains linked to the quality of care management for patients with MS. These indicators refer not only to symptoms and specific consultations or procedures, but also to other dimensions deemed relevant by the experts for assessing quality of care management for these patients. These dimensions include coordination between professionals, and time to access specialist consultations or innovative therapies [2,19]. The standardized methodology used in the present study allowed us to make choices based on expert consensus. These choices will allow teams of healthcare professionals to access valuable information for assessing and comparing their practices and structures. If this is associated with other types of information, notably clinical data and the results of patient-reported outcome measures (PROMs) and patient-reported experience measures (PREMs), it will enable healthcare professionals to identify ways of improving their practices and structures, the quality of care provision, and thence patient outcomes.

To our knowledge, even today, Cheng et al.'s original study published in 2010 is the only one to have proposed quality indicators with the same objective as ours [14]. However, we chose not to transpose their indicators directly to our study. Management practices, and therefore care paths, are based on medical evidence, regardless of the country of interest, but they are also strongly influenced by the organization of the healthcare system and the way care is funded, with particularly striking differences between the United States and Europe [16-18]. Before, although these two studies relied on comparable methodologies, they yielded slightly different results.

Above and beyond differences in the organization and funding of the respective healthcare systems, we believe that there are two main explanations for these divergences, starting with the composition of the groups of experts. Whereas Cheng et al. included patients, representatives of patient organizations, and healthcare administrators alongside the healthcare professionals, we decided only to include healthcare professionals. In addition to the development of the quality indicators, we developed dedicated questionnaires to collect the views of patients and their caregivers on their care-path experience [24]. These questionnaires included items similar to indicators selected by the group of experts in Cheng et al.'s study for the general health domains. Second, our expert panel did not include any family physicians, as our research targeted the practices of professionals who are particularly closely involved in the care path of patients with MS in France, namely neurologists and PRM specialists. This is the main reason why our study did not yield the indicators identified in Cheng et al.'s study, which targeted prevention practices applicable to the general population (in particular cancer screening) that mainly depend on family physicians in our healthcare system. Sexual disorders were not identified as a priority domain in our study. There are cultural reasons behind this choice, for both patients and professionals, as this dimension is often absent from MS-specific quality-of-life questionnaires validated in French, but there is also a dearth of data on the subject in patients' medical charts.

By contrast, our expert panel identified several indicators that were absent from Cheng et al.'s study. These concerned access to an ophthalmologist's expertise and care, and brain MRI follow-up to complement patients' clinical follow-up or monitor treatment with immunosuppressants. These two domains cover situations that are both clinically challenging and therapeutically important, and concern large numbers of patients. They also reflect the

importance of cooperation between neurologists and radiologists or ophthalmologists to ensure effective patient care.

Nevertheless, many of the indicators selected by the experts were common to both studies. For example, the indicators addressing the conformity of diagnostic criteria (e.g., time to disease diagnosis) with international recommendations were deemed major priorities in our study, as they were in Cheng et al. [14]. This can be explained by the availability of complementary examinations on which to base the diagnosis (notably MRI) and new scientific findings encouraging the ever earlier administration of disease-modifying drugs. The quality of disease-modifying treatment (particularly immunosuppressants) management constituted another priority both for our panel of experts and for Cheng et al. [14]. By contrast, autoantibody-concentration determination for interferon-treated patients was not retained by either group of experts, probably because of the lack of sufficient supporting scientific evidence.

Selecting only calculable indicators available in medical or administrative databases gives only a restrictive overview of management quality and ignores important subjects [9,21,25,26]. Although the experts discussed this criterion, they decided to make appropriate evidence-based medicine a higher priority. Similarly, in Cheng et al.'s study, the experts decided not to restrict their selection to indicators that were accessible via databases. Nevertheless, it is vital to be able to access the data needed to calculate each indicator if the assessments of professionals' practices are to yield usable results. This stage, which involves finding out whether data are indeed available for a representative sample of the target population, has been conducted and will be published shortly.

The present study had limitations. Its objective meant we had to take account of all the latest advances in scientific knowledge, as these determined the relevance of the indicators and their impact on professional practices, structures, and patients' care paths. Updating the indicators developed in the present study will be the subject of a nationwide discussion, notably with learned societies in the field (French-speaking MS societies). The generalization of this set of indicators will also have to be discussed in the context of targeted care paths for patients and the funding of that care [14]. Structures can vary greatly from country to country, and even challenge the relevance of a given indicator. However, the recommendations for best practices, and thus for some aspects of the patients' care paths, are, for most part, internationally recognized.

5. Conclusion

Healthcare professionals have long been accustomed to assessing their practices and systems, but it is important that they use recognized tools that meet methodological standards. To date, the AAN is alone in having validated a set of indicators designed to assess the quality of the care path for patients with MS, but these were specifically tailored to the United States healthcare system. Our study yielded indicators suited to other healthcare systems, particularly in European countries. It also identified new indicators in important domains such as patients' MRI or ophthalmology follow-up. In the next stage, we conducted real-world tests with a cohort of 700 French patients (forthcoming article).

6. Funding

This research was funded by the French Health Ministry's National Program of Hospital Quality Research (2010).

7. References

- [1] Groeneweg M, Forrester SH, Arnold B, Palazzo L, Zhu W, Yoon P, Scearce T. One-year outcomes of an integrated multiple sclerosis disease management program. *J Manag Care Spec Pharm* 2018;24(5):458-63. doi: 10.18553/jmcp.2018.24.5.458.
- [2] Berger T, Adamczyk-Sowa M, Csépany T, Fazekas F, Fabjan TH, Horáková D, Illes A, Klimová E, Leutmezer F, Rejda K, Rozsa C, Jazbec SS, Szilasiová J, Turčáni P, Vachová M, Vécsei L, Havrdová E. Management of multiple sclerosis patients in central European countries: current needs and potential solutions. *Ther Adv Neurol Disord* 2018;11:1-12. doi: 10.1177/1756286418759189. eCollection 2018.
- [3] Members of the MS in the 21st Century Steering Group: Rieckmann P, Centonze D, Elovaara I, Giovannoni G, Havrdová E, Kesselring J, Kobelt G, Langdon D, Morrow SA, Oreja-Guevara C, Schippling S, Thalheim C, Thompson H P, Aston K, Bauer B, Demory D, Giambastiani MP, Hlavacova J, Nouvet-Gire J, Pepper G, Pontaga M, Rogan E, Rogalski C, Van Galen P, A Ben-Amor AF. Unmet needs, burden of treatment, and patient engagement in multiple sclerosis: a combined perspective from the MS in the 21st Century Steering Group. *Mult Scler Relat Disord* 2018; 19:153–60. doi: 10.1016/j.msard.2017.11.013. Epub 2017 Nov 21.
- [4] Hirsche RC, Williams B, Jones A, Manns P. Chronic disease self-management for individuals with stroke, multiple sclerosis and spinal cord injury. *Disabil Rehabil* 2011;33(13-14):1136-46. doi: 10.3109/09638288.2010.523103. Epub 2010 Oct 4.
- [5] Derache N, Dufay A, Lebarbey C. Organization of care for multiple sclerosis in France. *Rev Neurol* 2018;174:475-9. doi: 10.1016/j.neurol.2018.01.366.
- [6] Chiu C, Bishop M, Pionke JJ, Strauser D, Santens RL. Barriers to the accessibility and continuity of health-care services in people with multiple sclerosis. *Int J MS Care* 2017;19:313-21. doi: 10.7224/1537-2073.2016-016.
- [7] Loreface L, Mura G, Coni G, Fenu G, Sardu C, Frau J, Coghe G, Melis M, Marrosu MG, Cocco E. What do multiple sclerosis patients and their caregivers perceive as unmet needs? *BMC Neurology* 2013;13:177. doi: 10.1186/1471-2377-13-177.
- [8] Hawkes N. NICE guidelines on multiple sclerosis are being ignored. *BMJ* 2011;343:11. doi: 10.1136/bmj.d6525.
- [9] Lairy G, Zephir H, Ouallet JC, Le Page E, Laplaud D, Bensa C, De Seze J. Targeted clinical audits immediately following the establishment of clinical practice guidelines for multiple sclerosis in 17 neurology departments: a pragmatic and collaborative study. *Rev Neurol* 2015; 171:407-14. doi: 10.1016/j.neurol.2015.03.006. Epub 2015 Apr 23.

- [10] Stelfox HT, Straus SE. Measuring quality of care: considering conceptual approaches to quality indicator development and evaluation. *J Clin Epidemiol* 2013;66:1328-37. doi: 10.1016/j.jclinepi.2013.05.017. Epub 2013 Sep 7.
- [11] Stelfox HT, Straus SH. Measuring quality of care: considering measurement frameworks and needs assessment to guide quality indicator development. *J Clin Epidemiol* 2013;66: 1320-7. doi: 10.1016/j.jclinepi.2013.05.018. Epub 2013 Sep 7.
- [12] Farquhar M. AHRQ Quality Indicators. In: Ronda GH editor. *Patient Safety and Quality: An Evidence-Based Handbook for Nurses*, Rockville : Agency for Healthcare Research and Quality ; 2008, chapter 45.
- [13] Haute Autorité de Santé. Indicateurs de qualité et de sécurité des soins (IQSS). https://www.has-sante.fr/jcms/r_1500957/fr/indicateurs-de-qualite-et-de-securite-des-soins-iqss.
- [14] Cheng EM, Crandall CJ, Bever CT, Giesser B, Haselkorn JK, Hays RD, Shekelle P, Vickrey B. Quality indicators for multiple sclerosis. *Mult Scler* 2010; 16(8): 970-80. doi: 10.1177/1352458510372394. Epub 2010 Jun 18.
- [15] Rae-Grant A, Bennett A, Sanders AE, Phipps M, Cheng E, Bever C. Quality improvement in neurology: multiple sclerosis quality measures: executive summary. *Neurology* 2015; 85: 1904-08. doi: 10.1212/WNL.0000000000001965.
- [16] Delnoij DM, Westert GP. Assessing the validity of quality indicators: keep the context in mind! *Eur J Public Health* 2012;22 (4):452–3. doi: 10.1093/eurpub/cks086.
- [17] Van der Ploeg E, Depla MF, Shekelle P, Rigter H, Mackenbach JP. Developing quality indicators for general practice care for vulnerable elders; transfer from US to The Netherlands. *Qual Saf Health Care* 2008;17(4):291-5. doi: 10.1136/qshc.2007.023226.
- [18] Bell BG, Spencer R, Avery AJ, Campbell SM. Tools for measuring patient safety in primary care settings using the RAND/UCLA appropriateness method. *BMC Family Practice* 2014;15:110. doi: 10.1186/1471-2296-15-110.
- [19] Feys P, Giovannoni G, Dijsselbloem N, Centonze D, Eelen P, Andersen SL. The importance of a multi-disciplinary perspective and patient activation programmes in MS management. *Mult Scler* 2016;22(2S):34-46. doi: 10.1177/1352458516650741.
- [20] Cheng EM, Siderowf A, Swartztrauber K, Eisa M, Lee M, Vickrey BG. Development of quality of care indicators for Parkinson's disease. *Mov Disord* 2004;19(2):136-50. doi: 10.1002/mds.10664.
- [21] Kötter T, Blozik E, Scherer M. Methods for the guideline-based development of quality indicators—a systematic review. *Implement Sci* 2012;7: 21. doi: 10.1186/1748-5908-7-21.
- [22] Campbell SM, Braspenning J, Hutchinson A, Marshall MN. Research methods used in developing and applying quality indicators in primary care. *BMJ* 2003;326:816-9. doi: 10.1136/bmj.326.7393.816.
- [23] Fitch K, Bernstein SJ, Aguilar MD, Burnand B, LaCalle JR, Lizaro P. *The RAND/UCLA appropriateness method user's manual*. Santa Monica, Calif: RAND Corporation; 2001.

[24] Veillard D, Baumstarck K, Edan G, Debouverie M, Wiertlewski S, De Sèze J, Clavelou P, Pelletier J, Verny C, Chauvin K, Cosson ME, Loundou A, Auquier P. Assessing the experience of the quality of care of patients living with multiple sclerosis and their caregivers: The MusiCare questionnaire. *Eur J Neurol.* 2021 Mar;28(3):910-920

[25] Shoemaker SJ, Pozniak A, Hadden L. Assessing four quality indicators for multiple sclerosis management through patient-reported data. *Int J MS Care* 2016;18:202-9. doi: 10.7224/1537-2073.2014-097.

[26] Pena A, Virk SS, Shewchuk RM, Allison JJ, Williams OD, Kiefe CI. Validity versus feasibility for quality of care indicators: expert panel results from the eMI-Plus study. *Int J Qual Health Care* 2010;22(3):201–9. doi: 10.1093/intqhc/mzq018. Epub 2010 Apr 9.

Table 1. Twelve MS-care domains and 54 quality indicators proposed by the Steering Committee for round-1 rating by the experts*

MS-care domains	Quality indicators	IPRAS / IPR	Median
Neurological follow-up	Annual relapse rate	8.35/0	9
	Patient distribution according to the disability level at the end of follow-up	7.6/1	8
	Complete initial etiological work-up rate	7.6/1	9
	Interval between the 1 st MS-suggestive symptom and the 1 st neurological consultation	4.6/3	8
	Percentage of patients having at least one annual consultation with a neurologist throughout follow-up period	7/1.8	8
	Percentage of patients who had access to an expert neurologist during follow-up	6.1/1	8
Ophthalmological follow-up	Percentage of ophthalmological examinations for visual disorders	4.75/2.8	7
	Time to an ophthalmological consultation for a 1 st detected visual disorder (including retrobulbar optic neuritis)	4.75/2.8	7
	Percentage of patients whose visual dysfunction was identified (by the neurologist or physical and rehabilitation (PRM) specialist) and had a consultation with an ophthalmologist	7.6/1	8

Screening and management of psychological and cognitive disorders	Percentage of patients who underwent screening for cognitive and/or psychological disorders during follow-up	6.1/1	8
Multidisciplinary follow-up	Percentage of patients who had, during the entire follow-up period, at least one multidisciplinary opinion or consultation (at least two different medical specialties: neurologist, physical and rehabilitation medicine (PRM) specialist, ophthalmologist...) on the same day and within the framework of a dedicated structure or not	4.45/2.8	7
Professional integration considered	Percentage of patients for whom professional integration difficulties were taken into account during an "MS and work" consultation, an interview with a social worker...	5.5/1.8	7
Access to therapeutic innovations	Percentage of patients included in an industrial or academic therapeutic trial of disease-modifying drugs or symptomatic treatments	4.6/3	6
	Percentage of patients proposed participation in a therapeutic trial by a hospital neurologist	4.6/3	6
	Percentage of patients proposed participation in a therapeutic trial by a private neurologist	3.85/2	6
Magnetic resonance imaging (MRI) management	Percentage of patients who underwent diagnostic brain MRI for a clinically isolated syndrome during the 3 months following symptom onset	8.35/0	9
	Time between the 1 st neurology consultation and the diagnostic brain MRI	7/1.8	9
	Percentage of patients whose diagnostic brain MRI respected the sequences (T1, FLAIR, T2 double-echo, T1 5 minutes after single-dose gadolinium injection)	7.6/1	9
	Percentage of patients who underwent brain MRI <3 months before starting immunosuppressive drugs	8.35/0	9
	Mean interval between brain MRI and initiation of immunosuppressive drugs	7.6/1	9
Management of relapses	Interval between the appearance of symptoms suggestive of relapse and consultation with a neurologist	6. /1	7

	Neurologist-confirmed relapse rate for which intravenous (IV) methylprednisolone was administered (1 g/day for 3–5 days)	6.8 /2	8
	Interval between neurologist-confirmed relapse and IV methylprednisolone infusion (1 g/day for 3–5 days)	6.7/1.8	7
Management of patients prescribed an immunomodulator	Percentage of patients with relapsing-remitting MS prescribed immunomodulator(s), respecting the prescription indications and contraindications of these agents	7.75/0.8	9
	Interval between MS diagnosis and start of the 1 st immunomodulator	5.2/1.8	7
	Percentage of immunomodulator-treated patients evaluated for a patient-education program at treatment onset	6.85/2	8
	Percentages of immunomodulator-treated patients who had been taught self-injection in the framework of a therapeutic educational program	7/1.8	9
	Percentage of immunomodulator-treated patients evaluated for a patient-education program and whose acquired competences had been assessed when being taught self-injection	5.35/2	7
	Percentage of patients with regular laboratory blood tests (before, monthly for the 1 st 3 months, then every 3 months) while on an immunomodulator	6.25/2.8	8
	Percentage of patients taking interferon for at least 12 months and having been tested for interferon-neutralizing antibodies (after 12 months of use)	3.7/3.8	5
	Treatment duration for patients prescribed an immunomodulator during follow-up	5.2/1.8	7
Management of patients given natalizumab	Percentage of patients for whom the indications and contraindications of natalizumab use were respected at treatment onset	8.35/0	9
	Percentage of patients who had the necessary blood tests (blood cell counts, weighted immunoglobulin-class dosages, CD4 and CD8 T-cell and B-cell counts, HIV serology) before starting natalizumab	8.35/0	9

	Percentage of patients who underwent MRI at least once a year since starting natalizumab and for the entire duration of treatment	7.6/1	9
	Percentage of natalizumab-treated patients warranting the search for anti-natalizumab antibodies	5.65/3.6	8
	Percentage of patients for whom a document informing them of potential natalizumab benefits and risks was found in the medical file	7.6/1	9
Management of patients receiving mitoxantrone	Percentage of patients for whom the indications and contraindications of mitoxantrone use were respected at treatment onset	8.35/0	9
	Percentage of patients for whom the signed consent form for mitoxantrone use was found in the medical file	6.4/2.6	8
	Percentage of patients for whom the pre-administration work-up (blood cell counts and echocardiography) had been done before starting mitoxantrone	8.35/0	9
	Percentage of mitoxantrone-treated patients for whom the maximal cumulative dose administered during 6 months was respected	8.35/0	9
	Percentage of mitoxantrone-treated patients for whom the blood-count-monitoring recommendations had been followed	7.6/1	9
	Percentage of mitoxantrone-treated patients for whom cardiac-monitoring recommendations had been followed	7.75/0.8	9
PRM management	Percentage of patients with an Expanded Disability Status <i>Scale</i> (EDSS) score ≥ 3 , confirmed by two determinations, and had a consultation with a PRM specialist	6.1/1	8
	Interval between MS onset and the 1 st PRM specialist consultation, according to EDSS score	6.1/2.2	8
	Percentage of PRM-specialist consultations during which a pain evaluation was done	5.05/1.6	7
	Percentage of patients with focal spasticity who were prescribed botulin toxin (except for contradictions)	5.65/1.6	7

Percentage of relapses after which the EDSS score was ≥ 2 and followed by physical therapy sessions	4.3/2.6	5
Percentage of relapses after which the EDSS score was ≥ 4 and subsequently managed in a rehabilitation center for this relapse	4.9/2.6	7
Percentage of patients with progressive (and secondarily progressive) MS with EDSS scores ≥ 3 having access to physical therapy	6.1/1	7.5
Percentage of patients with progressive (and secondarily progressive) MS with EDSS scores ≥ 3 for the 1 st time and were then managed in a PRM department and/or structure	4.6/1	7
Percentage of patients with micturition disorders (urgency urination, pollakiuria, dysuria, incomplete bladder emptying, urinary incontinence, ...) who underwent renal–bladder ultrasonography	7.6/1	8
Interval between the discovery of the 1 st bladder sphincter dysfunctions and the renal–bladder ultrasonography	4.6/2.2	7
Percentage of patients who underwent urodynamic evaluation after renal–bladder ultrasonography determination of >100 mL of residual post-micturition urine retention	7.3/0.6	8
Percentage of patients with documented urinary dysfunctions (i.e., confirmed by renal–bladder ultrasonography and >100 mL post-micturition urine retention) who had an annual renal–bladder ultrasonography	7.6/1	8

* If median between 7 and 9, and IPRAS $<$ IPR or an IPRAS score higher than IPR but with half the ratings outside the 7–9 range, indicator was classified as to be discussed; if median between 4 and 6, regardless of the IPRAS score, indicator was classified as to be discussed; median between 1 and 3, regardless of its IPRAS score, indicator was considered as not appropriate

Table 2 : The retained final set of 48 quality indicators in seven domains

MS-care domains	Quality indicators	IPRAS / IPR	Median
Disease evolution	A1 - Annual relapse rate	8.35/0	9
	A2 - Distribution of patients according to their disability level after follow-up	7.6/1	8
	A3 - Rate of complete initial etiological work-ups	7.6/1	9
	A4 - Percentage of ophthalmological examinations to diagnose retrobulbar optic neuritis	8.35/0	9
	A5 - Percentage of patients screened for cognitive and/or psychological disorders during follow-up	6.1/1	8
Access to care	B6 - Interval between the appearance of the 1 st MS-suggestive symptoms and the 1 st neurology consultation	4.6/3	8
	B7 - Percentage of patients with at least one annual consultation with a neurologist throughout follow-up	7/1.8	8
	B8 - Percentage of patients having access to an MS-specialized center	6.1/1	8
	B9 - Percentage of patients whose visual dysfunction was identified (by the neurologist or physical and rehabilitation (PRM) specialist) and had a consultation with an ophthalmologist	6.85/1.6	8
	B10 - Time to an ophthalmology consultation after a detected 1 st visual disorder (including retrobulbar optic neuritis)	6.1/1	7
	B11 - Percentage of patients who had an MS-and-work consultation	6.1/1	8
	B12 - Percentage of patients included in at least one therapeutic trial	6.1/1	8
Magnetic resonance imaging (MRI)	C13 - Percentage of patients who had a diagnostic brain MRI for an isolated clinical syndrome, during the 3 months following the appearance of symptoms	8.35/0	9
Management	C14 - Mean interval between the 1 st neurology consultation and diagnostic brain MRI	7/1.8	9

	C15 - Percentage of patients whose diagnostic brain MRI respected the sequences (T1, FLAIR, T2 double-echo, T1 5 minutes after single-dose gadolinium injection)	7.6/1	9
	C16 - Percentage of patients whose brain MRIs were obtained within the 3 months preceding the start of immunosuppressive drugs	8.35/0	9
	C17 - Interval between the brain MRI and the onset of immunosuppressive drugs	7.6/1	9
Management of relapses	D18 - Interval between the appearance of relapse-suggestive symptoms and a consultation with a neurologist	6.1/1	7
	D19 - Neurologist-confirmed relapse rate treated with intravenous (IV) methylprednisolone (1 g/day for 3–5 days)	6.85/2	8
	D20 - Interval between a neurologist-confirmed relapse and the initiation of IV methylprednisolone (1 g/day for 3-5 days)	6.7/1.8	7
Management of patients prescribed an immunomodulatory	E21 - Percentage of patients with relapsing-remitting MS prescribed an immunomodulators, respecting the prescription indications and contraindications of these agents	7.75/0.8	9
	E22 - Time between relapsing-remitting MS diagnosis and start of the 1 st immunomodulator	7.6/1	9
	E23 - Percentage of immunomodulator-treated patients evaluated for a patient-education program at treatment onset	7/1.8	8
	E24 - Percentages of immunomodulator-treated patients who had been taught self-injection in the framework of a therapeutic educational program	7/1.8	8
	E25 - Percentage of patients with regular laboratory testing at the onset of immunomodulator use	7.6/1	9
Management of patients prescribed an immunosuppressive drug	F26 - Percentage of patients for whom the indications and contraindications of natalizumab use were respected at treatment onset	8.35/0	9
	F27 - Percentage of patients who had the necessary blood tests (blood cell counts, weighted immunoglobulin-class dosages, CD4 and CD8 T-cell	8.35/0	9

	and B-cell counts, HIV serology) before starting natalizumab		
	F28 - Percentage of patients who underwent MRI at least once a year since starting natalizumab and for the entire duration of treatment	7.6/1	9
	F29 - Percentage of patients for whom a document informing them of potential natalizumab benefits and risks was found in the medical file	7.6/1	9
	G30 - Percentage of patients for whom the indications and contraindications of mitoxantrone use were respected at treatment onset	8.35/0	9
	G31 - Percentage of patients for whom a document informing them of potential mitoxantrone benefits and risks was found in the medical file	7.6/1	9
	G32 - Percentage of patients for whom the pre-administration work-up (blood cell counts and echocardiography) had been done before starting mitoxantrone	8.35/0	9
	G33 - Percentage of mitoxantrone-treated patients for whom the maximal cumulative dose administered during 6 months was respected	8.35/0	9
	G34 - Percentage of mitoxantrone-treated patients for whom the blood-count-monitoring recommendations had been followed	7.6/1	9
	G35 - Percentage of mitoxantrone-treated patients for whom cardiac-monitoring recommendations had been followed	7.75/0.8	9
PRM management	H36 - Percentage of patients with an Expanded Disability Status <i>Scale</i> (EDSS) score ≥ 3 , confirmed by two determinations, who had a consultation with a PRM specialist	6.1/1	8
	H37 - Interval between MS onset and the 1 st PRM specialist consultation, according to the EDSS score	7/0.2	8
	H38 - Percentage of PRM consultations during which a pain evaluation was done	7/0.2	8
	H39 - Percentage of patients with focal spasticity who were prescribed botulin toxin (except for contradictions)	7/0.2	8

H40 - Percentage of relapses after which the EDSS score was ≥ 2 and followed by physical therapy sessions	5.5/0.2	7
H41 - Interval between the 1 st rehabilitation management for patients with an EDSS score ≥ 3 after a relapse	6.85/0	8
H42 - Percentage of patients with progressive (and secondarily progressive) MS with EDSS scores ≥ 3 having access to physical therapy within the 6 months post-relapse	6.1/1	7.5
H43 - Percentage of patients with progressive (and secondarily progressive) MS with EDSS scores ≥ 3 for the 1 st time and were then managed in a PRM department and/or structure during the 6 months following the event	6.85/0	8
H44 - Percentage of patients with micturition disorders (urgency urination, pollakiuria, dysuria, incomplete bladder emptying, urinary incontinence, ...) who underwent renal–bladder ultrasonography	7.6/1	8
H45 - Interval between the discovery of the 1 st bladder sphincter dysfunctions and the renal–bladder ultrasonography	7.6/1	9
H46 - Percentage of patients who underwent urodynamic evaluation after having a renal–bladder ultrasonography determination of >100 mL of residual post-micturition urine retention	7.3/0.6	8
H47 - Percentage of patients with documented urinary dysfunctions (i.e., confirmed by renal–bladder ultrasonography and >100 mL post-micturition urine retention) who had an annual renal–bladder ultrasonography	7.6 1	8
H48 - Percentage of PRM consultations during which fatigue status was evaluation	6.85/0	8

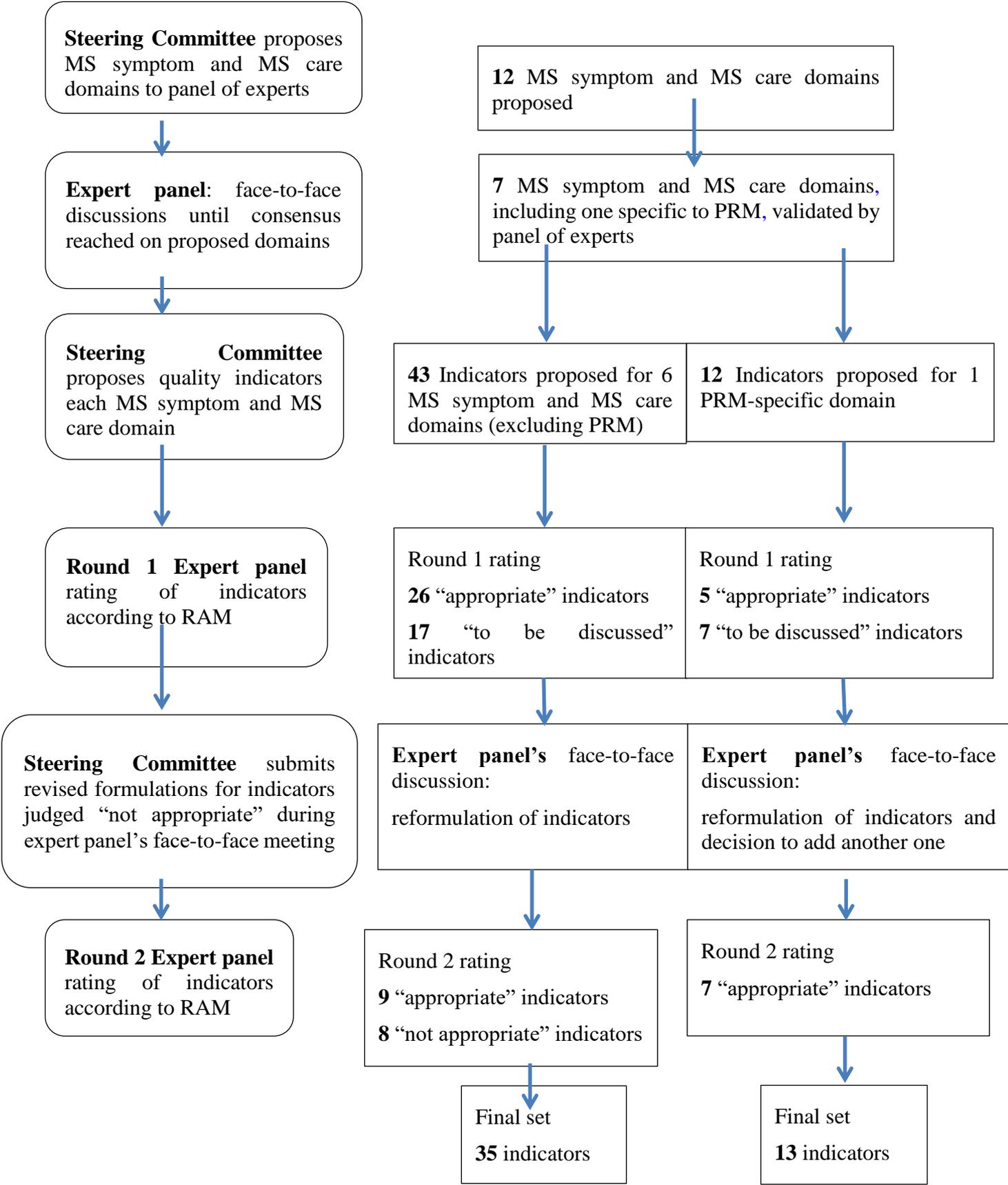
*all indicators with a median between 7 and 9, and an IPRAS score higher than its IPR

Fig 1. Flowchart of the procedures for selecting and rating MS care and MS symptom domains and quality indicators, according to the Rand/UCLA Appropriateness Method.

Domains and indicators

Research steps

selected by panelists



9.5 Article test des indicateurs qualité sur une cohorte de 699 patients :

Title: Evaluation of the quality of the care pathway for patients with multiple sclerosis in France: results of an original study of a cohort of 700 patients

Authors: David Veillard^a, Emmanuelle Le Page^b, Jonathan Epstein^c, Sandrine Wiertlewski^d, Philippe Gallien^e, Stéphanie Hamonic^f, Marc Debouverie^g, Gilles Edan^h

Affiliations

^aDavid Veillard, MD, Service d'Epidémiologie et de Santé Publique du Centre Hospitalier Universitaire, Rennes, F-35000 France and Equipe d'Accueil 3279 Centre d'Etudes et de Recherche sur les Services de Santé et la Qualité de Vie, Aix Marseille Université, Marseille, F-13000 France. david.veillard@chu-rennes.fr

^bEmmanuelle Le Page, MD, Service de neurologie du Centre Hospitalier Universitaire and Clinical Neuroscience Center CIC-P 1414 INSERM, Rennes, F-35000 France. emmanuelle.Le.Page@chu-rennes.fr

^cJonathan Epstein, MD, Service d'Epidémiologie Clinique du Centre Hospitalier Universitaire and Clinical Investigation Center CIC 1433, Nancy, F-54000 France. j.epstein@chru-nancy.fr

^dSandrine Wiertlewski MD, Clinique Neurologique du Centre Hospitalier Universitaire de Nantes, Nantes F-44000, France. sandrine.wiertlewski@chu-nantes.fr

^ePhilippe Gallien MD, Pôle de médecine physique et de réhabilitation Saint Hélier, Rennes F-35000, France. philippe.gallien@pole-sthelier.com

^fHamonic Stéphanie, Service d'Epidémiologie et de Santé Publique du Centre Hospitalier Universitaire, Rennes, F-35000 France. stephanie.hamonic@chu-rennes.fr

^gMarc Debouverie MD, PhD, Equipe d'Accueil 4360 Adaptation, mesure et évaluation en santé. Approches interdisciplinaires, Université de Lorraine and Service de Neurologie du Centre Hospitalier Universitaire de Nancy, Nancy, F-54000 France. m.debouverie@chru-nancy.fr

^hGilles Edan, MD, PhD, Clinical Neuroscience Centre, CIC-P 1414 INSERM Université de Rennes 1, Rennes F-35000, France. gilles.edan@chu-rennes.fr

Corresponding author: David Veillard, Tel.: +33 (0)2 99 28 97 76, Fax: +33(0)2 99 28 97 66 david.veillard@chu-rennes.fr

Abstract

Introduction: Evaluating the quality of the care pathway for patients with chronic diseases, such as multiple sclerosis (MS) is an important issue. Process indicators are a recognized method for evaluating professional practices. However, these tools have been little developed in the field of MS, and few data are available. The aim of this study was to describe, retrospectively, with validated indicators, the quality of the care pathway in a population-based cohort of 700 patients with the first manifestations of the disease occurring between January 1, 2000 and December 31, 2001 and during the first 10 years of disease.

Method: This assessment was based on 48 indicators specific to MS. The information required for the calculation of each indicator was collected from the source files of the 700 patients of the cohort.

Results: Data for the 10 years of follow-up were collected for 80% of the patients. In total, 36 indicators were calculated. These results reveal that there is room for improvement, particularly in terms of the initial assessment, access to ophthalmological evaluation, employment, obtaining an evaluation of the need for rehabilitation, and access to such care.

Conclusion: The results of this survey provide access to unprecedented new data in France, that professionals and patients can appropriate to improve the targeting of actions, to improve the quality of care further for patients with MS in France. We propose to continue this process by submitting, for discussion, a targeted list of updated indicators relating to changes in guidelines, and in issues concerning the quality of patient management.

Keywords: multiple sclerosis; quality of health care; health services; clinical pathways

1. Introduction

Health professionals and patients are continually trying to improve the quality of care pathways, particularly for chronic diseases. This is a complex process, involving multiple determinants linked to the patients themselves, current knowledge, professional practices, the interaction between patients and professionals and the organization and funding of healthcare systems.

In France, the follow-up of patients with MS involves multiple medical specialties (neurology, ophthalmology, physical and rehabilitation medicine, radiology, general practice etc.) and many other healthcare professionals (state-registered nurses, psychologists, physiotherapists, occupational therapists, social workers, etc.) working at hospitals and in private practice. The coordination of all these actors is an important issue for improving the quality of patient management [1,2]. Over the last few years, initiatives, such as the regional MS care networks in France, have been established for this purpose. Generally, when assessing the quality of their practices and the organization of care, professionals should use tools that have been validated scientifically and methodologically. However, there have been few initiatives aiming to develop such tools, which remain rare or not very specific to MS.

The available recognized tools include quality indicators, which have been used for health assessment purposes for nearly 30 years in France [3]. According to the US National Library of Medicine, quality indicators are “norms, criteria, standards, and other direct qualitative and

quantitative measures used in determining the quality of health care [4]. According to the Donabedian reference model, process indicators are the most widely used, particularly for the evaluation of practices in the domain of health [5]. They measure the quality of implementation for care activities relative to professional guidelines. Outcome indicators are widely used in the context of clinical research. The links between process indicators and outcome indicators are now recognized and these two approaches are complementary for assessments of the quality of care [6].

In the field of MS, the American Academy of Neurology (AAN) published a list of indicators in 2015 [7]. These 11 indicators were chosen from a list of 76 indicators initially proposed by Cheng et al. in a study performed in 2010 [8]. The AAN stressed that these new tools should be adopted not only by healthcare professionals, but by the entire healthcare system, to improve organization and practices. To date, only one study, published in 2016, provides "real life" results for four of these indicators, essentially on the basis of information reported by the patients themselves [9] (Table A). In England and Wales, the National Institute for Health and Care Excellence (NICE) published six key guidelines in 2003 for identifying indicators for improving the quality of care for patients with MS, in particular access to rehabilitation care and social services [10]. The adoption of these guidelines was assessed during three national audits carried out in 2006, 2008, and 2011, again based on data declared by the care structures (hospitals, primary care centers), the patients themselves, and the overseeing authorities [11]. There is currently no standardized national approach of this type in France, although the data collected for the Observatoire Français de la Sclérose En Plaques (OFSEP) cohort and some of the studies arising from it represent a step in this direction [12]. The transposition of indicators from other healthcare systems raises questions about their pertinence. Indeed, the organization of care pathways for chronic diseases, such as MS, depends on both hospitals and private practitioners, and on the conditions governing the funding of care. It therefore remains quite country-specific.

Since 2011, in partnership with healthcare professionals, patients, and their natural caregivers, our group has been involved in a research program aiming to develop tools for the evaluation of practices and organization, to improve the quality of care for these patients in France. The tools concerned include a set of 48 dedicated quality indicators for the care pathways of patients with MS in France, which has been validated by a group of professionals representing teams with recognized expertise in the management of these patients [13]. Through the mobilization of more than 1,000 patients and caregivers, we have also developed the first two questionnaires for assessing the experiences of these patients and their caregivers in terms of their management throughout the care pathway [14].

The testing of quality indicators with real-life data is an important step for confirming their relevance in terms of the organization and practices of professionals, but also that of the available information systems. This approach also makes it possible to discuss the conditions for collecting the necessary data and adjust certain choices if necessary, before the generalization of their use.

The aim of the present study was to test the relevance of quality indicators in MS care on a population-based cohort of almost 700 patients from three French regions. Secondary

objectives were to assess the availability of necessary data for said indicators, and to identify areas for improvement in the quality of the care pathways for MS patients in France

2. Methods

2.1 Study population

Our sample of patients was assembled from three population-based cohorts from three French regions (Brittany, Pays de la Loire, and Lorraine) with a total population of over seven million inhabitants.

For inclusion, patients had to meet the following criteria: patient residing in one of these three regions at the onset of the first symptoms, with the first manifestations of the disease occurring between January 1, 2000 and December 31, 2001, patient at least 18 years old at symptom onset and not refusing access to their personal data. The putative incident cases had to meet McDonald's criteria 2010 to be considered true incident cases of MS [15].

Patients from the Brittany and Pays de la Loire cohorts (regions with over 5 million inhabitants) were identified by the incidence survey carried out between 2000 and 2001 in these two regions [15]. This survey included 275 patients from the Brittany region (4 *départements*, a French administrative area equivalent to a county) and 120 from the two counties concerned for the Pays de la Loire region.

For the Lorraine cohort (more than 2 million inhabitants in 4 counties), patients were identified from the population based Lorraine MS registry (ReLSEP). This registry holds accreditation from the national registries committee and its data are held at the Clinical Epidemiology Center of Nancy University Hospital [16]. In total, 332 patients met the inclusion criteria for our study. The incidence of MS in this region is known to be higher than that in the regions of western France [17].

2.2 Development of the indicators

The indicator development method has been described elsewhere [13]. In brief, the 48 indicators were selected by a group of experts made up of professionals representing several hospital and private neurology and rehabilitation-reeducation teams from the three regions. Each of the indicators was defined on the basis of existing guidelines in the field. The selection method was based on the search for a consensus according to an approach developed by the Research and Development Corporation (Rand / UCLA Appropriateness Method), checking the agreement of each expert with the guidelines and the agreement between experts [18]. This approach includes an individual and anonymized rating phase, followed by face-to-face discussions. The indicators cover the following areas: access to care during follow-up and according to disease progression, management by imaging (MRI), overall management/management of relapses, management of maintenance treatment (immunomodulators and immunosuppressants), and the management of rehabilitation and reeducation.

2.3 Data collection

Data for the 48 indicators were collected retrospectively for a period of 10 years of disease from the onset of the first symptoms. The data were collected between 2012 and 2013. In addition to the data required for calculation of all the indicators, the sociodemographic characteristics of the patients and other items of health information were included, such as the occurrence of pregnancy or a concomitant pathological condition. All data were collected from the medical records of the patients stored in both hospitals and private practice offices, on paper or in electronic form. We also used data from the EDMUS database and the Lorraine MS registry [19]. Data collection was partially automated (for data from the EDMUS database and the Lorraine MS registry), but mostly performed by clinical research assistants and the principal investigator of the study extracting information directly from each patient file.

2.4 Data analysis

All the available data were described with the usual descriptive statistics: frequencies and percentages for qualitative variables and means, standard deviations, medians, and interquartile range for quantitative variables. Missing data were not replaced, being, by their nature, an indicator of the non-traceability of information. Calculations of the time taken to reach an Expanded Disability Status Scale (EDSS) score ≥ 3 and for a secondarily progressive form to appear were calculated according to the nonparametric Kaplan-Meier method. The results are expressed as the median time to the occurrence of these events since the start of follow-up for the included patients.

Each indicator was then calculated according to the definition validated by the experts¹³. The form of MS was determined if necessary.

Analyses were performed with SAS® software version 9.4.

This study was approved by the Ethics Committee Ouest V in November 2010 (reference 10/36-778), and by the French national data protection authority (CNIL, authorization no. 911029).

3. Results

In total, 699 of the 727 patients identified were included in our study, and 28 (3.8%) were excluded because they were under the age of 18 years when symptoms first occurred or because they refused to allow access to their health data.

3.1 Principal characteristics of the patients and their disease

These characteristics are described in Table B. In general, they were similar to those described for the OFSEP cohort [20].

In addition, socioprofessional category at disease onset was identified for 457 (65.4%) patients, 268 (58.6%) of whom were employees and middle managers, 40 (8.8%) of whom were manual laborers, and 32 (7%) of whom were senior managers. Another fraction of the study population (95 patient, or 20.8%) had no professional activity at the time (students, retired, unemployed, or on disability benefits). During the 10 years of follow-up, 174 patients (almost 4 in 10 of the patients with professional activities at disease onset) had to change their professional activity due to the disease.

The main concomitant pathological conditions identified during the 10 years of follow-up were psychiatric disorders (especially depression) for 29 patients, cardiovascular conditions (stroke, coronary artery disease, arrhythmias, etc.) for 33, cancers (e.g. lung, digestive tract and gynecological cancers, digestive, gynecological) for 30, and other chronic diseases (diabetes, thyroid conditions, etc.) for 18.

The traceability of information concerning height and weight was low, at 5.2% (36/699) for weight and 7.6% (53/699) for height, over the entire duration of the study.

In terms of disability levels, EDSS score was indicated at least once in the source files for 87.5% of the patients included without a clinically isolated syndrome (CIS) and with at least 10 years of follow-up (436/498). EDSS score was indicated once during the first five years of follow-up and once again during the second five years for 68.8% (300/436) of these patients. EDSS score was ≥ 3 from the start of follow-up in 64 of these 300 patients (see Table C). The Kaplan-Meier median time taken to reach an EDSS score of 3 was 8.78 years (95% CI: 8.15 - 10.94 years) for the other 236 patients, and 3.82 years (95% CI: 0.20 - 6.33 years) for the 10 patients presenting a progressive form from onset.

3.2 Available and interpretable data for calculating a large majority of the quality indicators (see Tables C and D)

The indicators were calculated for the entire study population, regardless of the form of the disease, provided they were considered relevant for patient management. We were able to collect the necessary data for calculation of the indicators during the first 10 years of disease for more than 80% of the patients in the cohort (587/699). The other 112 patients were followed up less completely, and for a mean duration of 5.4 years (standard deviation 3.1). The reasons for this partial follow-up were the patient moving to another region without indicating his or her new medical team for 28 patients, death for 13 patients, and loss-to-follow-up for the other 71 patients (10.2%).

With the available data, we were able to calculate 36 of the 48 indicators.

Data were missing for the other 12 indicators, due, in particular, to a lack of traceability in the source files. This lack of traceability concerned both dates (for the indicators “distribution of patients according to their level of disability after follow-up”, “Time to ophthalmology consultation after the first detection of a visual disorder (including retrobulbar optic neuritis)”, “percentage of physical and rehabilitation medicine consultations during which a pain evaluation was performed”, “percentage of patients for whom the indications and contraindications for mitoxantrone use were respected at treatment onset”) and clinical data, including, in particular, the EDSS score after a relapse, which was missing for more than 90% of cases (for the indicators “percentage of relapses after which the EDSS score was ≥ 2 and followed by physiotherapy sessions”, “time to first rehabilitation management for patients with an EDSS score ≥ 3 after a relapse”).

We were also confronted with the problem of data that were too imprecise and too heterogeneous to define the criteria for referral to a specialist center for the indicator “percentage of patients having access to a specialist MS center”, or the disorders to be identified for the indicator “percentage of patients screened for cognitive and/or psychological disorders

during follow-up”. Finally, there were almost no data in the source files for the indicator “Percentage of mitoxantrone-treated patients for whom the blood cell count-monitoring guidelines had been followed”.

3.2.1 Access to care during follow-up and according to disease progression

The results for the indicators calculated in this domain are presented in Table D.

The etiological assessment (inflammatory test, brain MRI, cerebro-spinal fluid) based on the initial symptoms was performed during the 12th month after the first neurological consultation for a minority of patients (82/699 or 11.7%). Data about inflammatory test were available only for 200 patients due to lack of traceability in the source files. This assessment complied with guidelines for three quarters of the patients concerned, versus less than one quarter for the other patients.

One third of the patients presenting an initial form of the remitting type ($N = 489$) were able to consult a neurologist within 30 days of the appearance of the first symptoms, but one third did not see a neurologist until more than one year later (Figure A). During follow-up, the patients had a mean of 14.8 (SD = 12.2) consultations with a neurologist, with 1.52 consultations per year (95% CI: 1.49-1.55), for all forms combined.

We found that 227 of 409 patients (55.5%) were able to see an ophthalmologist after the identification of a visual disorder by a neurologist or physiotherapist or rehabilitation specialist. The median time between the first detection of visual disturbances and consultation with an ophthalmologist was 1.1 months (0.1-15), regardless of the type of disorder.

3.2.2 Management by imaging (MRI)

The four indicators of this domain could be calculated, and the results are presented in Table D. However, we were unable to analyze the indicator relating to respect for MRI sequences for the patients from Lorraine, due to a lack of data.

Comparing the timing of the first brain MRI scan and the first consultation with a neurologist (see Fig. A), we found that:

- The majority of patients had their first MRI scan before their first consultation (396 or 56.6%). The median time to the examination was similar for patients undergoing MRI before and after the first consultation (taking into account a time limit of 12 months after a first consultation with no other consultation in the intervening period): 24 days (0 – 64 days) and 28 days (8 - 79.5), respectively.
- The sequences for this diagnostic brain MRI scan were respected (for the 467 patients for whom data were collected) in 62.1% (117/191) of patients undergoing scans after first consultation with a neurologist, versus 37.1% (87/234) if the scan was performed before this consultation.

Most patients had a first spinal cord MRI scan before the first consultation with a neurologist (180/264 or 68%). The median time to the examination was 15 days (0 - 50.5 days).

The mean number of brain MRI scans over the 10-year period of the study was 0.5 (SD 2.1) patient-years, and the median number of scans was 0.3.

A brain MRI was performed before the initiation of immunosuppressive treatment for 55.3% (120/217) of the patients concerned if a period of six months, rather than three months was taken into account.

3.3.3 Management of relapses

The three indicators of this domain could be calculated for patients from Brittany and Pays de la Loire, for whom the results are presented in Table D. No data were accessible for the patients from Lorraine. Time to initiation of corticosteroid therapy depends on the time to consultation with a neurologist to confirm the relapse. As soon as patients have access to the neurologist this treatment is quickly initiated (median 0 days; IR

3.3.4 Management of immunomodulatory treatment

The five indicators of this domain were calculated, and the results are presented in Table D.

Immunomodulatory maintenance treatment was proposed to 83.4% (408/489) of patients presenting an initial remittent form, and was administered to 378 of these patients (77%). The median time to the first administration of immunomodulatory treatment was 14.4 months (0-124 months) after the first consultation with a neurologist (see Table D), 11.5 months (3.7 - 35.2 months) after MS diagnosis, and 28.5 months (12.9 - 53.7 months) after the onset of the first symptoms. The indications and contraindications for the initiation of this treatment were observed in 70% of cases. The mean duration of treatment was 55.3 months (SD: 37.1 months; median 54.0 months) for all immunomodulators considered together.

In addition, 28 patients with a progressive form at disease onset received immunomodulatory treatment for a mean duration of 36.3 months (25.5 - 64.0 months).

3.3.5 Management of immunosuppression

It was possible to calculate eight of the 10 indicators of this domain, and the results are presented in Table D.

Echocardiography was performed in 65.6% (21/32) of cases and blood cell counts were performed in 46.9% (15/32) of cases, for patients undergoing pretreatment evaluations before the initiation of mitoxantrone treatment.

3.3.6 Management of reeducation and rehabilitation

We were able to calculate nine of the 13 indicators in this domain, and the results are Table D.

Fewer than one in five patients (35/214) with EDSS scores remaining below 3 throughout the follow-up period attended at least one consultation or one session at a rehabilitation center.

For the 121 patients with an initially remittent form, the median time from the estimated date of the first symptoms of the disease to first contact with a rehabilitation center was 5.1 years (2.9 - 7.3 years). This time lag was only 3.4 years (2.2 - 6.3 years) for the 54 patients with an initially progressive form of the disease.

Outside of relapses, less than half (73/168) the patients with progressive forms (either from the outset or secondary) who reached an EDSS score ≥ 3 during the follow-up period received physiotherapy in private practice, in a majority of cases more than six months later. Similarly,

less than half (73/168) received treatment at a rehabilitation structure, with only just under half these patients receiving such treatment within a period of six months.

An urodynamic assessment was performed for 145 (43%) of the 337 patients who reported urinary problems.

4. Discussion

This is the first study to provide such extensive information on the course of the care pathways in a population-based cohort of almost 700 patients followed for 10 years after the appearance of the first symptoms of the disease in France. The collection of data from patient records provided results for 36 of the 48 indicators tested, and it was possible to collect for the 10 years of follow-up for more than 80% of the patients in the cohort.

Access to care and, particularly, to a certain number of medical specialties, has an indirect but real impact on the quality of care and the progression of MS symptoms and disease [21,22].

Our results concerning neurological follow-up are similar to those of other published studies, in France and other countries at the same period of time [23-26]. The frequency of follow-up visits conforms to the guidelines for annual follow-up, but access to the first consultation with a neurologist could be earlier for some patients. Strengthening information and raising the awareness of patients, and, above all, of front-line healthcare professionals, particularly general practitioners, to get this first neurological consultation done therefore remains an important issue, particularly in light of the guidelines for early treatment. The general practitioner is the healthcare professional most frequently consulted by patients with MS [22]. Access to ophthalmic expertise is difficult to obtain for a sizeable proportion of patients. This difficulty has been raised by the patients themselves in other studies [24,26]. In France, this difficulty results primarily from the shortage of ophthalmologists in many areas, particularly those outside the most highly urbanized zones, and from the continual increase in demand for consultations as the general population ages. Given that the first symptoms of MS are often visual and the demographic outlook remains pessimistic for the foreseeable future, maintaining easy access to a neurologist for these patients is of particular importance.

Access to functional rehabilitation is an important issue for patients with MS. Indeed, beyond the motor consequences of disability, this area of care contributes to better overall management for fatigue, pain, and bladder and sexual problems [27]. In our study, less than half of the patients reaching an EDSS score ≥ 3 had access to such care. The results of other studies in this area, based primarily on declarative data, also highlight the underuse of such resources [28-30]. Several studies have suggested that this underuse may result from patient themselves not identifying or poorly identifying their needs in this area [30,31]. Resources are not generally lacking in France, but patient awareness and information concerning the issues and benefits in this area, and the possibilities and conditions of access, need be strengthened.

The low rate of ultrasound examinations performed on patients with urinary disorders problems may be partly due to a certain "trivialization" of symptoms and their consequences by the patients, especially in the initial phase. However, the urinary problems linked to MS and the consequences of delayed treatment are well known and are the subject of specific guidelines from academic societies [31, 32]. Here too, raising awareness and informing professionals, but

above all patients and those caring for them, would provide key opportunities for improvement.

For follow-up by MRI, it should be pointed out that the new criteria of McDonald et al. were published in 2001 and revised in 2005 [33,34]. These guidelines were obviously, primarily transmitted to neurologists. Indeed, in our study, 61.7% of MRI scans performed after the first consultation with a neurologist met the criteria in terms of sequences, whereas this rate was only 27.8% if the examination was performed before the first consultation with a neurologist. However, accessibility to such exam was not so easy and annual follow-up by brain imaging was not yet the rule during the study period considered here.

Concerning the overall management of relapses, the results of the three indicators were largely satisfactory, particularly the access to a neurologist, which was almost systematic (93% of relapses), and the time to the appointment (median of 9 days).

The proportion of patients with an initially remittent form who received at least one maintenance treatment with an immunomodulator during the 10 years of follow-up was similar to that reported in other studies, particularly in France [35]. As also observed by the authors of this study, the time to initiation of such treatments was longer (a mean of 26.5 months after the first consultation with a neurologist) than advised in current guidelines [36].

Concerning the initiation and monitoring of immunosuppressive treatment, few patients were treated with natalizumab at the time of the study. It is not, therefore, possible to draw any firm conclusions from the results.

One limitation of this study was that 20% (9/48) of the indicators could not be calculated. We found that there was a strong lack of traceability for the data required for the calculation of these indicators in patient records, with data either almost entirely absent (e.g. the EDSS scores after relapses, and dates) or too imprecise (e.g. for the characterization of psychological and cognitive disorders, multidisciplinary consultations, or for the systematic assessment of fatigue). These findings are consistent with previous reports, for national evaluation campaigns, such as that of the IQSS in France, for example, which is based on retrospective studies of the data recorded in the files of patients staying in healthcare establishments [37]. Nevertheless, we believe that this source of information remains the reference for the calculation of indicators of this type. It prevents the recall bias associated with declarative patient data, especially for a period of 10 years. Keeping patient files correctly, which includes ensuring the traceability of information, is governed by very precise regulatory obligations for healthcare professionals and establishments, as indicated in the public health code in particular (decree no. 2002-637 of April 29, 2002). Aside from the indicators that we were unable to calculate, this lack of traceability is probably a wider limitation, also concerning some of the indicators for which results are presented, albeit to a lesser extent. Thus, for indicators requiring the results and date of a biological assessment, such as those for the initiation and follow-up of maintenance treatment, assessments are mostly carried out in private practice, with the results transmitted to the patient on paper. Consequently, a trace of these results is not always kept in the medical files of the patient held in hospital departments or at the offices of doctors in private practice. At the time of this study, assessments of fatigue were not based on the routine use of specific assessment scales, with a direct impact on the traceability and accuracy of this type of information. For the

indicators relating to work, such as screening for difficulties integrating into the workplace, the traceability of these activities had not yet been formalized. Thus, among the messages of this study for all professionals involved in the care and management of these patients, the issue of the traceability of essential information to improve feedback to teams concerning their application of the guidelines in practice is undoubtedly the most important. The formalization of shared and standardized databases, such as that of the EDMUS network, could be helpful in this respect. Indeed, we observed that the patients followed within the framework of the MS registry in Lorraine benefited from the traceability of their EDSS score, which was clearly superior to that for other patients.

The other major limitation of this study concerned the interpretation and use of results corresponding to the period from 2000 to 2011 in the context of current practices and organization. For example, the time to initiation of the first immunomodulatory treatment has decreased over time, with practices evolving spontaneously with changes in the guidelines in this area. Similarly, the availability of second-line treatment has changed significantly since the end of the study period (i.e. 2010). Thus, the indications for natalizumab have expanded and the number of patients receiving this treatment has significantly increased. Furthermore, other treatments have also come onto the market. In the field of imaging, changes in knowledge and guidelines have also probably led to changes in practices, in terms of both the frequency and quality of examinations during patient follow-up. It would be useful to collect such data for patients treated after 2010, for example, for the same duration of follow-up, to confirm these observations. These findings also highlight the value of periodically collecting data for the proposed indicators, so as to obtain regular factual data confirming concrete changes in practices and organization in line with professional guidelines. Such continual changes in scientific knowledge and, therefore, guidelines, may also lead to a review of the definition of certain indicators. For example, it could be suggested that, to evaluate the quality of care, the time to the first diagnostic brain MRI should be calculated not from the onset of the first symptoms, which is independent of the practices and organization of professionals, but from the first consultation with a neurologist. Similarly, it could be suggested that the time to the initiation of maintenance treatment with immunomodulators should be calculated from the first consultation with a neurologist, who is in fact the prescriber, rather than from the onset of the first symptoms. The central issue of access to a first consultation with a neurologist would still be measured by the indicator evaluating the time between the onset of the first symptoms of the disease and this first consultation.

Based on this unique experience, the authors wish to provide the community of professionals involved in the care of these patients with an updated list of quality indicators for the evaluation of their practices and organizations. These choices were, firstly, guided by current clinical practice guidelines, to ensure the definition of indicators that are pertinent with respect to these guidelines. They were also guided by a desire for the evaluation process to be deployable beyond dedicated projects, such as this one, with support from local or national initiatives, particularly in connection with the French-speaking Society for MS and the French Observatory for Multiple Sclerosis. These indicators therefore needed to cover the major steps in the diagnosis and follow-up of patients, according to the logic of the care pathway used in our project.

At each of these stages, the proposed indicators refer to scientific data validated in the domain, in terms of appropriate diagnostic and therapeutic approaches, and issues of access to the care system and waiting times for the patients concerned. These issues remain relevant today, as demonstrated by some of the results of this study.

These proposals are presented in Table E and should now be discussed by professionals. In our opinion, such discussions should also integrate the views of patients and their carers, by making use of the results of the first study of their experiences concerning the quality of care pathways, in particular [14]. Ultimately, we will be able to validate the precise definition of these indicators, together with the methods used to calculate them, and to provide teams with methodological data collection tools for the assessment of their practices and organizations on the basis of these validated indicators.

5. Conclusion:

The results of this first real-life survey illustrate the potential usefulness of tools developed and validated by the professionals themselves. They also provide access to unprecedented new data in France, for a sample of patients that can be considered representative for the follow-up period concerned. Many of these results confirm data already published or known to the professionals managing these patients. They should make it possible to improve the targeting of actions, to improve the quality of care further for patients with MS in France. Progress in our knowledge, leading to changes in the guidelines, should be taken into account when updating the tools on which these assessments are based. For this reason, we propose to continue this process by submitting, for discussion, a targeted list of updated indicators relating to changes in guidelines, and in issues concerning the quality of patient management.

6. Funding

This work was supported by the French Health Ministry's National Program of Hospital Quality Research (2010)

7. References

- [1] Chiu C, Bishop M, Pionke JJ, Strauser D, Santens RL. Barriers to the accessibility and continuity of health-care services in people with multiple sclerosis. *Int J MS Care* 2017;19:313-321. doi: 10.7224/1537-2073.2016-016
- [2] Feys P, Giovannoni G, Dijsselbloem N, Centonze D, Eelen P, Andersen SL. The importance of a multi-disciplinary perspective and patient activation programmes in MS management. *Mult Scler* 2016; 2(2S):34-46. doi: 10.1177/1352458516650741.
- [3] Agence Nationale pour le Développement de l'Évaluation Médicale. L'évaluation des pratiques professionnelles dans les établissements de santé. In : *L'audit clinique*. 69 p. Paris: ANDEM. 1994
- [4] Farquhar M. AHRQ Quality Indicators. In: Ronda GH editor. *Patient Safety and Quality: An Evidence-Based Handbook for Nurses*, Rockville : Agency for Healthcare Research and Quality ; 2008, chapter 45.

- [5] Donabedian A. The quality of care. How can it be assessed? JAMA. 1988;260(12):1743-8. doi: 10.1001/jama.260.12.1743.
- [6] Brook RH, McGlynn EA, Cleary PD. Quality of health care. Part 2: measuring quality of care. N Engl J Med 1996;335(13):966-70. doi: 10.1056/NEJM199609263351311.
- [7] Rae-Grant A, Bennett A, Sanders AE, Phipps M, Cheng E, Bever C. Quality improvement in neurology: multiple sclerosis quality measures: executive summary. Neurology 2015;85:1904-1908. doi: 10.1212/WNL.0000000000001965.
- [8] Cheng EM, Crandall CJ, Bever CT Jr, Giesser B, Haselkorn JK, Hays RD, Shekelle P, Vickrey BG. Quality indicators for multiple sclerosis. Mult Scler 2010;16(8):970-80. doi: 10.1177/1352458510372394. Epub 2010 Jun 18.
- [9] Shoemaker SJ, Pozniak A, Hadden L. Assessing four quality indicators for multiple sclerosis management through patient-reported data. Int J MS Care 2016;18:202-209. doi: [10.7224/1537-2073.2014-097](https://doi.org/10.7224/1537-2073.2014-097)
- [10] Nice Guidance, <https://www.nice.org.uk>
- [11] Hawkes N. NICE guidelines on multiple sclerosis are being ignored. BMJ 2011;343:11. doi: doi.org/10.1136/bmj.d6525
- [12] OFSEP, <http://www.ofsep.org/fr/>
- [13] Veillard D, Deburghgraeve V, Le Page E, Debouverie M, Wiertelowski S, Gallien P, Edan G. Developing tools to evaluate quality of care management for patients living with multiple sclerosis: an original French initiative. Submitted to Revue Neurologique
- [14] Veillard D, Baumstarck K, Edan G, Debouverie M, Wiertelowski S, De Sèze J, Clavelou P, Pelletier J, Verny C, Chauvin K, Cosson M.E, Loundou A, Auquier P. Assessing the experience of care management quality of patients living with multiple sclerosis and their caregivers: the MusiCare questionnaire. Eur J Neurol 2021;28(3):910-920. doi: 10.1111/ene.14685. Epub 2021 Jan 5.
- [15] Yaouanq J, Tron I, Kerbrat A, Leray E, Hamonic S, Merienne M, Hinault P, Edan G. Register-based incidence of multiple sclerosis in Brittany (north-western France), 2000-2001. Acta Neurol Scand 2015;131(5):321-8. doi: 10.1111/ane.12332. Epub 2014 Oct 14.
- [16] Debouverie, M., S. Pittion-Vouyovitch, Louis S, Guillemin F, LORSEP Group. "Natural history of multiple sclerosis in a population-based cohort." Eur J Neurol 2008;15(9): 916-921. doi: 10.1111/j.1468-1331.2008.02241.x. Epub 2008 Jul 15.
- [17] El Adssi H, Debouverie M, Guillemin F, LORSEP Group. Estimating the prevalence and incidence of multiple sclerosis in the Lorraine region, France, by the capture-recapture method. Mult Scler 2012;18(9):1244-50. doi: 10.1177/1352458512437811. Epub 2012 Feb 21.
- [18] Fitch K, Bernstein SJ, Aguilar MD, Burnand B, LaCalle JR, Lazaro P. The RAND/UCLA appropriateness method user's manual. Santa Monica, Calif: RAND Corporation; 2001
- [19] EDMUS, <https://www.edmus.org/indexf.html>
- [20] OFSEP, <http://www.ofsep.org/fr/9-la-cohorte>

- [21] Roddam H, Rog D, Janssen J, Wilson N, Cross L, Olajide O, Dey P. Inequalities in access to health and social care among adults with multiple sclerosis: A scoping review of the literature. *Mult Scler Relat Disord* 2019;28:290-304. doi: 10.1016/j.msard.2018.12.043.
- [22] Roux J, Guilleux A, Lefort M, Leray E. Use of healthcare services by patients with multiple sclerosis in France over 2010-2015: a nationwide population-based study using health administrative data. *Mult Scler J Exp Transl Clin* 2019;18;5(4):2055217319896090. doi: [10.1177/2055217319896090](https://doi.org/10.1177/2055217319896090)
- [23] Minden SL, Hoaglin DC, Hadden L, Frankel D, Robbins T, Perloff J. Access to and utilization of neurologists by people with multiple sclerosis. *Neurology* 2008 ;25;70(13 Pt 2):1141-9. doi: 10.1212/01.wnl.0000306411.46934.ef.
- [24] Minden SL, Frankel D, Hadden L, Hoaglin DC. Access to health care for people with multiple sclerosis. *Mult Scler* 2007;13(4):547-58. doi: 10.1177/1352458506071306. Epub 2007 Feb 9.
- [25] Barin L, Kaufmann M, Salmen A, Kamm CP, Gobbi C, Kuhle J, Pot C, Chan A, Czaplinski A, Ajdacic-Gross V, Rodgers S, Kesselring J, Puhon MA, von Wyl V, Swiss Multiple Sclerosis Registry. Patterns of care for multiple sclerosis in a setting of universal care access: A cross-sectional study. *Mult Scler Relat Disord* 2019;28:17-25. doi: 10.1016/j.msard.2018.11.033. Epub 2018 Dec 2.
- [26] Le Fort M, Wiertelowski S, Bernard I, Bernier C, Bonnemain B, Moreau C, Nicolas Chouet C, Pavillon T, Tanguy E, Villard A, Bertout P, Bodic P, Desjobert S, Kieny P, Lejeune P, Lombrail P, RESEP-Loire. Multiple sclerosis and access to healthcare in the Pays de la Loire region: preliminary study based on 130 self-applied double questionnaires. *Ann Phys Rehabil Med* 2011;54(3):156-71. doi: 10.1016/j.rehab.2011.02.005. Epub 2011 Apr 6.
- [27] Amatya B, Khan F, Galea M. Rehabilitation for people with multiple sclerosis: an overview of Cochrane Reviews. *Cochrane Database Syst Rev* 2019;14;1(1):CD012732. doi: 10.1002/14651858.CD012732.pub2.
- [28] Kayes NM, McPherson KM, Taylor D, Schlüter PJ, Kolt GS. Facilitators and barriers to engagement in physical activity for people with multiple sclerosis: a qualitative investigation. *Disabil Rehabil* 2011;33(8):625-42. doi: 10.3109/09638288.2010.505992. Epub 2010 Aug 9.
- [29] Royal College of Physicians and Multiple Sclerosis Trust, National Audit of Services for People with Multiple Sclerosis. London: Royal College of Physicians; 2008.
- [30] Gottberg K, Einarsson U, Ytterberg C, Fredrikson S, von Koch L, Holmqvist LW. Use of health care services and satisfaction with care in people with multiple sclerosis in Stockholm County: population-based study. *Mult Scler* 2008;14(7):962-71. doi: 10.1177/1352458508089688. Epub 2008 Jun 23.
- [31] Helland CB, Holmøy T, Gulbrandsen P. Barriers and Facilitators Related to Rehabilitation Stays in Multiple Sclerosis: A Qualitative Study. *Int J MS Care* 2015;17(3):122-9. doi: [10.7224/1537-2073.2014-007](https://doi.org/10.7224/1537-2073.2014-007).

- [32] Glattacker M, Giesler JM, Klindtworth K, Nebe A. Rehabilitation use in multiple sclerosis: Do illness representations matter? *Brain Behav* 2018;8(6):e00953. doi: [10.1002/brb3.953](https://doi.org/10.1002/brb3.953)
- [33] McDonald WI, Compston A, Edan G, Goodkin D, Hartung HP, Lublin FD, McFarland HF, Paty DW, Polman CH, Reingold SC, Sandberg-Wollheim M, Sibley W, Thompson A, van den Noort S, Weinshenker BY, Wolinsky JS. Recommended diagnostic criteria for multiple sclerosis: guidelines from the International Panel on the Diagnosis of Multiple Sclerosis. *Ann Neurol* 2001;50(1):121-7. doi: 10.1002/ana.1032.
- [34] Polman CH, Reingold SC, Edan G, Filippi M, Hartung HP, Kappos L, Lublin FD, Metz LM, McFarland HF, O'Connor PW, Sandberg-Wollheim M, Thompson AJ, Weinshenker BG, Wolinsky JS. Diagnostic criteria for multiple sclerosis: 2005 revisions to the "McDonald Criteria". *Ann Neurol* 2005;58(6):840-6. doi: 10.1002/ana.20703.
- [35] Defer G, de Seze J, Bouee S, Courouve L, Longin J, Payet M, Deleglise ASJ, study group. Outcomes and treatment management of a French cohort suffering from multiple sclerosis: A retrospective epidemiological study. *Mult Scler Relat Disord* 2018;25:276-281. doi: 10.1016/j.msard.2018.08.004. Epub 2018 Aug 6.
- [36] Leray E, Yaouanq J, Le Page E, Coustans M, Laplaud D, Oger J, Edan G. Evidence for a two-stage disability progression in multiple sclerosis. *Brain* 2010;133(Pt 7):1900-13. doi: [10.1093/brain/awq076](https://doi.org/10.1093/brain/awq076).
- [37] Indicateurs de qualité et de sécurité des soins. Rapport des résultats nationaux de la campagne 2019 HAS https://www.has-sante.fr/upload/docs/application/pdf/2019-12/iqss_rapport_complet_2019.pdf

Table A : The AAN MS quality measurement set (2015) :

Rae-Grant A, Bennett A, Sanders AE, Phipps M, Cheng E, Bever C. Quality improvement in neurology: Multiple sclerosis quality measures: Executive summary. *Neurology*. 2015 Nov 24;85(21):1904-8

1. MS diagnosis : percentage of patients who receive a new diagnosis of MS in the past 12 months fulfilled international criteria
2. Comparison MRI within 24 months of MS diagnosis : percentage of patients with MS who had an MRI with and within 24 months of diagnosis compared with a baseline MRI
3. Current MS disability scale score : percentage of patients with MS who have an MS disability scale score documented in the medical record in the past 12 months
4. Fall risk screening for patients with MS : percentage of patients with MS who were screened for fall risk in the past 12 months
5. Bladder infections for patients with MS : percentage of patients with MS who have had a bladder infection in the past 12 months
6. Exercise and appropriate physical activity counseling for patients with MS : percentage of patients with MS who were counseled on the benefits of exercise and appropriate physical activity for patients with MS in the past 12 months
7. Fatigue outcome for patients with MS : percentage of patients with MS whose most recent score indicates results are maintained or improved on a validated fatigue rating instrument for patients with MS in the past 12 months
8. Cognitive impairment testing for patients with MS : percentage of patients 18 years and older with MS who were tested for cognitive impairment in the past 12 months
9. Clinical depression screening for patients with MS : percentage of patients aged 12 years and older with MS who were screened for clinical depression using an age-appropriate standardized depression screening instrument for patients with MS in the past 12 months
10. Depression outcome for patient with MS : percentage of patients aged 12 years and older with MS whose most recent score indicates results are maintained or improved on a validated depression screening instrument for patients with MS in the past 12 months

Table B. Sociodemographic data from 2000 to 2010

Sex ratio Female/male	2.6 (504/195)
Age at first symptoms In years, median (IQR), <i>N</i> = 699	34.7 (27.2 - 42.9)
Time from first symptoms to diagnosis In months, median (IQR), <i>N</i> = 554	12.4 (3.6 – 36.2)
Phenotype of the disease <i>N</i> (%), <i>N</i> = 699	Remitting : 489 (70%) Progressive from the outset: 94 (13.4%) CIS: 116 (16.6%)
Number of patients with an initially remitting form progressing to the progressive form during follow-up <i>N</i> = 489	92 (18.8%)
Time from initial diagnosis to the progression of a remitting form to a progressive form In years, median (IQR), <i>N</i> = 68	4.4 (2.2 – 6.0)
Number of female patients who became pregnant during follow-up <i>N</i> = 504	89 (17.6%)
Duration of follow-up In years, <i>N</i> and %, mean \pm SD, <i>N</i> = 699	10 (<i>N</i> = 584, 84%)

	5.4 ± 3.1 (<i>N</i> = 112, 16%)
Annual relapse rate (95% CI) <i>N</i> = 532 (CIS excluded)	0.42 [0.40 – 0.43]

Table C : Change in EDSS score during follow-up :

Nb of patients % row % column	Remitting	Progressive	Secondarily progressive	Total
EDSS < 3 throughout follow-up	103 98.10 53.09	0 0.00 0.00	2 1.90 3.45	105 (35.0%)
Change in EDSS from < 3 to ≥ 3 throughout follow-up	84 64.12 43.30	10 7.63 20.83	37 28.24 63.79	131 (43.7%)
EDSS ≥ 3 throughout follow-up	7 10.94 3.61	38 59.38 79.17	19 29.69 32.76	64 (21.3%)
Total	194 (64.7%)	48 (16.0%)	58 (19.3%)	300

Table D. Results by indicators for the MQIS cohort

List of indicators that could be calculated, by domain	Results for the MQIS cohort
Access to care during follow-up, depending on the course of the disease	
A3. Percentage of initial etiological assessments performed, <i>N</i> = 699	88 (12.6%)
A4. Percentage of ophthalmologic examinations for patients with retrobulbar optic neuritis, <i>N</i> = 273	107 (39.2%)
B6. Time to neurological consultation after the first symptoms suggestive of MS, median (IQR) in days and months, <i>N</i> = 688	5.9 months (1.8 – 26.4)
B7. Percentage of patients who had annual neurological follow-up for patients with at least 10 years or less than 10 years of follow-up from the first consultation, <i>N</i> = 582	19.7% (115/582)
B9. Percentage of patients with an ophthalmic consultation within 30 days of the identification of visual problems by a neurologist or rehabilitation physician, <i>N</i> = 409	89 (21.8%)
B11. Percentage of active patients who had an “MS and work” consultation or a consultation with a social worker, <i>N</i> = 692	42 (6.1%)
B12. Percentage of patients included in at least one clinical trial, <i>N</i> = 699	32 (4.6%)
Management by imaging (IRM)	
C13. Percentage of patients who had a diagnostic brain MRI scan for a clinically isolated syndrome within 3 months of the onset of symptoms, <i>N</i> = 699	304 (43.5%)
C15. Percentage of patients whose diagnostic brain MRI performed within 12 months before or after the first consultation	176 (31.0%)

List of indicators that could be calculated, by domain	Results for the MQIS cohort
respected the T1, FLAIR, T2, double-echo, T1 sequences 5 min after the injection of a dose of gadolinium, $N = 568$	
C16. Percentage of patients whose diagnostic brain MRI was performed within 3 months of the initiation of immunosuppressive therapy, $N = 217$	84 (38.7%)
C17. Time to brain MRI of less than 3 months, and initiation of immunosuppressive therapy, median (IQR) in months, mean (SD), $N = 84$	1.4 (0.8) 1.4 (0.7 – 2.0)
Management of relapses	
D18. Time to consultation with a neurologist after the onset of symptoms suggestive of a relapse; median (IQR) in days, $N = 1,141$ relapses	9 (5 – 22)
D19. Rate of relapses confirmed by a neurologist and treated with an IV bolus of methylprednisolone (0.5, 1, 1.2, or 1.5 g for 3-5 days), $N = 888$ relapses	826 (93.0%)
D20. Time to initiation of corticosteroid therapy by an IV bolus of methylprednisolone (0.5, 1, 1.2, or 1.5 g for 3-5 days) after a relapse confirmed by a neurologist; mean (SD), median (IQR) in days, $N = 772$	24.6 (84.1) 9 (5 – 22)
Management of immunomodulatory treatment	
E21. Percentage of patients with relapsing-remitting MS for whom the prescription of an immunomodulatory treatment respected the indications, $N = 377$	264/377 (70.0%)
E22. Time to initiation of a first immunomodulatory treatment after the diagnosis of relapsing-remitting MS; mean (SD), median (IQR) in months, $N = 339$	24.1 (28.0) 11.5 (3.7 – 35.2)

List of indicators that could be calculated, by domain	Results for the MQIS cohort
E23. Percentage of patients on immunomodulatory treatment (relapsing-remitting MS) with an informative diagnosis at the start of treatment, within 12 months of diagnosis, <i>N</i> = 378	78 (20.6%)
E24. Percentage of patients on immunomodulatory treatment (relapsing-remitting MS) who were trained in self-injections and whose skills were assessed as part of a therapeutic education program, <i>N</i> = 94	15 (16%)
E25. Percentage of patients (relapsing-remitting MS) with regular laboratory monitoring during the initiation period of immunomodulatory treatment, <i>N</i> = 513	178 (35.5%)
Management of immunosuppressive treatment	
F26. Percentage of patients for whom the indications for prescribing natalizumab (relapsing-remitting MS) were respected when initiating treatment, <i>N</i> = 45	11 (24.4%)
F27. Percentage of patients who had a blood test (complete blood cell count, assay of immunoglobulin subclasses, B lymphocyte, CD4 T-cell and CD8 T-cell counts, HIV serology) in the 3 months before starting natalizumab treatment, <i>N</i> = 45	16 (35.6%)
F28. Percentage of treatment periods with natalizumab for which an annual brain MRI was performed, from the start of treatment, <i>N</i> =43	4 (9.3%)
F29. Percentage of patients for whom information concerning the potential benefits and risks of natalizumab was included in medical records, <i>N</i> = 45	13 (28.9%)
G31. Percentage of patients for whom information concerning the potential benefits and risks of mitoxantrone was traceable in the medical records, from 2004, <i>N</i> = 28	12 (42.9%)

List of indicators that could be calculated, by domain	Results for the MQIS cohort
G32. Percentage of patients for whom a pretreatment assessment (echocardiography and/or blood cell count) was performed before the initiation of mitoxantrone treatment, for patients treated from 2004, $N = 32$	14 (43.8%)
G33. Percentage of patients on mitoxantrone for whom the maximum cumulative dose administered over a period of more than 6 months was respected, for patients treated from 2004, $N = 5$ (treatment over a period of more than 5 years)	4 (80.0%)
G35. Percentage of patients on mitoxantrone for whom cardiac monitoring recommendations were followed, for patients treated from 2004 onwards (by number of years after the end of treatment)	1 year : 52.4% (11/21) 2 years : 70.6% (12/17) 3 years : 80.0% (12/15) 4 years : 78.6% (11/14) 5 years : 90.0% (9/10)
Management of care and rehabilitation	
H36. Percentage of patients with an EDSS score ≥ 3 , determined by two assessors, who subsequently had a consultation with a rehabilitation physician, $N = 292$	115 (39.4%)
H37. Time to a first consultation with a rehabilitation physician after the onset of the disease, according to EDSS score; mean (SD), median (IQR) in months, $N = 115$	18 (23.2) 9.4 (1.2 – 29.1)
H42. Percentage of patients with progressive or secondarily progressive MS with an EDSS score ≥ 3 who had access to physiotherapy within 6 months after a relapse, $N = 168$	18 (10.7%)
H43. Percentage of patients with progressive or secondarily progressive MS with an EDSS score ≥ 3 for the first time who had	33 (19.6%)

List of indicators that could be calculated, by domain	Results for the MQIS cohort
access to a rehabilitation department and/or structure within 6 months of reaching this score, $N = 168$	
H44. Percentage of patients with bladder sphincter disorders (urinary urgency, frequent urination, dysuria, urinary retention, urinary incontinence, etc.) who had an ultrasound scan of the kidneys and bladder, $N = 337$	107 (31.8%)
H45. Time to kidney and bladder ultrasound examination after the discovery of the first bladder sphincter problems; mean (SD), median (IQR) in months, $N = 104$	27.5 (33.6%) 19.0 (6.5 – 41.1)
H46. Percentage of patients who underwent urodynamic assessment after an ultrasound scan of the kidneys and bladder showing a post-voiding urine residue > 100 mL, $N = 24$	13 (54.2%)
H47. Percentage of patients with known urinary disorders (i.e., confirmed by reno-bladder ultrasound showing a urinary residue post-voiding > 100 mL) and who had an annual kidney-bladder ultrasound scan, $N = 209$	5 (2.4%)
H48. Percentage of physiotherapy and rehabilitation visits at which fatigue was assessed, $N = 670$	53 (7.9%)

Table E : proposal of the authors to define quality indicators

Stage of the care pathway	Proposal to define Quality indicators
Diagnosis	Time to neurological consultation after the first symptoms suggestive of MS
	Percentage of patients who had a diagnostic brain or spinal cord MRI scan for a clinically isolated syndrome, during 3 months of the onset of symptoms
	Percentage of patients who had a lumbar puncture when dissemination can not be assessed by clinical and MRI results
Follow up for patients with RR MS	Rate of relapses confirmed by a neurologist and needed a treatment with bolus of methylprednisolone
	Percentage of patients who had annual neurological follow-up (after a first visit with neurologist to confirm MS)
	Percentage of patients having access to an MS- specialized center (multidisciplinary clinic)
	Time to consultation with an ophthalmologist after detection of a 1 st visual disorder (including retrobulbar optic neuritis)
	Percentage of patients with at least one annual brain MRI throughout follow-up
	Percentage of patients whose brain MRIs respected the sequences of the OFSEP protocol
	Time to the 1st rehabilitation management for patients with an EDSS score ≥ 3
	Percentage of patients with prescription of a 2 nd line immunosuppressors treatment having a multidisciplinary advice

	Time to initiation of a first immunomodulatory treatment after the diagnosis
	Percentage of immunomodulator-treated patients evaluated for a patient-education program at treatment onset
Follow up for patients with PP MS	Percentage of PPMS patients with a EDSS >3 having access to an MS- specialized center (multidisciplinary clinic)
	Percentage of patients whose brain MRIs respected the sequences of the OFSEP protocol
	Time to consultation with an ophthalmologist after detection of a 1st visual disorder (including retrobulbar optic neuritis)
	Percentage of patients with progressive or secondarily progressive MS with an EDSS score ≥ 3 for the first time who had access to a rehabilitation department and/or structure
	Percentage of patient with RR MS with an EDSS score ≥ 3 acceding to rehabilitation

Figure A1. Time from the first neurological examination to the first brain MRI scan

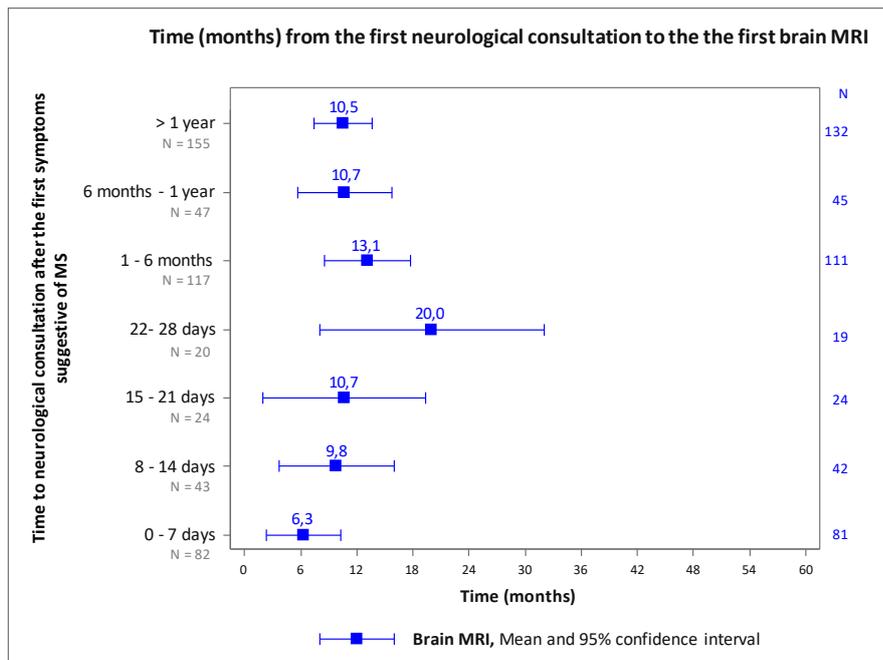
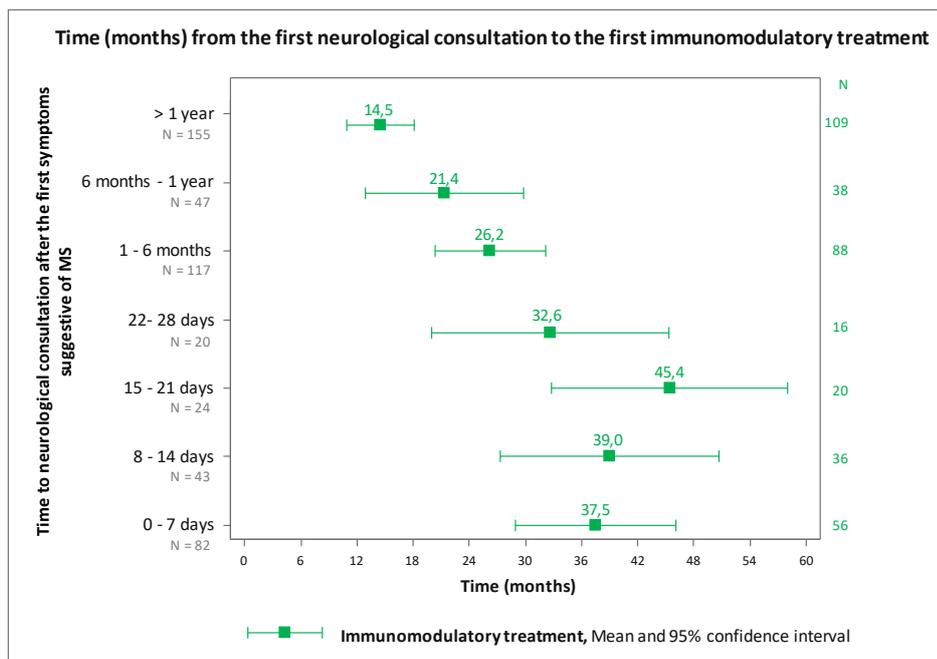


Figure A2. Time from the first neurological examination to the first treatment with a disease modifying treatment (immunomodulator)



9.6 Dossier de candidature auprès de l'EHESP pour l'organisation du séminaire pour l'identification de nouveaux objectifs de recherche :



Dossier de candidature pour le soutien de l'EHESP à un événement scientifique

Nom et prénom du porteur de projet	Rattachement EHESP
David Veillard et Alexandre Berkese	Professeurs affiliés Institut Du Management

Joindre une lettre du directeur de département, laboratoire ou équipe EHESP.

Pour les porteurs de projet non rattachés à l'EHESP : indiquez la personne référente à l'EHESP qui sera le relai entre l'EHESP et votre structure.

Titre du projet :

Identifier les besoins des patients atteints d'une SEP et de leurs proches aidants pour améliorer la qualité de leur parcours de soins : journée pour l'engagement d'une démarche et de projets de recherche ciblés en partenariat patients/professionnels

Dates ou période de l'événement

Dernier trimestre 2021

Cible : Détaillez le(s) publics visé(s) (fonctions/métier, établissements d'origine) et le nombre de participants attendu. Précisez l'effectif minimum en dessous duquel l'événement ne sera pas monté.

En dehors des organisateurs (5 professionnels issus des services de santé publique des CHU de Rennes et Nantes), cette journée mobilisera :

- Plusieurs patients experts/ressources ou partenaires, atteints d'une SEP qui seront mobilisés via les réseaux France asso-Santé et via les associations ARSEP et ligue contre la SEP (6-8 personnes ; contacts existant et facilement mobilisables)
- Des proches aidants via ces réseaux (4-5 personnes) également mobilisés via ces réseaux et associations
- Des professionnels de santé d'horizons divers seront également sollicités : médecins spécialistes du domaine (neurologues, MPR notamment), travaillant en établissement

hospitalier (CHU, CH) mais aussi en cabinet libéral et dans les réseaux SEP, ainsi que des professionnels paramédicaux (IDE, kinésithérapeute, psychologue) (10 – 12 professionnels ; contacts existants à l'échelle nationale et facilement mobilisables)

- Enfin des sociologues de la santé seront associés à cette journée (3-4 personnes ; contact déjà identifiés)

Au total une quarantaine de personnes au maximum seront mobilisés, avec un seuil minimal d'une vingtaine de personnes

Envergure géographique : Précisez si l'événement a une portée régionale, nationale, européenne ou internationale.

L'équipe qui organise cette journée est engagée depuis plusieurs années dans des projets nationaux mobilisant professionnels et associations de patients dans le domaine de la SEP. Ce réseau national sera celui mobilisé pour cette journée. Cet événement aura donc une portée nationale.

Cependant, un des professionnels de l'équipe (A Berkesse) a également une expérience significative dans l'accompagnement des patients et proches aidants dans les réseaux et projets de recherche au Canada. Certains retours d'expérience (menés par exemple en duo avec des patients partenaires québécois ayant eu aussi une expérience de ces initiatives) pourront être mobilisés dans le cadre de la journée. Nous avons donc également la volonté de capitaliser sur des expériences internationales.

Opportunité pour l'EHESP : Expliquez en quoi le thème de l'événement s'intègre aux axes de recherche et d'enseignement de l'EHESP et quelles sont les retombées attendues pour l'EHESP à l'occasion de cet événement

L'organisation de cette journée s'intègre dans plusieurs des axes de recherche et d'enseignement de l'EHESP (engagement des usagers, recherche participative, coopération en santé, démocratie en santé...)

Cette journée et les projets de recherche qu'elle contribuera à construire via l'identification des besoins des patients et de leurs proches aidants, ont pour objet principal l'amélioration de la qualité des parcours de soins de patients touchés par les conséquences évolutives et définitives de la SEP, pathologie chronique qui inscrit une majorité de patients dans une situation de vulnérabilité évidente.

Dans la suite de travaux engagés et publiés depuis quelques années, l'approche de notre équipe pour développer de nouveaux projets de recherche est clairement celle d'un partenariat usagers/professionnels en amont même de la conception des projets de recherche à soumettre aux appels d'offres nationaux, à travers notamment l'identification des besoins des patients et de leurs proches aidants objet central de la journée. Cet engagement sera celui de la conception et du suivi des projets de recherche issus de cette réflexion commune qui s'inscrit également dans une dimension interprofessionnelle (non exclusivement médicale d'une part et CHU centrée d'autre part)

A ce jour, cette approche collaborative pour le développement de la recherche n'est quasiment pas déployée dans le domaine de la SEP en France.

Programme prévisionnel : avec les intervenants pressentis. Précisez le type de support remis aux participants et les objectifs d'apprentissage, s'il s'agit d'une conférence entrant dans le cadre de la formation continue.

Un travail préparatoire en amont de la journée est porté par les équipes organisatrices pour réaliser l'analyse de la bibliographie et l'état des pratiques et connaissances d'une part sur le domaine « évaluation de la qualité du parcours de soins des patients atteints d'une SEP » et d'autre part sur l'implication des patients et de leurs proches aidants dans ces démarches.

Une synthèse de cette analyse sera partagée avec les participants en amont de la journée, particulièrement avec les patients et les proches aidants. Il s'agira d'un des éléments de leur préparation pour la journée. Ce travail collectif de préparation avec les patients et les proches aidants est nécessaire pour d'une part qu'ils se connaissent (ce qui sera le cas des professionnels habitués à travailler ensemble dans le cadre de projets et d'activités nationales) et d'autre part qu'ils s'approprient plusieurs savoirs qu'ils pourront alors plus facilement mobiliser lors des discussions de la journée. Ils se sentiront alors en pleine capacité de contribuer à ce travail de coopération alors qu'ils restent encore à ce jour moins familiarisés avec les enjeux et objectifs relatif aux démarches de recherche que les autres participants (professionnels de santé, sociologues, professionnels de santé publique).

Lors de la journée, l'objectif principal sera d'identifier les besoins des patients et de leurs proches aidants pour l'amélioration de la qualité des parcours de soins de ces patients dans l'optique d'une co-élaboration de projets de recherche, il s'agira d'accompagner l'appropriation de ces besoins également par les professionnels de santé et les équipes de santé publique et de sociologie.

Une synthèse du travail préparatoire et des objectifs de la journée sera présentée en introduction par les organisateurs issus des services de santé publique. Ils animeront par la suite des discussions avec l'ensemble des personnes présentes autour des principaux besoins identifiés en amont par les patients, qui pourront intervenir pour les présenter et les argumenter. Des propositions d'intervention pour répondre à ces besoins et des pistes de recherche pourront être relevées.

Un temps animé par les organisateurs sera dédié à d'autres propositions d'amélioration de la qualité du parcours de soins qui n'auraient pas été discutées ou qui pourraient émerger des discussions précédentes.

Enfin, une priorisation des projets potentiels pourra être décidée avec l'ensemble des personnes présentes.

Cette appropriation en commun devra permettre de définir des nouveaux objectifs de recherche pour l'amélioration de la qualité des parcours de soins des patients atteints d'une SEP en France, et de se projeter sur de futurs appels à projets nationaux.

Lieu : S'il s'agit de l'EHESP, précisez Rennes ou Paris, et la salle. Indiquez si une réservation a été effectuée.

Rennes – pas de réservation encore effectuée

Tarif pour les participants :

Gratuit

Soutien demandé à l'EHESP :

Institutionnel (utilisation du logo de l'EHESP et/ou implication de personnel d'enseignement/recherche)

Précisez les partenaires et les modalités du partenariat (convention, apports attendus de chaque partenaire dont l'EHESP)

Matériel (utilisation de locaux, de matériel, de services de l'EHESP)

Financier (demande de participation financière de l'EHESP)

9.7 Protocole de l'enquête EPISEP :

EPISEP - RECHERCHE HORS LOI JARDE – EVALUATION DES PRATIQUES PROFESSIONNELLES

Titre et acronyme	<u>E</u> valuation de l'expérience des <u>P</u> atients et de leurs proches <u>a</u> idants vis-à-vis de la qualité de la prise en charge de la <u>S</u> clérose <u>E</u> n <u>P</u> laques - EPISEP
Responsable traitement	du CHU de Rennes, 2 rue Henri le Guilloux, 35033 Rennes cedex 9 NOM : Nicolas MEVEL – Directeur de la Recherche et de l'Innovation
Investigateur coordonnateur	Dr David VEILLARD Service de Santé Publique et Epidémiologie CHU de Rennes – Hôpital Pontchaillou 2 rue Henri le Guilloux 35000 Rennes david.veillard@chu-rennes.fr +33(0)299289776
Code essai	35RC20_3020_EPISEP
Version du protocole	2.0 du 28/08/2020
CER	Date d'avis : 20/08/2020 Numéro d'avis : 20.101
CNIL	Projet conforme à la méthodologie de référence MR004. Date de déclaration : 20 août 2018. N° de déclaration : 2205295 v 0
Contexte et justification	La mise en œuvre de nouvelles organisations pour la coordination de la prise en charge des patients atteints de maladie chronique a pour objectif l'amélioration de la qualité des soins apportés à ces patients. Dans le cadre de la SEP, de nombreuses initiatives régionales dédiées à la coordination des soins pour ces patients ont été mises en œuvre depuis plusieurs années, soutenues par l'assurance maladie dans le cadre des financements des réseaux de soins. Parallèlement, le principe de l'implication des usagers dans les choix et la conduite de leur parcours de soins est un phénomène désormais irréversible

	<p>dans nos systèmes de santé. La mesure de l'expérience des patients, mais aussi de leurs proches, c'est-à-dire leur vécu tout au long de leur interaction avec le système de soins et ses professionnels, fait partie de cette démarche.</p> <p>L'enquête EPISEP s'intègre dans un programme de recherche piloté par notre équipe depuis 2010 (projet IRSEP - PREQHOS n° 2010-A0096138) et qui a pour but d'une part de comparer la qualité de prise en charge des patients atteints d'une Sclérose en Plaques (SEP) selon des organisations dédiées différentes (réseaux formalisés ou non, centrés sur les patients ou sur les professionnels) et d'autre part de mesurer l'impact (social, familial, médico-économique, professionnel...) de la maladie du point de vue des patients eux-mêmes, et de leurs aidants naturels ou proches aidants.</p> <p>Dans le cadre de la seconde partie de ce programme, nous avons élaboré et validé un outil de mesure de qualité perçue des soins par les patients et leur proches aidants (questionnaire MusiCare). Il s'agit d'un outil comportant 5 dimensions et un total de 35 items (questions). Sur le même modèle méthodologique que les questionnaires de qualité de vie, l'expérience du patient et celle de son proche aidant sont mesurées par un score global et par dimension. Grâce à ces outils inédits, nous souhaitons réaliser une 1^{ère} enquête transversale au niveau national afin de décrire le vécu et le ressenti des patients atteints d'une SEP et de leurs proches aidants vis-à-vis de la qualité de leur parcours de soins, actuellement en France. Ses résultats, couplés à ceux de l'évaluation de la qualité de vie de ces patients et de leurs proches aidants, seront mis à disposition des acteurs (patients et proches aidants, professionnels de santé, gestionnaires du système de santé...) impliqués dans la structuration et la mise en œuvre des parcours de soins. Dans ce cadre, ils permettront d'identifier des besoins insuffisamment ou non couverts actuellement et pourront ainsi contribuer à y apporter des réponses.</p>
<p>objectif principal et critère de jugement principal</p>	<p>Objectif principal</p> <p>Evaluer l'expérience de patients atteints d'une SEP et de leurs proches aidants vis-à-vis de la qualité du parcours de soins du patient</p> <p>Critère de jugement principal :</p> <p>Scores globaux (groupe patients et groupe proches aidants) et scores par dimension des questionnaires MusiCare</p>
<p>(Si applicable) Objectif(s) secondaire(s) et Critère(s) de jugement associé(s)</p>	<p>Objectif(s) secondaire(s) :</p> <p>Evaluer la qualité de vie de ces patients et de leurs proches aidants.</p> <p>Critères de jugement secondaires :</p>

	<p>Pour les patients : Score global et scores par dimension du questionnaire MusiQol</p> <p>Pour les proches aidants : Score global et scores par dimension du questionnaire SF 12.</p>
Méthodologie de la recherche	Enquête transversale descriptive
Population concernée	<p>Patients</p> <p>Critères d'inclusion</p> <ul style="list-style-type: none"> - Patient dont le diagnostic de SEP est confirmé, quelle que soit la forme (rémittente ou progressive) de la maladie, - Agé de plus de 18 ans, - Personne ne s'opposant pas à sa participation à la recherche. <p>Critères de non inclusion</p> <ul style="list-style-type: none"> - Patient dont le diagnostic de SEP n'est pas confirmé à la date de point, - Patient ayant indiqué son refus de participer à l'étude, - Incapables majeurs, majeurs faisant l'objet d'une mesure de protection légale (sauvegarde de justice, curatelle, tutelle), personnes privées de liberté. <p>Proches aidants</p> <p>Critères d'inclusion</p> <ul style="list-style-type: none"> - Agé de plus de 18 ans, - Aidant non institutionnel, intervenant de façon habituelle auprès du patient et désigné comme tel par celui-ci <p>Critères de non inclusion</p> <ul style="list-style-type: none"> - Aidant bénéficiant d'une mesure de protection légale (sauvegarde de justice, curatelle, tutelle, personnes privées de liberté), - Aidant désigné par des patients faisant l'objet d'une mesure de protection légale (sauvegarde de justice, curatelle, tutelle), personnes privées de liberté.
Déroulement de la recherche	Les patients et leurs proches aidants seront informés du projet et sollicités pour compléter les questionnaires (Qualité perçue des soins « Musicare », qualité de vie des patients « MusiQoL » ou des aidants « SF12 » et échelle d'évaluation du handicap « London Handicap Scale ») par appel à

participation via les réseaux SEP et les Centres de Ressources et de Compétences SEP (CRC SEP) : communication relative à l'enquête EPISEP sur leur site internet et/ou diffusion à leurs adhérents par email. L'étude EPISEP sera également présentée lors des journées régionales d'information sur la SEP organisées par les réseaux locaux.

En retour, les patients et leurs proches aidants volontaires contacteront les CRC SEP et les réseaux pour valider leur participation. Les critères d'inclusion et d'exclusion seront vérifiés par ces centres qui remettront un code individuel à chaque participant éligible. Ces codes d'anonymisation devront être reportés dans les questionnaires par les patients et les aidants et la liste des codes utilisés sera transmise au CHU de Rennes qui recevra les questionnaires complétés.

Les patients sollicités individuellement seront par ailleurs invités à informer leur aidant non institutionnel, intervenant de façon habituelle auprès de lui, et à lui proposer de renseigner les questionnaires dédiés aux aidants. L'aidant est libre d'accepter ou de refuser de participer, son refus ne limitant pas la participation du patient. De même, les proches aidants sollicités individuellement pourront informer leur proche aidé de la possibilité de participer à l'étude.

Le cas échéant, les couples patient / proche aidant seront identifiés par des codes dédiés pour permettre des analyses spécifiques.

Les patients et proches aidants auront le choix de compléter les questionnaires en version électronique ou en version papier. Le temps estimé pour les renseigner est de 45 minutes.

Pour la version électronique, un lien leur sera fourni par leur CRC SEP ou leur réseau SEP pour accéder à un site sécurisé d'enquête du CHU de Rennes ; en première page des questionnaires, un lien vers une lettre d'information sera inséré et les participants seront invités à en prendre connaissance avant de répondre aux questions. Ce document sera téléchargeable et imprimable. Les réponses en ligne seront directement implémentées dans une base de données hébergée au CHU de Rennes avec accès réglementé. Les CRC SEP et les réseaux SEP pourront également adresser aux participants qui le souhaitent, une version des questionnaires à compléter directement dans Microsoft Office (document Word), accompagnée de la lettre d'information. Les questionnaires complétés devront être renvoyés au CRC ou au réseau SEP, qui les transmettra au CHU de Rennes. Après réception, les réponses aux questionnaires seront saisies manuellement dans la base de données dédiée du CHU de Rennes, comprenant également les réponses en ligne.

La version papier des questionnaires sera envoyée par les CRC et réseaux SEP à l'adresse des patients et des aidants qui le demanderont. Comme pour

	<p>les versions électroniques, une lettre d'information sera jointe et les participants seront invités à en prendre préalablement connaissance avant de répondre aux questions. Les documents complétés devront être renvoyés à l'adresse du département de santé publique du CHU de Rennes (les enveloppes timbrées seront fournies avec les questionnaires vierges). Les réponses seront saisies dans la base de données dédiée du CHU de Rennes.</p> <p>Les données seront enfin extraites de la base pour être analysées.</p>
Nombre de centres	<ul style="list-style-type: none"> ▪ Vingt-neuf CRC SEP seront sollicités : Agen, Amiens, Besançon, Bordeaux, Clermont-Ferrand, Caen, Dijon, Fort de France, Grenoble, Lille, Limoges, Lyon, Montpellier, Marseille, Nancy, Nantes, Nice, Nîmes, Paris (Sindefi, Pitié-Salpêtrière, Henri Mondor, Idf Ouest), Poitiers, Reims, Rennes, Rouen, Strasbourg, Toulouse, Tours. ▪ 17 réseaux SEP seront sollicités : Hauts-De-France, Normandie (2 Réseaux), Ile De France (2 réseaux), Grand Est (2 réseaux), Bretagne, Pays De Loire, Centre – Val De Loire, Bourgogne – Franche-Comté (2 réseaux), Nouvelle Aquitaine, Auvergne – Rhône-Alpes (2 réseaux), Occitanie, Paca
Justification du nombre de sujets	<p>Ce critère n'est pas applicable dans le cadre de cette enquête transversale descriptive.</p> <p>En se référant à l'étude de validation du questionnaire, la participation d'environ 1000 personnes sera recherchée.</p>
Méthode d'analyse des données	<p>Analyse statistique descriptive des questionnaires patients d'une part et de ceux proches aidants d'autre part, par dimension et avec calcul d'un score global pour les questionnaires MusiCare et de qualité de vie.</p>
Durée de la recherche	<p>Les patients et les proches aidants seront recrutés selon les modalités décrites pendant une période de 6 mois. Le temps pour compléter les questionnaires est estimé au maximum à 45 minutes.</p> <p>Durée de suivi des participants : NA ; il n'y a pas de suivi ultérieur à l'envoi des questionnaires.</p> <p>Durée de traitement des données et rapports : 3 mois</p> <p>Durée totale : 15 mois (y compris la mise à disposition et la diffusion des résultats)</p>
Information et recueil de la non opposition	<p>Les participants seront informés de façon complète et loyale, en des termes compréhensibles, des objectifs de l'étude, de leurs droits de refuser de participer à l'étude ou de la possibilité de se rétracter à tout moment.</p>

<p>Résultats escomptes et perspectives</p>	<p>L'évaluation de la qualité des soins perçue par les patients et leurs proches aidants permettra d'établir un état des lieux de leur vécu et leur ressenti vis-à-vis de leur prise en charge actuellement, d'en valoriser les points forts, d'identifier des besoins non couverts et ainsi proposer des axes d'amélioration des organisations existantes.</p>
<p>Origine et nature des données recueillis</p>	<p>Listing des données recueillies :</p> <ul style="list-style-type: none"> ○ Identification : <input checked="" type="checkbox"/> OUI <input type="checkbox"/> NON <p>Mois et année de naissance, sexe ; les nom(s) et prénom(s) ne seront pas requêtés, un code alphanumérique (numéro du CRC délivrant le code / numéro d'ordre / première lettre du nom et la première lettre du prénom du patient).</p> <ul style="list-style-type: none"> ○ Données de santé : <input checked="" type="checkbox"/> OUI <input type="checkbox"/> NON <p>Traitement de fond et maladie intercurrente pouvant interférer avec la SEP.</p> <ul style="list-style-type: none"> ○ Photographie et/ou vidéo et/ou enregistrements vocaux : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON ○ Dates relatives à la conduite de la recherche : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON ○ Origine ethnique : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON ; ○ Données génétiques : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON ○ Situation familiale : <input checked="" type="checkbox"/> OUI <input type="checkbox"/> NON <p>Situation maritale pour la présence d'un aidant conjoint.</p> <ul style="list-style-type: none"> ○ Niveau de formation : <input checked="" type="checkbox"/> OUI <input type="checkbox"/> NON <p>Niveau d'étude et profession.</p> <ul style="list-style-type: none"> ○ Catégorie socio-professionnelle : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON <p>Profession ; champ libre.</p> <ul style="list-style-type: none"> ○ Vie professionnelle : <input checked="" type="checkbox"/> OUI <input type="checkbox"/> NON <p>Activité professionnelle à temps plein, mi-temps ou arrêt en lien avec la SEP.</p> <ul style="list-style-type: none"> ○ Régime d'affiliation à la sécurité sociale : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON ○ Participation à d'autres recherches ou études : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON ○ Déplacements : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON ○ Consommation de tabac, alcool, drogues : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON ○ Habitudes de vie et comportements : <input checked="" type="checkbox"/> OUI <input type="checkbox"/> NON <p>Lieu d'habitation : domicile, chez un proche, en institution.</p>

	<ul style="list-style-type: none"> ○ Mode de vie : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON ○ Vie sexuelle : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON ; ○ Statut vital : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON ○ Montant annuel des indemnités perçues : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON ○ Echelle de qualité de vie ou autre information sur la qualité de vie de la personne : <input checked="" type="checkbox"/> OUI <input type="checkbox"/> NON ○ Remboursement des frais engagés par la personne concernée, liés à la recherche : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON ○ Autres données : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON <p>Leur(s) source(s) :</p> <p>Directement auprès des patients et des aidants.</p>
Recueil des données	<p>Mode de recueil :</p> <p>Le questionnaire « MusiCare », les questionnaires de qualité de vie « MusiQoL » pour les patients et « SF12 » pour les proches aidants, et l'échelle d'évaluation du handicap « London Handicap Scale » sont disponibles 1) en ligne grâce au logiciel Sphinx permettant de diffuser de façon sécurisée les enquêtes émanant du CHU de Rennes. L'accès aux questionnaires en ligne sera possible grâce à un lien, et les réponses en ligne seront directement implémentées dans la base de données créée par le logiciel ; 2) en version word modifiable pour pouvoir répondre aux questions dans le document. Les questionnaires seront transmis vierges aux participants et renvoyés complétés aux CRC et réseaux SEP locaux, qui les renverront dans le service de santé publique du CHU de Rennes où les réponses seront saisies manuellement dans la base de données Sphinx. Dans les deux cas, les investigateurs et professionnels impliqués dans la recherche n'auront aucun accès à l'identité des répondants.</p> <p>Les versions papier complétées des questionnaires seront transmises par courrier au service de santé publique du CHU de Rennes, et les réponses seront saisies manuellement dans la base de données Sphinx.</p> <p>La table de correspondance sera recueillie sous format papier ou électronique, selon les préférences des centres.</p> <p>Lieu d'hébergement :</p> <p>La base de données sera hébergée sur le serveur du CHU de Rennes grâce au logiciel Sphinx, et accessible de façon règlementée.</p> <p>Les tables de correspondance seront conservées selon le format dans le bureau du référent du centre ou sur le réseau informatique du CRC</p>

Circuit des données	<p>Chaque référent CRC et réseau tiendra à jour la table de correspondance et la conservera. La liste des codes attribués (sans mention de l'identité du patient) sera transmise à l'équipe du CHU de Rennes en charge de la recherche pour le contrôle de cohérence.</p> <p>Les CRC et réseau SEP diffuseront l'information au sujet de l'enquête EPISEP via leurs moyens de communication habituels (site internet, liste de diffusion des adhérents) ; l'enquête EPISEP sera également présentée lors de journées d'informations sur la SEP organisées par ces réseaux. Si des patients ou proches aidants se manifestent et donnent leur accord pour participer, les CRC et réseau SEP mettront à leur disposition le lien pour accéder à l'enquête ou leur enverront un questionnaire en version word ou en version papier avec enveloppe timbrée pour le retour des questionnaires complétés. Les données saisies en ligne par les participants seront directement implémentées dans la base de données Sphinx. Les données des questionnaires en version word et papier seront saisies manuellement dans la base de données Sphinx par l'équipe du CHU de Rennes en charge de la recherche</p> <p>L'ensemble des données saisies sera hébergé sur le serveur du CHU de Rennes, via le logiciel Sphinx. Les questionnaires en version word et papier seront conservés sur site au service de santé publique et d'épidémiologie du CHU de Rennes.</p> <p>Une extraction de la base de données en format Excel sera réalisée pour analyse descriptive par un bio statisticien du service d'Epidémiologie et de Santé Publique du CHU de Rennes.</p> <p>Les personnes ayant accès aux données sont le Dr Veillard, investigateur principal de l'étude, Emilie Chrétien réalisant la saisie manuelle des questionnaires papier dans la base, et le bio statisticien chargé de l'analyse des données.</p> <p>Les données seront conservées par l'investigateur coordonnateur jusqu'à deux ans après la dernière publication des résultats de la recherche ou, en cas d'absence de publication, jusqu'à la signature du rapport final de la recherche. Elles feront ensuite l'objet d'un archivage sur support papier ou informatique pour une durée maximale de 20 ans après la fin de l'étude.</p> <ul style="list-style-type: none"> ⇒ Pas de données extraites de systèmes d'informations existants ou de bases d'études déjà réalisées ⇒ Aucun transfert de données n'est prévu en dehors de l'UE
---------------------	--

Accès aux données	<p>Conformément aux processus qualité du CHU de Rennes :</p> <ul style="list-style-type: none"> - le responsable est chargé d'obtenir l'accord de l'ensemble des parties impliquées dans la recherche afin de garantir l'accès direct à tous les lieux de déroulement de la recherche, aux données sources, aux documents sources et aux rapports dans un but de contrôle de qualité et d'audit par le responsable, - les investigateurs mettront à disposition des personnes chargées du contrôle de qualité ou de l'audit de la recherche, les documents et données individuelles strictement nécessaires à ce contrôle.
Confidentialité des Données	<p>Conformément aux dispositions législatives en vigueur, les personnes ayant un accès direct aux données sources prendront toutes les précautions nécessaires en vue d'assurer la confidentialité des informations relatives aux recherches, aux personnes qui s'y prêtent et notamment en ce qui concerne leur identité ainsi qu'aux résultats obtenus. Ces personnes, au même titre que les personnes qui dirigent et surveillent la recherche, sont soumises au secret professionnel selon les conditions définies par les articles 226-13 et 226-14 du code pénal).</p> <p>Pendant la recherche ou à son issue, les données recueillies sur les personnes qui s'y prêtent et transmises au responsable du traitement par les personnes qui dirigent et surveillent la recherche (ou tous autres intervenants spécialisés) seront codifiées. Elles ne doivent en aucun cas faire apparaître en clair les noms des personnes concernées ni leur adresse.</p> <p>Le responsable du traitement s'assurera que chaque réseau se soit engagé à transmettre la lettre d'informer chaque personne qui se prête à la recherche, de l'accès aux données individuelles la concernant et strictement nécessaires au contrôle de qualité de la recherche.</p>
Audit et Inspection	<p>L'investigateur et les personnes associées s'engagent à accepter les éventuels audits d'assurance qualité effectués par le responsable du traitement de l'étude ainsi que les inspections effectuées par les autorités. Toutes les données, tous les documents et rapports peuvent faire l'objet d'audits et d'inspections réglementaires sans que puisse être opposé le secret médical. L'audit pourra s'appliquer à tous les stades de la recherche, du développement du protocole à la publication des résultats et au classement des données utilisées ou produites dans le cadre de la recherche.</p>
Liste des Annexes	<p>Annexe 1 : « Musicare » dédié aux patients</p> <p>Annexe 2 : « Musicare » dédié aux proches aidants</p>

	Annexe 3 : Lettre d'information Annexe 4 : MusiQoL Annexe 5 : SF12 Annexe 6 : London Handicap Scale
--	--

9.8 Protocole de l'étude Tysad35 :

RECHERCHE HORS LOI JARDE – EVALUATION DES PRATIQUES PROFESSIONNELLES

Titre et acronyme	Evaluation de l'impact des nouvelles pratiques et organisations des soins pour la prise en charge des patients atteints d'une SEP par Natalizumab en HAD : le point de vue des patients - TYSAD 35
Responsable traitement	du CHU de Rennes, 2 rue Henri le Guilloux, 35033 Rennes cedex 9
Investigateur coordonnateur	Le Page, Emmanuelle
Si applicable Investigateur(s) associé(s)	Lamy, Simon Veillard, David
Code essai	35RC21_8924_TYS-HAD-35.
Version du protocole	[N°1 et 19/11/2019]
CER	Date d'avis : Numéro d'avis :
CNIL	Projet conforme à la méthodologie de référence MR004. Date de déclaration : 20 août 2018. N° de déclaration : 2205295 v 0
Contexte et justification	Le contexte d'épidémie de COVID-19 a été à l'origine de réflexions sur les possibilités de diminuer les mouvements de patients dans les locaux des hôpitaux. Un exemple concret est l'autorisation par les autorités de santé d'administrer à domicile un traitement de fond de la sclérose en plaques (SEP), en hospitalisation à domicile (HAD) alors qu'il avait lieu jusqu'à présent exclusivement en hôpital de jour (HDJ), en perfusions mensuelles : il s'agit du natalizumab (une biothérapie) (<i>Miller et al., 2008 ; Rudick et al., 2008</i>). Profitant de cette mesure, l'HDJ de neurologie du CHU de Rennes met en place la procédure en collaboration avec l'HAD 35. Un travail d'évaluation de cette nouvelle pratique est proposé. Depuis plusieurs années, l'implication des patients dans la conduite de leurs parcours de

	<p>soins est de mieux en mieux prise en compte par les politiques de santé publique. Les préférences des patients, mais aussi de leurs aidants, deviennent des éléments déterminants des choix réalisés pour améliorer les conditions de leurs traitements et de leur suivi. Les outils développés sont identifiés dans la littérature sous l'intitulé de Patient-Reported Experience Measures (PREM). A côté de l'évaluation de leur satisfaction, largement déployée dans le cadre des séjours hospitaliers mais dont les limites sont désormais reconnues, la mesure de l'expérience des patients fait partie de cette démarche (<i>Bombard et al., 2018</i>). Il s'agit d'interroger leur vécu tout au long de leurs interactions avec le système de soins et ses professionnels, selon une approche plus factuelle et objective. De nouvelles méthodes et de nouveaux outils ont été développés pour recueillir cette expérience (méthode du parcours patient traceur, questionnaires de mesure de l'expérience patient...). Il s'agit d'outils et de méthodes génériques, non spécifiques de telle ou telle pathologie, et ciblant le plus souvent le temps d'un séjour hospitalier (<i>Mira et al., 2016</i>).</p> <p>Depuis plusieurs années, notre équipe mène des travaux pour mieux mesurer la qualité des soins pour les patients atteints d'une SEP en France. Parmi les outils que nous avons développés, nous avons validé le 1^{er} questionnaire mesurant l'expérience de ces patients et de leur aidant naturel (MusiCare) et permettant de prendre en compte leur vécu sur plusieurs mois et pour l'ensemble des interactions avec le système de soins et non plus seulement lors d'un séjour hospitalier (<i>Veillard D et al., 2021</i>).</p> <p>Le recueil de l'expérience de patients traités par natalizumab et pris en charge à leur domicile dans le cadre d'une HAD, à l'occasion de chaque perfusion mensuelle et à l'issue de plusieurs mois de traitement, constitue une expérimentation innovante inédite à ce jour en France mais aussi, à notre connaissance, dans le monde. Ces résultats, couplés à ceux de l'évaluation de la qualité de vie de ces patients, permettront de disposer de données précieuses, complémentaires des données cliniques, pour évaluer la préférence des patients pour l'administration de leur traitement de fond.</p>
<p>Objectif principal et critère de jugement principal</p>	<p>Objectif principal</p> <p>Evaluer l'expérience de patients atteints d'une SEP et traités par natalizumab à domicile dans le cadre d'un protocole HAD</p> <p>Critère de jugement principal :</p> <p>Différence des scores globaux et scores par dimension du questionnaire MusiCare entre Baseline et 6 mois et entre Baseline et 12 mois</p>

(Si applicable) Objectif(s) secondaire(s) et Critère(s) de jugement associé(s)	<p>Objectif(s) secondaire(s) :</p> <p>Evaluer l'expérience de ces patients et leur qualité de vie à l'issue de chaque cure de natalizumab</p> <p>Evaluer le choix des patients de passer ou non d'un traitement en HDJ à un traitement en HAD ainsi que les raisons</p> <p>Critères de jugement secondaires :</p> <ul style="list-style-type: none"> - Score global et scores par dimensions du questionnaire issu du PPE-15 (<i>Jenkinson et al., 2002</i>) au décours de chaque cure - Score global et scores par dimension du questionnaire MusiQol (<i>Simeoni et al., 2008</i>) à l'issue de chaque cure et différence des scores entre baseline et 6 mois et baseline et 12 mois - Accord ou non pour un passage en HAD ; question ouverte pour documenter les raisons de la réponse
Méthodologie de la recherche	Enquête transversale descriptive
Population concernée	<p>Critères d'inclusion</p> <p>Groupe natalizumab :</p> <ul style="list-style-type: none"> - Age : 18 ans et plus - Diagnostic de SEP confirmé selon les critères de Mac Donald 2017 - -Traitement par natalizumab administré dans les locaux de l'HDJ Neurologique du CHU Pontchaillou depuis au moins six mois - Domicile inclus dans la zone géographique d'intervention de l'HAD - Personne ne s'opposant pas à sa participation à la recherche. <p>Groupe natalizumab HAD :</p> <ul style="list-style-type: none"> - Mis en place d'un traitement par natalizumab administré à domicile <p>Critères de non inclusion</p> <ul style="list-style-type: none"> - Patient ayant indiqué son refus de participer à l'étude - Incapables majeurs, majeurs faisant l'objet d'une mesure de protection légale (sauvegarde de justice, curatelle, tutelle), personnes privées de liberté.
Déroulement de la recherche	Comme autorisée par les autorités de santé, les patients actuellement traités par natalizumab dans le service de neurologique du CHU de Rennes et pouvant bénéficier de l'intervention HAD seront informés de cette nouvelle prise en charge.

	<p>Les patients ayant choisi l'intervention HAD seront informés du projet et ceux qui acceptent de participer seront sollicités pour compléter les questionnaires.</p> <p>Chacun complètera une 1^{ère} version des questionnaires MusiQol et PPE 15 à baseline (avant la première cure en HAD) puis, à l'issue de chaque cure mensuelle de natalizumab (dans les 24h) et ce pendant 12 mois.</p> <p>Le questionnaire MusiCare sera également complété à baseline puis à 6 mois et 12 mois selon les mêmes modalités.</p> <p>Les données socio démographiques seront recueillies auprès du patient, par questionnaire à baseline.</p>
Nombre de centres	1
Justification du nombre de sujets	Environ 40 patients de la file active du service de neurologie pourraient répondre aux critères d'inclusion de l'étude. L'étude sera donc proposée à tous.
Méthode d'analyse des données	<p>Les analyses statistiques sont réalisées à l'aide des logiciels SAS version 9.4 (SAS Institute, Cary, NC, USA).</p> <p>L'ensemble des analyses sera réalisé avec un seuil de significativité de 5%.</p> <p>Analyse descriptive et calcul de scores :</p> <ul style="list-style-type: none"> - Une première analyse descriptive des données socio-démographiques (à baseline) et des scores par questionnaire (à chaque temps de recueil) sera réalisée. Elle comportera des estimations ponctuelles, nombres et pourcentages pour les variables qualitatives, moyennes, écart-types, médianes et intervalles interquartiles pour les variables quantitatives. <p>Afin de calculer les scores à chaque temps de recueil et pour chaque questionnaire (MusiCare, MusiqQol et PPE15), le score pour chaque item sera calculé. Ensuite, la moyenne des scores des items constituant chaque dimension est calculée pour obtenir le score de chaque dimension. Chaque score représente une valeur variant sur une échelle de 0 à 100 (la valeur 100 représente un niveau de qualité de vie maximal). Un score global de qualité de vie sera également calculé en faisant la moyenne des scores de toutes les dimensions constituant chaque questionnaire. Pour chaque dimension, le score est calculé si au moins la moitié des items est disponible. Si non, le score est reporté comme manquant.</p> <p>Analyse du critère principal :</p> <p>Concernant le critère de jugement principal, les différences des scores globaux du questionnaire MusiCare entre M0 et M6, M0 et M12 et entre</p>

	<p>M6 et M12 seront calculées et testées par le test de Wilcoxon pour données appariées.</p> <p>La différence des scores pour chacune des dimensions du questionnaire Musicare entre M0 et M6, M0 et M12 et entre M6 et M12 sera également calculée et testée par le test de Wilcoxon pour données appariées.</p> <p>Analyse des critères secondaires :</p> <p>Concernant les critères de jugement secondaires, les différences des scores globaux du questionnaire MusiQol entre M0 et M6, M0 et M12 et entre M6 et M12 seront calculées et testées par le test de Wilcoxon pour données appariées.</p> <p>De même, l'ensemble des différences des scores pour chacune des dimensions du questionnaire MusiQol seront également calculées selon le même modèle et testées par le test de Wilcoxon pour données appariées.</p> <p>Les différences des scores globaux et scores par dimension du questionnaire issu du PPE-15 au décours de chaque cure (M0, M1, ..., M12) seront également calculées et testées par le test de Wilcoxon pour données appariées.</p> <p>Les raisons pour lesquelles les patients ont choisi le passage en HAD seront aussi reportées.</p>
Durée de la recherche	<p>Les patients seront recrutés selon les modalités décrites pendant une période de 6 mois. Le temps pour compléter les questionnaires est estimé au maximum à 1h.</p> <p>Durée de suivi des participants : les participants seront sollicités chaque mois à l'occasion de leur cure mensuelle de natalizumab pendant une période totale de 12 mois</p> <p>Durée de traitement des données et rapports : 3 mois</p> <p>Durée totale : 18 mois (y compris la mise à disposition et la diffusion des résultats)</p>
Information et recueil de la non opposition	<p>Les participants seront informés de façon complète et loyale, en des termes compréhensibles, des objectifs de l'étude, de leurs droits de refuser de participer à l'étude ou de la possibilité de se rétracter à tout moment.</p> <p>Groupe Natalizumab :</p> <p>Chaque patient pris en charge au CHU de Rennes, est informé individuellement, depuis mai 2020, d'une réutilisation possible de ses données pour une finalité recherche. Son opposition est recueillie. Une</p>

	<p>information collective sera diffusée sur le site internet du CHU de Rennes, comme mentionné dans l'information individuelle diffusée.</p> <p>Avant la collecte des données, l'investigateur s'assurera auprès du département de l'information médicale de l'absence d'opposition de chaque patient sélectionné</p> <p>Groupe natalizumab HAD :</p> <p>Une note d'information individuelle sera remise à chaque patient.</p> <p>Un questionnaire complété sera interprété comme une absence d'opposition.</p>
<p>Résultats escomptes et perspectives</p>	<p>L'évaluation de l'expérience des patients vis-à-vis d'une nouvelle modalité de leur prise en charge, permettra d'en valoriser les points forts, d'identifier des besoins non couverts et ainsi de proposer des axes d'amélioration de cette prise en charge.</p>
<p>Origine et nature des données recueillies</p>	<p>Listing des données recueillies :</p> <ul style="list-style-type: none"> ○ Identification : <input checked="" type="checkbox"/> OUI <input type="checkbox"/> NON <p>Mois et année de naissance, sexe ; les nom(s) et prénom(s) ne seront pas requêtés.</p> <p>Après accord de participation, un code sera attribué à chaque patient à partir d'une liste de randomisation générée par le biostatisticien du service d'Epidémiologie et de Santé Publique. Cette liste est transmise aux investigateurs de l'étude (Dr E.Le Page et Dr S.Lamy). Ils assigneront un numéro d'anonymisation à chaque patient inclus pour toute la durée de l'étude. Les données issues des réponses des patients aux questionnaires seront reliées à ce numéro sans informations d'identification pour l'équipe assurant le data management et l'analyse des données.</p> <ul style="list-style-type: none"> ○ Données de santé : <input checked="" type="checkbox"/> OUI <input type="checkbox"/> NON <p>Traitement de fond et niveau de handicap</p> <ul style="list-style-type: none"> ○ Photographie et/ou vidéo et/ou enregistrements vocaux: <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON ○ Dates relatives à la conduite de la recherche : <input checked="" type="checkbox"/> OUI <input type="checkbox"/> NON date d'information, date des visites ○ Origine ethnique : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON ; ○ Données génétiques : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON ○ Situation familiale : <input checked="" type="checkbox"/> OUI <input type="checkbox"/> NON <p>Information concernant la présence d'un proche aidant</p>

	<p>○ Niveau de formation : <input checked="" type="checkbox"/> OUI <input type="checkbox"/> NON</p> <p>Niveau d'étude et profession.</p> <p>○ Catégorie socio-professionnelle : <input checked="" type="checkbox"/> OUI <input type="checkbox"/> NON</p> <p>Profession ; champ libre.</p> <p>○ Vie professionnelle : <input checked="" type="checkbox"/> OUI <input type="checkbox"/> NON</p> <p>Activité professionnelle à temps plein, mi-temps ou arrêt en lien avec la SEP.</p> <p>○ Régime d'affiliation à la sécurité sociale : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON</p> <p>○ Participation à d'autres recherches ou études : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON</p> <p>○ Déplacements : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON</p> <p>○ Consommation de tabac, alcool, drogues : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON</p> <p>○ Habitudes de vie et comportements : <input checked="" type="checkbox"/> OUI <input type="checkbox"/> NON</p> <p>Lieu d'habitation : domicile, chez un proche, en institution.</p> <p>○ Mode de vie : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON</p> <p>○ Vie sexuelle : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON ;</p> <p>○ Statut vital : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON</p> <p>○ Montant annuel des indemnités perçues : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON</p> <p>○ Echelle de qualité de vie ou autre information sur la qualité de vie de la personne : <input checked="" type="checkbox"/> OUI <input type="checkbox"/> NON</p> <p>○ Remboursement des frais engagés par la personne concernée, liés à la recherche : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON</p> <p>○ Autres données : <input type="checkbox"/> OUI <input checked="" type="checkbox"/> NON</p> <p>Leur(s) source(s) :</p> <p>Directement auprès des patients</p>
Recueil des données	<p>Mode de recueil :</p> <p>1. <u>Table de correspondance</u> : <input type="checkbox"/> Papier <input checked="" type="checkbox"/> Informatique</p> <p>2. <u>Données issues du dossier patient</u> : <input type="checkbox"/> Papier <input checked="" type="checkbox"/> Informatique <input type="checkbox"/> Non applicable</p> <p>3. <u>Données issues d'une base de données existante</u> : <input type="checkbox"/> Papier <input type="checkbox"/> Informatique <input checked="" type="checkbox"/> Non applicable</p> <p><input type="checkbox"/> Extraction du PMSI/ DX care</p> <p><input type="checkbox"/> Extraction d'autres bases :</p> <p>Préciser la ou les base(s) :.....</p>

	<p>Préciser le responsable de traitement :.....</p> <p>4. <u>Questionnaires renseignés avec/par les patients</u> : <input type="checkbox"/>Papier <input checked="" type="checkbox"/> Informatique <input type="checkbox"/>Non applicable</p> <p>5. <u>Questionnaires renseignés avec/par les professionnels</u> : <input type="checkbox"/> Papier <input type="checkbox"/> Informatique <input checked="" type="checkbox"/> Non applicable</p> <p>6. <u>Enregistrement Audio/Vidéo/Image</u> : <input type="checkbox"/> Papier <input type="checkbox"/> Informatique <input checked="" type="checkbox"/>Non applicable</p> <p>7. <u>Autres, préciser</u>: <input type="checkbox"/> Papier <input type="checkbox"/> Informatique <input checked="" type="checkbox"/> Non applicable</p> <p>Lieu(x) d'hébergement :</p> <p><input type="checkbox"/> Dans le service de soin dans des locaux fermés à clé</p> <p>↳ Traitements concernés : <input type="checkbox"/> 1 ; <input type="checkbox"/> 2 ; <input type="checkbox"/> 3 ; <input type="checkbox"/> 4 ; <input type="checkbox"/> 5 ; <input type="checkbox"/> 6 ; <input type="checkbox"/> 7 ; <input type="checkbox"/></p> <p><input checked="" type="checkbox"/> Au sein de l'espace du serveur du CHU de Rennes restreint à l'équipe projet chargée du suivi et de la coordination de la recherche</p> <p>↳ Traitements concernés : <input checked="" type="checkbox"/> 1 ; <input type="checkbox"/> 2 ; <input type="checkbox"/> 3 ; <input checked="" type="checkbox"/> 4 ; <input type="checkbox"/> 5 ; <input type="checkbox"/> 6 ; <input type="checkbox"/> 7 ; <input type="checkbox"/></p> <p><input type="checkbox"/> Autres préciser :</p> <p>↳ Traitements concernés : <input type="checkbox"/> 1 ; <input type="checkbox"/> 2 ; <input type="checkbox"/> 3 ; <input type="checkbox"/> 4 ; <input type="checkbox"/> 5 ; <input type="checkbox"/> 6 ; <input type="checkbox"/> 7 ; <input type="checkbox"/></p>
Circuit des données	<p>Table de correspondance :</p> <p>Tenue à jour par : l'équipe d'investigation du centre</p> <p>Accessible à : l'équipe d'investigation du centre</p> <p>Mode de sécurisation/protection : Protégé par un mot de passe spécifique / fichier indépendant des données des questionnaires</p> <p>Cette table est conservée par le service de soins et ne peut être transférée.</p> <p>Données issues du dossier patient : <input checked="" type="checkbox"/> Non applicable</p> <p>Collectées par</p> <p>En utilisant le logiciel : .</p> <p>Accessible à : l'équipe d'investigation du centre / à l'équipe projet chargée du suivi et de la coordination de la recherche</p> <p>Mode de sécurisation/protection : Protégé par un mot de passe</p> <p>Données issues d'une base de données existante : . <input checked="" type="checkbox"/> Non applicable</p>

	<p>Extraction réalisée par l'administrateur de la base de données qui conserve la table de correspondance (Non applicable si extraction PMSI), sous un format, protégée par un mot de passe. (les codes patient de la base source sont différents des code patient de la base recherche (Non applicable si extraction PMSI)).</p> <p>Transmise àpar (préciser la modalité de sécurisation : messagerie sécurisée, remise en main propre ..)</p> <p>Accessible à :</p> <p>Questionnaires renseignés avec/par les patients : <input type="checkbox"/> Non applicable</p> <p>Saisies par les patients</p> <p>En utilisant le logiciel : Sphinx</p> <p>Accessible à : Accès patient limité à son questionnaire de saisie / Accès à tous les questionnaires pour l'équipe en charge de l'étude</p> <p>Mode de sécurisation : Lien d'accès remis individuellement au patient / code patient saisi dans l'e-CRF par le patient / pas de données directement identifiantes (mail ou IP)</p> <p>Questionnaires renseignés avec/par les professionnels : <input checked="" type="checkbox"/> Non applicable</p> <p>Saisies par</p> <p>En utilisant le logiciel :</p> <p>Accessible à :</p> <p>Mode de sécurisation/protection :</p> <p>Enregistrement Audio/Vidéo/Image : <input checked="" type="checkbox"/> Non applicable</p> <p>Analysé par</p> <p>Données issues de l'analyse collectées sous un format <input type="checkbox"/> Papier <input type="checkbox"/> Informatique</p> <p>En utilisant le logiciel :</p> <p>Saisies par</p> <p>Accessible à :</p> <p>Mode de sécurisation/protection :</p> <p>Autre, préciser: <input checked="" type="checkbox"/> Non applicable</p> <p>Saisies par</p> <p>En utilisant le logiciel :</p> <p>Accessible à :</p>
--	--

	<p>Mode de sécurisation/protection :</p> <p>Transfert des bases de données : <input checked="" type="checkbox"/> Non applicable</p> <p>Transmise à via Blue Files</p> <p>Mot de passe : transmis àpar messagerie professionnelle</p> <p>Fusion des bases de données réalisée par <input checked="" type="checkbox"/> Non applicable</p> <p>Analyses statistiques réalisées par un bio statisticien du service d'Epidémiologie et de Santé Publique du CHU de Rennes avec le logiciel SAS.</p> <p>Base de données accessible à une personne extérieure au CHU de Rennes : <input type="checkbox"/> Oui <input checked="" type="checkbox"/> Non</p> <p>Si oui, préciser les modalités de transfert :.....</p> <p>Equipe projet chargée du suivi et de la coordination de la recherche : Investigateur coordonnateur, méthodologiste, ingénieur de recherche, Statisticien</p> <p>Les données seront conservées par l'investigateur jusqu'à deux ans après la dernière publication des résultats de la recherche ou, en cas d'absence de publication, jusqu'à la signature du rapport final de la recherche. Elles feront ensuite l'objet d'un archivage sur support papier ou informatique pour une durée maximale de 20 ans après la fin de l'étude.</p> <p>⇒ Pas de données extraites de systèmes d'informations existants ou de bases d'études déjà réalisées</p> <p>⇒ Aucun transfert de données n'est prévu en dehors de l'UE</p>
Accès aux données	<p>Conformément aux processus qualité du CHU de Rennes :</p> <ul style="list-style-type: none"> - le responsable est chargé d'obtenir l'accord de l'ensemble des parties impliquées dans la recherche afin de garantir l'accès direct à tous les lieux de déroulement de la recherche, aux données sources, aux documents sources et aux rapports dans un but de contrôle de qualité et d'audit par le responsable, - les investigateurs mettront à disposition des personnes chargées du contrôle de qualité ou de l'audit de la recherche, les documents et données individuelles strictement nécessaires à ce contrôle.

<p>Confidentialité des Données</p>	<p>Conformément aux dispositions législatives en vigueur, les personnes ayant un accès direct aux données sources prendront toutes les précautions nécessaires en vue d'assurer la confidentialité des informations relatives aux recherches, aux personnes qui s'y prêtent et notamment en ce qui concerne leur identité ainsi qu'aux résultats obtenus. Ces personnes, au même titre que les personnes qui dirigent et surveillent la recherche, sont soumises au secret professionnel selon les conditions définies par les articles 226-13 et 226-14 du code pénal).</p> <p>Pendant la recherche ou à son issue, les données recueillies sur les personnes qui s'y prêtent et transmises au responsable du traitement par les personnes qui dirigent et surveillent la recherche (ou tous autres intervenants spécialisés) seront codifiées. Elles ne doivent en aucun cas faire apparaître en clair les noms des personnes concernées ni leur adresse.</p> <p>Le responsable du traitement s'assurera que chaque investigateur se soit engagé à informer chaque personne qui se prête à la recherche, de l'accès aux données individuelles la concernant et strictement nécessaires au contrôle de qualité de la recherche.</p>
<p>Audit et Inspection</p>	<p>L'investigateur et les personnes associées s'engagent à accepter les éventuels audits d'assurance qualité effectués par le responsable du traitement de l'étude ainsi que les inspections effectuées par les autorités. Toutes les données, tous les documents et rapports peuvent faire l'objet d'audits et d'inspections réglementaires sans que puisse être opposé le secret médical. L'audit pourra s'appliquer à tous les stades de la recherche, du développement du protocole à la publication des résultats et au classement des données utilisées ou produites dans le cadre de la recherche.</p>
<p>Bibliographie</p>	<p>Bombard Y, Baker GR, Orlando E, Fancott C, Bhatia P, Casalino S, Onate K, Denis JL, Pomey MP. Engaging patients to improve quality of care: a systematic review. <i>Implement Sci</i> 2018;13:98.</p> <p>Jenkinson C, Coulter A and Bruster S. The Picker patient Experience Questionnaire: development and validation using data from in-patient survey in five countries. <i>Int J Qual Health Care</i> 2002;14:353-358.</p> <p>Miller DH, Khan OA, Sheremata WA, Blumhardt LD, Rice GPA, Libonati MA, Willmer-Hulme AJ, Dalton CM, Miszkiel KA, O'Connor PW, International Natalizumab Multiple Sclerosis Trial Group A controlled trial of natalizumab for relapsing multiple sclerosis <i>N Engl J Med</i> 2003; 348 : 15-23</p> <p>Mira JJ, Nuño-Solinís R, Guilabert-Mora M, Solas-Gaspar O, Fernández-Cano P, González-Mestre MA, Contel JC, Del Rio-Camara M.</p>

	<p>Development and Validation of an Instrument for Assessing Patient Experience of Chronic Illness Care. <i>Int J Integr Care</i> 2016;16:13.</p> <p>Rudick RA, Stuart WH, Calabresi PA, Confavreux C, Galetta SL, Radue EW, Lublin FD, Weinstock-Guttman B, Wynn DR, Lynn F, Panzara MA, Sandrock AW, SENTINEL Investigators. Natalizumab plus interferon beta-1a for relapsing multiple sclerosis. <i>N Engl J Med</i> 2006; 354: 911-923.</p> <p>Simeoni MC, Auquier P, Fernandez O, Flachenecker P, Stecchi S, Constantinescu C, Idiman E, Boyko A, Beiske AG, Vollmer T, Triantafyllou N, O'Connor P, Barak Y, Biermann L, Cristiano E, Atweh S, Patrick DI, Robitail S, Ammoury N, Beresniak A, Pelletier J, MusiQoL study group. Validation of the Multiple Sclerosis International Quality of Life questionnaire. <i>Mult Scler</i> 2008;14:219-230.</p> <p>Veillard D, Baumstarck K, Edan G, Debouverie M, Wiertlewski S, De Sèze J, Clavelou P, Pelletier J, Verny C, Chauvin K, Cosson ME, Loundou A, Auquier P. Assessing the experience of the quality of care of patients living with multiple sclerosis and their caregivers: The MusiCare questionnaire. <i>Eur J Neurol.</i> 2021 Mar;28(3):910-920.</p>
Liste des Annexes	<p>Annexe 1 : Questionnaire MusiCare</p> <p>Annexe 2 : Questionnaire MusiQoL</p> <p>Annexe 3 : Questionnaire PPE-15</p>